

多系統萎縮症 (Multiple System Atrophy : MSA) 患者の QOL 測定に関する文献検討 — 先行研究の現状と評価指標の課題 —

Quality of Life Measurement of Patients with Multiple System Atrophy:
Prior Research and Limitations of Evaluation Index

押領司 民¹⁾, 浅川 和美²⁾
ORYOJI Tami, ASAKAWA Kazumi

要 旨

目的：MSA 患者の主観的 QOL を、指標を用いて測定した先行研究を検討し、既存研究の傾向と評価指標の課題について検討した。

対象と方法：PubMed, 医学中央雑誌 Web, Ver.5 を用い文献検索を行った。研究目的, 対象者, 結果等について整理し, QOL 測定に用いられていた尺度の構成要素を WHO の関連領域毎に分類した。また, 研究目的をカテゴリー化した。

結果・考察：先行研究は, QOL を測定する尺度の評価や, QOL との関連要因, 実態調査といった報告が多く, 保健・医療・福祉サービスの効果を QOL を指標にして測定した報告は限られていた。MSA 患者の QOL は, WHO の QOL の定義における, 【身体的健康】【心理的状态】【自立のレベル】等の保健・医療・福祉サービスの介入によって変化する側面に限定して測定されていた。MSA 患者の QOL として患者の QOL 評価に用いられているのは, SF-36 や EQ-5D などの普遍的尺度が多く, MSA-QOL は重症度の指標よりも反応しにくいことが指摘されていた。

キーワード 多系統萎縮症, 生活の質, QOL 評価, QOL 評価尺度

Key Words : Multiple System Atrophy: MSA, Quality of Life, Quality of Life Assessment, Quality of Life Scale

1. はじめに

多系統萎縮症 (multiple system atrophy : 以下 MSA) は, 厚生労働省が指定する特定疾患であり, 原因は十分には解明されておらず, 根本的な治療方法は未確立である。MSA は発症から数年の短期間で, 歩行障害や嚥下障害, 排尿障害などの多様な症状が次々と出現し¹⁾, 生活上の課題は多岐にわたる。経過は進行性であり, 最終的には, 自力での日常生活動作 (activities of daily

living : ADL) がほとんど行えなくなり, 寝たきりの状態となる。多くの患者が日常生活に支障をきたし何らかの介助が必要とされ²⁾, 精神的, 身体的, 経済的に様々な苦悩や困難を感じながら療養生活を続けている³⁾。MSA 患者の生活や人生は大きな困難を強いられていると言え, 根本的な治療方法が確立されていない現状においては, 患者が最期まで希望を失わずに自分らしい療養生活を送ることに着目し, その質を高めること, すなわち生活の質 (Quality of Life : QOL) の向上を目指すことが重要となる。

また, 保健・医療・福祉サービスの提供者が患者の QOL の向上を目指すためには, 適切な指標をもって患者自身の意見に基づいて適切に測定される必要がある。患者自身の意見に基づく QOL, つまり主観的 QOL が適切に測定される意義として, 治療方針がサービス提供者の恣意的な判断に委ねられることを防ぎ, 患者が自ら保健・医療・福祉サービスを選択することにつながるこ

受理日：2020 年 12 月 25 日

1) 山梨勤労者医療協会 共立高等看護学院 : Kyoritsu Nursing School

2) 山梨大学大学院医学工学総合研究部 基礎・臨床看護学講座 : University of Yamanashi, Graduate School of Interdisciplinary Research, Faculty of Medicine, Division of Nursing Science (Fundamental and Clinical Nursing)

とがあげられる⁴⁾⁵⁾。加えて、指標を用いてQOLを測定することの意義として、測定したQOLを活用することが可能となることがあげられる。例えば、QOLに影響する要因を同定することや、QOLの変化を基準として保健・医療・福祉サービスの評価をすること、QOLを比較すること等が可能となる。中でもMSAのような難病はQOLを測定することの意義が大きい。なぜなら、現在の医療では根治し得ず、慢性進行性の病態を呈するため、治療・介入の評価は、ADLや症状の変化では測定しきれず、適切な指標を用いてQOLを測定し、治療、看護、サービス、環境改善を評価することが必要であるからである⁶⁾。

そこで本研究では、MSA患者の主観的QOLを、何らかの指標を用いて測定した先行研究を検討し、既存研究の特徴と評価指標の課題について明らかにすることを目的に、文献検討を行った。

II. 研究方法

1. QOLの概念と本研究におけるQOLの定義

医療・保健・福祉分野における国際的な定義としては、WHO (World Health Organization: 国際保健機関) のものが代表的である。WHOはQOLを「一個人が生活する文化や価値観のなかで、目標や期待、基準、関心に関連した自分自身の人生の状況に対する認識」と定義しており、さらに「個人の身体的な健康、心理状態、自立のレベル、社会的関係、個人的な信念、および環境との関係性などによって複雑に影響を受けた幅広い範囲の概念である。」としている。つまりQOLとは、自分自身の身体的な健康、心理状態、自立のレベル、社会的関係などの個人の認識のことである。

本研究においてQOLとは、患者が評価する主観的QOLを指し、何らかの指標を用いて測定することができるQOLとする。

2. 文献の抽出方法

英文文献を検索するデータベースにはPubMedを用いた。キーワードは「multiple system atrophy」and「Quality of Life」とした。和文献を検索するデータベースには医学中央雑誌 Web 版 Ver. 5を用いた。収載誌発行年は指定せず、原著論文を絞り込み条件とし、キーワードは「多系統萎縮症」and「生活の質」とした。

3. 文献検討の方法

対象となる文献を精読し、掲載誌・発表年、QOL測定に用いられている尺度等を整理した(表1)。また、WHOのQOLの領域を参考に、QOL測定に用いられている尺度の下位項目を整理した(表2)。なおこの際には、

全体的なQOLを問う尺度と性生活に限定しそれに伴うQOLの低下を問う尺度は、項目が無いため比較から除した。また、個人の生活の質評価法 (Schedule for the Evaluation of Individual Quality of Life: SEIQoL) も、統一された項目が無いため比較から除した。

さらに、研究目的を類似した内容毎にカテゴリー化した(表3)。

III. 結果

英文文献は139件が抽出された(2018年11月25日)。この中でMSA患者を対象にして主観的QOLを何らかの指標を用いて測定している論文は20件であった。和文献は14件が検索され、この中でMSA患者を対象にして主観的QOLを何らかの指標を用いて評価している論文は3件であった。このうち、英文文献と重複しているものを除くと対象となる論文は2件であった。つまり、研究目的に沿った論文は合計22件であり、この22件を分析対象とした(表1)。

1. MSA患者の主観的QOLを何らかの指標を用いて評価した文献(表1)

対象となる文献を精読し、発表年、掲載誌、QOL測定に用いられている尺度等を整理した。

MSAのQOLを測定するために最も多く用いられていた尺度は、MOS 36-Item Short-Form Health Survey (SF-36)⁷⁾の9件(文献①, ②, ⑧, ⑪, ⑬, ⑮, ⑱, ⑲, ⑳)と5次元ユーロQOL (EuroQol 5 Dimension: EQ-5D)⁸⁾の7件(文献⑥, ⑦, ⑨, ⑫, ⑭, ⑯, ⑳)であった。次いでMSA-QOLが5件(文献⑤, ⑦, ⑧, ⑩, ⑭)⁹⁾、39項目のパーキンソン病質問票 (Parkinson's Disease Questionnaire-39:PDQ-39)¹⁰⁾が4件(文献③, ⑭, ⑰, ㉑)であった。この他、8項目のパーキンソン病質問票 (Parkinson's Disease Questionnaire-8:PDQ-8)¹¹⁾ (文献⑨)と神経難病患者の主観的QOL評価尺度¹²⁾ (文献⑬)、SEIQoL¹³⁾ (文献④)を用いた研究が1件ずつであった。この他、全体的なQOLを問う尺度として、visual analogue scale (VAS)¹⁴⁾で回答する研究が2件(文献⑰, ⑲)、「非常に満足している」～「非常に不満である」の6件法で回答する研究が1件(文献㉒)であった。上記以外では、性生活に限定しそれに伴うQOLの低下を「軽度」～「高度」の3段階で評価した研究が1件(文献㉓)であった(表2)。

2. QOL測定に用いられた尺度の下位項目 (WHO/QOL領域別分類) (表2)

MSAにおけるQOLは、WHOのQOLの領域における、「身体的健康」「心理的状态」「自立のレベル」「社会的

表 1 MSA 患者の QOL を定量的に測定した論文と用いられた尺度

No.	論文名	著者(発表年)	掲載紙 / 出版国	QOL 尺度
①	Factors associated with deterioration of health-related quality of life in multiple system atrophy: 1-year follow-up study.	Jecmenica-Lukic MV et al. (2018)	Acta Neurologica Belgica / ITALY	SF-36 ^{注1)}
②	Neuropsychological and clinical heterogeneity of cognitive impairment in patients with multiple system atrophy.	Barcelos LB et al. (2018)	Clinical Neurology and Neurosurgery / NETHERLANDS	SF-36
③	Non-motor symptoms and the quality of life in multiple system atrophy with different subtypes.	Zhang L et al. (2017)	Parkinsonism & Related Disorders / ENGLAND	PDQ-39 ^{注2)}
④	Specialist palliative care improves the quality of life in advanced neurodegenerative disorders: NE-PAL, a pilot randomised controlled study.	Veronese S et al. (2017)	BMJ Support Palliat Care / ENGLAND	SEIQoL-DW ^{注3)}
⑤	Comparison of Different Symptom Assessment Scales for Multiple System Atrophy.	Matsushima M et al. (2016)	The Cerebellum / UNITED STATES	MSA-QOL ^{注4)}
⑥	Health-related quality of life and supportive care in patients with rare long-term neurological conditions.	Calvert M et al. (2013)	Quality of Life Research / NETHERLANDS	EQ-5D ^{注5)}
⑦	MSA-QOL: disease-specific questionnaire to assess health-related quality of life in multiple system atrophy: validation of the German translation.	Krismer F et al. (2013)	Der Nervenarzt / GERMANY	MSA-QOL, EQ-5D
⑧	Validation of the French version of the MSA health-related Quality of Life scale (MSA-QOL).	Meissner WG et al. (2013)	Revue neurologique / FRANCE	MSA-QOL, SF-36
⑨	Symptoms and quality of life in late stage Parkinson syndromes: a longitudinal community study of predictive factors.	Higginson IJ et al. (2012)	PLOS ONE / UNITED STATES	EQ-5D, PDQ-8 ^{注6)}
⑩	Assessment of quality of life with the multiple system atrophy health-related quality of life scale.	Meissner WG et al. (2012)	Movement Disorders / UNITED STATES	MSA-QOL
⑪	Health-related quality of life among community-dwelling patients with intractable neurological diseases and their caregivers in Japan.	Miyashita M et al. (2011)	Psychiatry and Clinical Neuroscience / AUSTRALIA	患者: SF-36 介護者: SF-8 ^{注7)}
⑫	Health-related quality of life in multiple system atrophy and progressive supranuclear palsy.	Winter Y et al. (2011)	Neuro-degenerative Diseases / SWITZERLAND	EQ-5D
⑬	Comparison of quality of life in multiple system atrophy and Parkinson's disease.	Torny F et al. (2009)	Revue neurologique / FRANCE	SF-36
⑭	Measuring health-related quality of life in MSA: the MSA-QOL.	Schrag A et al. (2007)	Movement Disorders / UNITED STATES	ステージ 2: MSA-QOL ステージ 3: MSA-QOL PDQ-39 EQ-5D
⑮	Progression of dysautonomia in multiple system atrophy: a prospective study of self-perceived impairment.	Köllensperger M et al. (2007)	European Journal of Neurology / ENGLAND	SF-36
⑯	在宅生活をしている脊髄小脳変性症療養者の主観的 QOL とその要因	押領司民 (2007)	日本難病看護学会誌 / 日本	神経難病患者の主観的 QOL 評価尺度
⑰	Testing the validity of the PDQ-39 in patients with MSA.	Schrag A et al. (2007)	Parkinsonism & Related Disorders / ENGLAND	PDQ-39 EQ-5D 生活満足度 (0-100)
⑱	Health-related quality of life in multiple system atrophy.	Schrag A et al. (2006)	Movement Disorders / UNITED STATES	SF-36 EQ-5D
⑲	Depressive symptoms and life satisfaction in patients with multiple system atrophy.	Benrud-Larson LM et al. (2005)	Movement Disorders / UNITED STATES	SF-36 VAS ^{注8)} (0 = Extremely Dissatisfied, 100 = Extremely Satisfied)
⑳	Occupational therapy in multiple system atrophy: a pilot randomized controlled trial.	Jain S et al. (2004)	Movement Disorders / UNITED STATES	PDQ-39 SF-36
㉑	機能障害の自律神経性機序 Parkinson 病と多系統萎縮症における性機能障害	榊原 隆次 他 (2002)	自律神経 / 日本	QOL の低下の程度を 3 段階で評価(軽度, 中等度, 高度)
㉒	Treatment of erectile dysfunction with sildenafil citrate (Viagra) in parkinsonism due to Parkinson's disease or multiple system atrophy with observations on orthostatic hypotension.	Hussain IF et al. (2001)	Journal of Neurology, Neurosurgery & Psychiatry / ENGLAND	生活全般について「非常に満足している」～「非常に不満である」の 6 件法で回答

注 1) SF-36: MOS 36-Item Short-Form Health Survey

注 2) PDQ-39: パーキンソン病質問票 39 項目 (Parkinson's Disease Questionnaire-39)

注 3) SEIQoL-DW: 個人の生活の質評価スケール (Schedule for the Evaluation of Individual Quality of Life)

注 4) MSA-QOL: 多系統萎縮症 QOL 評価尺度 (health-related quality of life in Multiple System Atrophy)

注 5) EQ-5D: 5 次元ユーロ QOL (EuroQOL 5 Dimension)

注 6) PDQ-8: 短縮版 8 項目パーキンソン病質問票 (short-form eight-item Parkinson's Disease Questionnaire)

注 7) SF-8: SF8 Health Survey

注 8) VAS: 視覚的評価スケール (Visual Analog Scale)

表2 QOL 測定に用いられた尺度の下位項目 (WHO/QOL 領域別分類)

WHO の QOL の領域	WHO の QOL の領域を構成する要素	QOL 尺度の下位項目 (尺度名)
身体的健康 (Physical Health)	エネルギーと疲労 (Energy and fatigue)	活力(エネルギー)にあふれていましたか 他(SF-36) 活力のなさを感じましたか 他(MSA-QOL)
	痛みや不快感 (Pain and discomfort)	体の痛みをどのくらい感じましたか(SF-36) 痛み / 不快感(EQ-5D) 首か肩の痛みを経験しましたか 他(MSA-QOL) 関節や、体に痛みを感じましたか 他(PDQ-39, 8)
	睡眠と休息 (Sleep and rest)	夜、くつろぐことは難しかったですか 他(MSA-QOL)
心理的状態 (Psychological)	身体イメージと外観 (Bodily image and appearance)	パーキンソン病であるために人前で恥ずかしい思いをしましたか 他(PDQ-39, 8) 鏡を見るのがいやだと思いませんか 他(神経難病患者の QOL)
	否定的な感情 (Negative feelings)	おちこんで、ゆううつな気分でしたか 他(SF-36) 不安 / ふさぎ込み(EQ-5D) 将来のことが心配でしたか 他(MSA-QOL) 気分が落ち込みましたか 他(PDQ-39, 8) 夜中に具合が悪くなったらどうしようと思いませんか 他(神経難病患者の QOL)
	ポジティブな気持ち (Positive feelings)	楽しい気分でしたか 他(SF-36) 趣味や楽しみを持って生活していますか 他(神経難病患者の QOL)
	自尊心 (Self-esteem)	無能だと感じることはありませんでしたか 他(MSA-QOL) 自分がパーキンソン病であることを人に隠さなければならぬと感じましたか 他(PDQ-39, 8) 人があなたの病気をどう思っているか気になりますか 他(神経難病患者の QOL)
	思考、学習、記憶力と集中力 (Thinking, learning, memory and concentration)	物事を考えることが遅くなりましたか 他(MSA-QOL) 注意力に問題がありましたか 他(PDQ-39, 8)
自立のレベル (Level of Independence)	移動しやすさ (Mobility)	健康上の理由で百メートルくらい歩くことが難しいと感じますか 他(SF-36) 移動の程度(EQ-5D) 移動することは難しかったですか 他(MSA-QOL) 1,000 m を歩くのに困難を感じましたか 他(PDQ-39, 8)
	日常生活動作 (Activities of daily living)	健康上の理由で自分でお風呂に入ったり、着がえたりすることが難しいと感じますか(SF-36) 身の回りの管理(EQ-5D) 自分で食べることは難しかったですか 他(MSA-QOL) 自分の身体を洗うのに不都合を感じましたか 他(PDQ-39, 8) 普段身の回りのことはなるべく自分でするようにしていますか(神経難病患者の QOL)
	医薬品と医療援助への依存 (Dependence on medicinal substances and medical aids)	
	作業能力 (Work capacity)	仕事やふだんの活動(家事など)をするにあたって、身体的な理由で問題がありましたか 他(SF-36) ふだんの活動(EQ-5D) 家のこと(例えば家事)をするのは難しかったですか 他(MSA-QOL) 家の事をするのに支障を感じましたか、例えば日曜大工、家事、料理など 他(PDQ-39, 8)
社会的関係 (Social Relations)	個人的な関係 (Personal relationships)	家族、友人、近所の人、その他の仲間とのふだんのつきあいが、身体的あるいは心理的な理由で、どのくらい妨げられましたか 他(SF-36) 友人に会にくいと感じましたか 他(MSA-QOL) 人間関係に問題がありましたか 他(PDQ-39, 8) 友人や知人との関係はうまくいっていますか 他(神経難病患者の QOL)
	社会的な支援 (Social support)	家族 / 親しい友人からあなたが必要とする支えが得られないという事がありましたか 他(PDQ-39, 8)
	性生活 (Sexual activity)	
環境 (Environment) 精神性・宗教的・信念 (Spirituality/Religion/ Personal beliefs)		
その他	自覚症状	自分の平衡感覚に障害がありましたか 他(MSA-QOL) あなたはたくさんの異なる症状に苦しんでいると思いますか(神経難病患者の QOL)
	全体的健康観	私の健康状態は非常に良いと思いますか 他(SF-36) 今日の健康状態がどのくらい良いかを、0 から 100 の物差しに上にするしをつけて示してください(EQ-5D)
	全体的満足度	総合的に、あなたが現在の生活にどれだけ満足しているか、線上の 0 から 100 の間にするしをつけて示してください(MSA-QOL) 病気があっても自分なりの生活が来ていると思いますか(神経難病患者の QOL)

表3 先行研究の目的から見た研究内容の分類

カテゴリー名	サブカテゴリー名	研究目的
QOL を測定する 尺度の評価	MSA の QOL 測定において、既存の 尺度が有効であるか否かを検討する	MSA-P ^{注1)} 患者に対する SF-36 の有用性を判断する。(文献①) MSA 患者に対する、PDQ-39 の有効性を評価する。(文献⑦)
	既存の尺度の中で臨床試験に適した スケールを特定する	MSA の臨床試験に使用する最も感度の高いスケールを特定する。(文献⑤) MSA-QOL を使用して、HRQOL ^{注2)} を前向きに評価する。(文献⑩)
	特異的な尺度である MSA-QOL を開 発する	MSA-QOL のドイツ語翻訳版を検証する。(文献⑦) MSA-QOL のフランス語版を検証する。(文献⑧) MSA 患者に対する HRQOL 尺度を開発する。(文献⑭)
QOL との関連要因 の検討	MSA の QOL に影響する要因を明ら かにする	異なるサブタイプの MSA 患者間の NMS ^{注3)} と QOL の違い、及び QOL を低くする因子を 明らかにする。(文献③) 非定型 PD ^{注4)} の患者の HRQOL を評価し、HRQOL の決定因子を同定する。(文献⑫) SCD ^{注5)} ならびに MSA 療養者の主観的 QOL の実態とその関連要因について明らかにする。 (文献⑯) MSA における HRQOL およびその決定因子を評価する。(文献⑱)
	自律神経障害の進行が QOL に及ぼ す影響を検討する	MSA における自己認識している自律神経障害の重症度および進行度と HRQOL への影響 を評価する。(文献⑮)
	抑うつが QOL に及ぼす影響を検討 する	MSA 患者における抑うつ症状を有する割合と生活満足度との関係を検討する。(文献⑲)
	性機能障害の実態を調査する	PD と MSA における性機能障害の頻度と出現様式を明らかにする。(文献⑳)
ケアや治療の効果 の測定	緩和ケアの評価をする	神経変性疾患によって重症となった患者に対する新しい専門緩和ケアサービスの評価をす る。(文献④)
	作業療法の評価をする	MSA 患者への作業療法の影響に関して、予備的データを得、ランダム化比較試験が可能 かどうかを特定する。(文献㉑)
	薬物療法の評価をする	PD または MSA 患者へのクエン酸シルデナフィル(バイアグラ)の有効性および安全性を評 価する。(文献㉒)
QOL の実態調査	異なるサブタイプの認知機能障害を 比較する	異なるサブタイプの MSA 患者間の認知機能障害を比較する。(文献②)
	長期の神経学的状態を有する患者の HRQOL と支持的ケアの活用の実態 を調査する	長期の神経学的状態を有する希少疾患患者の HRQOL および支持的ケアの活用の程度を評 価する。(文献⑥)
MSA 群と他疾患との 対照群における QOL の比較	特発性 PD、PSP ^{注6)} または MSA 患 者の QOL を比較する	特発性 PD、PSP または MSA 患者の症状と QOL が時間とともにどのように変化するのか を評価する。(文献⑨)
	難治性神経疾患患者と介護者の QOL を比較する	難治性神経疾患患者の全般的な QOL と患者の介護者の全般的 QOL、及び患者と介護者 の QOL の関連性について検討する。(文献⑪)
	PD 患者と MSA 患者 10 名の QOL を比較する	運動スコア UPDRS Ⅲ ^{注7)} の運動障害に合致した 10 人の PD 患者と MSA 患者 10 名の QOL を比較する。(文献⑬)

注 1) MSA-P：パーキンソンニズム型 MSA (Multiple System Atrophy predominated in parkinsonism)

注 2) HRQOL：健康関連 QOL (Health Related Quality of Life)

注 3) NMS：非運動症状(non-motor symptoms)

注 4) PD：パーキンソン病(Parkinson's Disease)

注 5) SCD：脊髄小脳変性症(Spinocerebellar Degeneration)

注 6) PSP：進行性核上性麻痺(Progressive Supranuclea Palsy)

注 7) UPDRS Ⅲ：統一パーキンソン氏病尺度(Unified Parkinson's Disease Rating Scale)

関係」について測定されていた。また、「その他」として、「自覚症状」や「全体的な健康観」等を問う項目が測定されていた。

3. 先行研究の目的から見た研究内容の分類

研究目的を類似した内容毎にカテゴリー化した(表3)。22 件の先行研究の目的は、15 のサブカテゴリーに分類され、「QOL を測定する尺度の評価」「QOL との関連要因の検討」「ケアや治療の効果の測定」「QOL の実態調査」「MSA 群と他疾患との対照群における QOL の比較」の

5 つのカテゴリーに分類された。以下に研究目的のカテゴリー毎の研究結果を示した。

1) QOL を評価する尺度の評価

MSA の重症度の指標である統一多系統萎縮症評価尺度(unified MSA rating scale：UMSARS)¹⁵⁾、小脳性運動失調の重症度の指標である Scale for the assessment and rating of ataxia (SARA)¹⁶⁾等は短期間で MSA の症状の変化を鋭敏に捉えることができる指標であること(文献⑤)、その一方で、MSA-QOL スケールのスコアは UMSARS よりも変化に反応しにくいことが報告されて

いた(文献⑤, ⑩)。また, SF-36 は MSA の変化を検出できること(文献①), パーキンソン病患者の QOL を測定する PDQ-39 は, MSA の QOL を測定することに限界があること等が報告されていた(文献⑦)。

MSA に特異的な QOL を測定できる尺度として MSA-QOL が開発されており(文献⑭), さらにドイツ語版(文献⑦)とフランス語版(文献⑧)の信頼性と妥当性が検証されていた。

2) QOL との関連要因の検討

MSA 患者の QOL に影響する変数として, 複数の文献で抑うつ(文献⑫, ⑬, ⑭)や精神症状(文献⑯)が報告されていた。また, MSA 患者の QOL に影響を及ぼす属性は, 罹病期間の長さ(文献③), 世帯人数の少なさ(文献⑫), 12 歳未満の教育(文献⑫), 家庭での役割無し(文献⑯)等が報告されていた。障害や症状の程度(文献③, ⑯, ⑬), 自律神経障害(文献⑮), ADL, 手段的日常生活動作(Instrumental Activities of Daily Living: IADL)等の身体機能(文献⑯)も QOL に影響を及ぼす変数として報告されていた。

性機能障害の実態を調査した研究では, MSA で性機能障害が高頻度に認められること, 性機能障害が MSA の QOL 障害の要因とは言えなかったことが報告されていた(文献⑳)。

3) ケアや治療の効果の測定

緩和ケアによって QOL および身体的症状の改善がみられたこと(文献④), 作業療法介入群の健康関連 QOL の ADL サブスケールが有意な改善を示したこと(文献㉑), クエン酸シルデナフィル(バイアグラ)の投与によって重度な血圧低下を示した患者がいたため, 研究は途中で中止されたこと(文献㉒)が報告されていた。

4) QOL の実態調査

全ての研究において MSA 患者の QOL が著しく低下していることが報告されていた。MSA にはパーキンソンニズムが有意な MSA-P (multiple system atrophy, parkinsonian variant) と小脳失調が優位な MSA-C (multiple system atrophy, cerebellar variant) というサブタイプがあるが, そのサブタイプを比較して実態を明らかにした研究では, SF-36 の「体の痛み」が MSA-P 群の方が有意に低く ($p < 0.05$), マチス認知症評価スケール (Mattis Dementia Rating Scale: MDRS) の「注意機能」は MSA-C 群の方が有意に低かったことが報告されていた(文献㉓)。MSA を含む, 神経難病患者の QOL および支持的ケアの活用の実態を明らかにした研究では, MSA 患者のアクセスが多い専門職は, 神経内科医 (88%) や言語聴覚士 (65%) であり, 次いで専門看護師 (53%) であること, アクセスが多い補助具は, 歩行器 (88%) や車いす (76%) であること等が報告されていた(文献⑥)。

5) MSA 群と他疾患との対照群における QOL の比較

MSA と進行性核上性麻痺 (progressive supranuclear palsy: PSP) とともに, 重症な患者の 50% 以上がフォローアップ中の 1 年間で死亡しており, どちらの患者も半数は, QOL が悪化または変動したことが報告されていた(文献⑨)。MSA, PD 等の神経難病患者と介護者の QOL を比較した研究では, 下位尺度において有意な相関が幾つか認められたが, 全般的な相関は弱かったと報告されていた(文献⑪)。運動障害を有する MSA 患者と PD 患者間における QOL の比較は, SF-36 活力サブスコアが MSA の方が障害されていたこと, MSA 患者において, 認知障害とアパシーも QOL にネガティブな影響を与えていたことが報告されていた(文献⑬)。

IV. 考察

1. MSA 患者の主観的 QOL を何らかの指標を用いて測定した既存研究の特徴

今回の文献検討のプロセスにおいて, 文献は 153 件抽出されたが, 該当する文献は 22 件にとどまった。MSA 患者の QOL に関する研究において, その多くは QOL を定量的に測定していないことが明らかとなった。また, 2000 年以前には定量的に QOL を測定した研究は見当たらず, 着目されることが少なかったことが分かった。その背景として, MSA としての国際的な診断基準が発表されたのが 1990 年ころであり, 日本でも 2000 年より以前には, MSA は脊髄小脳変性症の一部として分類されることが多かったことが影響していると推測された。

QOL 測定に用いられた各尺度の質問項目から, 保健・医療・福祉サービスを受けながら療養生活を送る MSA 患者の QOL として, 「身体的健康」「心理的状态」「自立のレベル」「社会的関係」などの側面が測定されていることが明らかとなった。WHO の QOL の領域における, 「環境」や「精神性・宗教的・信念」といった側面は測定されておらず, 保健・医療・福祉サービスの介入によって変化する側面に限定していた。

研究目的の分類からは, QOL を測定する尺度の評価や, QOL との関連要因, 実態調査といった報告が多く, 保健・医療・福祉サービスの効果を QOL を指標にして測定した報告は限られていた。MSA の QOL に関連する変数としては, うつや自律神経機能障害, ADL や IADL といった要因がいくつか報告されていた。この結果は, 自律神経症状をはじめとした多彩な症状や障害によって MSA 患者の QOL が損なわれていることを示しており, これらの関連要因の改善を目指すことが, QOL の向上につながる可能性があると考えられる。また, QOL の実態調査においては, MSA を含む神経難病を有する患者の QOL が低いことや(文献⑥, ⑪, ⑫),

中でも一般集団と比較して MSA 患者の QOL が阻害されていることが報告されており(文献⑨), MSA 患者の QOL の維持・向上が, 保健医療従事者に課せられた喫緊の課題であることが示唆された。

2. MSA 患者の主観的 QOL を測定するために用いられた指標の特徴

先行研究において QOL の測定に用いられている尺度の多くは, 健康についての万人に共通した概念のもとに構成されている, SF-36 や EQ-5D であった。SF-36 は世界で最も広く使われている自己報告式の調査票であり, 信頼性と妥当性が証明されている⁷⁾。一方で, 日本語版の因子構造がオリジナル版とやや異なることが指摘されており, 下位尺度の使用には注意が必要である¹⁷⁾。EQ-5D⁸⁾の特徴は, 何と言ってもわずか5項目の質問で構成されているため簡便で, 調査時の患者負担が軽度であることがあげられる。従来の EQ-5D-3L で指摘されていた, 感度が不十分であることや天井効果に関して, 改訂版の EQ-5D-5L は一定程度改善されている¹⁸⁾。どちらも, 信頼性と妥当性が検証され, 複数の言語に翻訳されている。

しかし, SF-36 の対象は MSA に限定した内容ではなく, 健康についての万人に共通した概念のもとに構成されている。同じく EQ-5D も疾患を限定しない尺度である。さらに, 神経難病患者の主観的 QOL 評価尺度は, 筋萎縮性側索硬化症やパーキンソン病などの神経難病患者用に開発された尺度であり, これも MSA に特異的な QOL の測定はできない。MSA 患者に包括的な尺度を用いることのメリットは, 他の疾患との QOL の比較を可能にすることである。一方, 包括的な QOL 尺度を用いることのデメリットとして, 症状の多様さや, 短期間で次々と症状が出現するといった MSA における健康問題が過小評価され, MSA の特徴的な問題に起因する QOL が測定できない危険性が考えられる。実際に MSA と同じく神経難病に分類されるパーキンソン病の QOL を評価する PDQ-39 では, MSA の多くの特徴が反映されなかったという指摘がある¹⁹⁾。つまり, MSA 患者の QOL 向上を目指すためには, 特異的尺度と包括的尺度を目的によって使い分けることが望ましいと考えられる。

実際に MSA と同じく神経難病に分類されるパーキンソン病の QOL を評価する PDQ-39 では, MSA の多くの特徴が反映されなかったという報告がある(文献⑩)。そのため, 普遍的な QOL 測定尺度を用いて行われた先行研究では, MSA の特徴を踏まえた QOL が測定されず, ケアや治療の効果が適切に測定できていない可能性や, MSA の特徴を踏まえた QOL 関連要因が検討できていない可能性が危惧される。

3. MSA に特異的である主観的 QOL 評価尺度について

QOL を測定する尺度の評価として, MSA-QOL は重症度の指標よりも反応しにくい可能性が指摘されていた(文献⑤, ⑩)。この結果から, MSA 患者の QOL は, 客観的な疾患の進行度や重症度のみでは決定せず, 重症度が高くなっても他の要因によって維持される可能性があると考えられた。

また, MSA 患者の療養の経過に伴う QOL の変化をとらえることや, 治療や看護介入の効果を適切に判定するためには, MSA の特徴を反映した尺度の活用が必要である。MSA 独自の QOL 評価尺度としては, 現在までのところ MSA-QOL が開発され(文献⑭), 複数の言語に翻訳されている(文献⑦, ⑧)。MSA-QOL は 2007 年に Schrag A らによって開発された世界で唯一の MSA 独自の QOL 評価尺度である⁹⁾。MSA-QOL の特徴として, MSA の特徴的な症状による生活上の困難さを問う「支えなしに立ち上がることは難しかったか」「平衡感覚に障害があったか」等の項目が多く含まれていることがあげられる。

また, 日本語版 MSA-QOL は, 厚生労働省運動失調調査研究班ホームページ上に公表されている。しかし, 日本語版 MSA-QOL はいくつかの課題があり実用化に至っていないことが指摘されている²⁰⁾。その課題とは, 直訳的な表現が多く回答者が的確に回答しにくい項目があること, 質問に対して適切でない回答選択肢があり回答の信頼性の確保が難しいこと, 日本人 MSA 療養者を対象とした信頼性と妥当性は検証されていないこと等である。

MSA 患者の QOL を指標を用いて測定した研究に関する今後の課題として, MSA 特有の QOL の実態と影響要因を明らかにするとともに, 専門職による治療や介入の効果評価が必要である。特に, 日本においては, 日本語版 MSA-QOL の信頼性と妥当性の検証を検証し, 実用化することが必要である。このことが, ひいては MSA 患者の QOL に対する着目の少なさを改善することにもつながると考えられた。

V. 結論

1. MSA 患者を対象にして主観的 QOL を何らかの指標を用いて測定している論文は 22 件であり, QOL を測定する尺度の評価や, QOL との関連要因, 実態調査といった報告が多く, 保健・医療・福祉サービスの効果を QOL を指標にして測定した報告は限られていた。
2. MSA 患者の QOL は, WHO の QOL の定義における, 「身体的健康」「心理的状態」「自立のレベル」「社会的関係」といった保健・医療・福祉サービスの介入

- によって変化する側面に限定して測定されていた。
3. MSA 患者の QOL 評価に活用されているのは, SF-36 や EQ-5D などの普遍的尺度が多く, MSA-QOL は重症度の指標よりも反応しにくい可能性が指摘されていた。
 4. MSA 患者への支援の効果を客観的に測定し, MSA 特有の QOL の実態と影響要因を明らかにするとともに, 専門職による治療や介入の効果を評価していくことが必要である。

引用文献

- 1) O'Sullivan SS, Massey LA (2008) Clinical outcomes of progressive supranuclear palsy and multiple system atrophy. *Brain*, 131: 1362-1372.
- 2) 厚生労働科学研究難治性疾患克服研究事業 特定疾患の疫学に関する研究班主任研究者稲葉裕 (2005) 電子入力された臨床調査個人票に基づく特定疾患治療研究医療受給者調査報告書. (永井正規, 太田晶子, 仁科基子, 他): 110.
- 3) 押領司民, 佐藤みつ子 (2008) 脊髄小脳変性症療養者の闘病生活に対する思い. *山梨大学看護学会誌*, 6(2): 37-43.
- 4) 輪眞澄, 藤田利治, 川南勝彦, 他 (1996) 神経難病患者の QOL 評価尺度の開発～信頼性及び妥当性～. *厚生省特定疾患難病の疫学調査研究班平成 7 年度研究業績集*, 337-343.
- 5) 下妻晃二郎 (2015) QOL 評価研究の歴史と展望. *行動医学研究*, 21(1): 4-7.
- 6) 箕輪眞澄 (1996) 難病患者の QOL 評価の動向. *Quality of life 医療新次元の創造*. メディカルレビュー社, 大阪府, 148-157.
- 7) Ware JE, Sherbourne CD (1992) The MOS 36-item Short-Form Health Survey (SF-36): Conceptual framework and item selection. *Med. Care*, 30: 473-489.
- 8) Brooks R with the EuroQol Group (1996) EuroQol: the current state of play. *Health Policy*, 37(1): 53-72.
- 9) Schrag A, Selai C, Mathias C, et al. (2007) Measuring health-related quality of life in MSA: the MSA-QoL. *Mov Disord*, 22(16): 2332-2338.
- 10) Peto V, Jenkinson C, Fitzpatrick R, et al. (1995) The development and validation of a short measure of functioning and well being for individuals with Parkinson's disease. *Quality of life research*, 4: 241-248.
- 11) Katsarou Z, Bostantjopoulou S, Peto V, et al. (2004) Assessing quality of life in Parkinson's disease: can a short-form questionnaire be useful?. *Mov Disord*, 19(3): 308-312.
- 12) 星野明子, 篠崎 育子 (1995) 神経難病患者の quality of life 評価尺度の開発. *日本公衆衛生誌*, 42(12): 1069-1082.
- 13) O'Boyle CA, McGee HM, Hickey A, et al. (1992) Individual quality of life in patients undergoing hip replacement. *Lancet*, 339: 1088-1089.
- 14) Hayes, M. H. S. & D. G. Patterson (1921) Experimental development of the graphic rating method. *Psychological Bulletin*, 18: 98-99.
- 15) Wenning GK, Tison F, Seppi K, et al. (2004) Development and validation of the Unified Multiple System Atrophy Rating Scale (UMSARS). *Movement disorders*, 19: 1391-1402.
- 16) Schmitz-Hübsch T, duMontcel ST, Baliko L T, et al. (2006) Scale for the assessment and rating of ataxia: development of a new clinical scale. *Neurology*, 66: 1717-1720.
- 17) 鈴鴨よしみ, 福原俊一 (2002) SF-36 日本語版の特徴と活用. *日本腰痛会誌*, 8(1): 38-43.
- 18) 池田俊也, 白岩健, 五十嵐中, 他 (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.
- 19) Schrag A, Jenkinson C, Selai C, et al. (2007) Testing the validity of the PDQ-39 in patients with MSA. *Parkinsonism & Related Disorders*, 13(3): 152-156.
- 20) 押領司民 (2017) 日本語版 MSA-QOLver2.0 の内容と原案作成過程. *日本難病看護学会誌*, 22(1): 65.