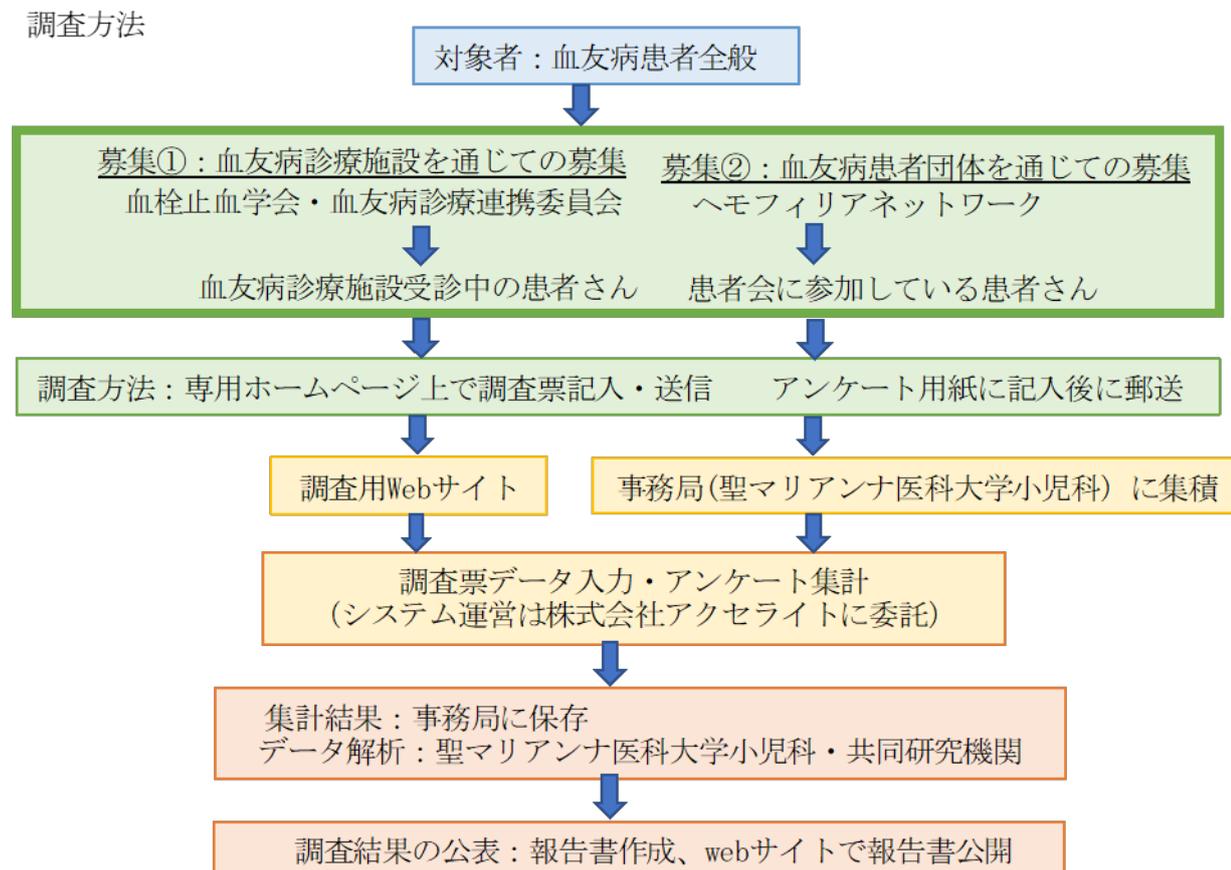


II. 調査方法について

1. 対象と方法

我が国の血友病患者さん全般を対象としました。アンケート記入可能な患者もしくは保護者等を対象としましたので、乳幼児を含めた未成年の現状調査（患児の両親等からのQOL情報）の結果も含まれます。なお自主的なアンケート参加であり、回答送信をもって同意取得とみなしました。調査は2022年7月26日～2023年3月31日の期間に行われました。調査にあたってはより多くの患者さんにアンケートに回答してもらうことを目的として、無記名自記式Web調査及び郵送回収による自記式質問紙調査の併用をしました。アンケート形式の調査票を、Web または郵送のどちらで回答してもよい様式としました。Webで回答頂くためのURLは、血友病診療連携委員会のネットワークを通じて全国の医療施設の血友病治療を行っている診療科の代表から担当の患者さんへ、あるいは血友病患者組織のネットワークを通じて地域の患者さんへ通知しました。調査の流れを図II-1-(1)に示します。

図 II-1-(1) 血友病患者のQOLに関する調査の流れ



2. 調査票の作成

調査票は患者さんの基本情報、治療状況、心理状況、身体機能状況の4つの項目で構成されました。各項目について、様々な職種の研究協力者にそれぞれの立場から意見を求め、討議を重ね検討しアンケート調査票を作成しました。基本情報としては年齢、血友病 A/B、重症度、使用血液製剤名、体重、HIV/HCV の感染の有無、通院医療機関、関節出血・関節痛・関節手術の既往の有無などを聴取し、治療状況としては治療消炎鎮痛薬の使用状況をアンケート調査しました。心理状況としては新型コロナウイルス感染症 (COVID-19) の罹患歴、ワクチン接種状況、行動制限、血友病治療への影響、抑うつ状態 (PHQ-9) を調査し、身体機能状況としては作成者の日本整形外科学会・日本足の外科学会 診断評価等基準委員会の許可を得て、SAFE-Q 自己記入式足部足関節評価質問票を用いて足関節の評価を行い、関節症の装具やサポーターの使用状況についてもアンケート調査を行いました。

作成に当たっては、回答時間が 30 分程度になるように調査内容を調整しました。なお実際の調査票を巻末に付記しています。

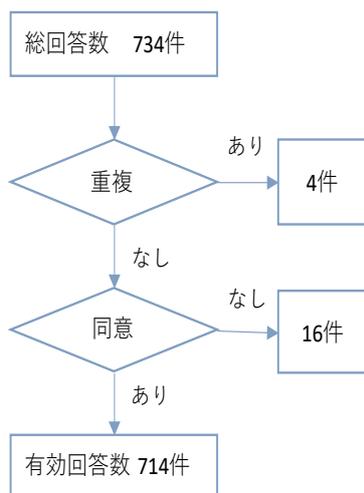
3. 倫理面への配慮

この調査は、分担研究者の所属施設である聖マリアンナ医科大学生命倫理委員会へ申請を行い、承認されました(承認番号 5652)。その後、研究協力者の所属施設においても同様の申請を行い、承認後に実施された研究です。この調査の実施にあたり同意書に関しては、研究の主旨に同意を得た患者本人あるいはご家族が自由意思で回答すること、さらに無記名回答であることからその取得は不要としました。簡易的な同意として、研究に関する説明文章をご一読頂き、アンケート調査にご協力いただける場合は、アンケートの冒頭にある同意ボックスにチェックを入れていただき、チェックがない場合は Web においては次へ進むことができない仕組みにいたしました。郵送による質問紙においては、チェックがない回答は集計対象から除外しました。本試験結果の発表に際しては個人を特定出来る情報が含まれることはありません。

4. 回収状況と回答状況

アンケート調査は 2022 年 7 月 26 日から 2023 年 3 月 31 日の期間に行われました。その期間中に回答頂いた件数は 734 件でした。生年月、居住都道府県、HIV・HCV 感染状況、家族構成、使用薬剤種類すべてが一致するものを抽出し、さらに自由記述で類似の記述があるものを重複回答と見なし、4 件において一方を除外しました。郵送回収分の同意チェック欄にチェックなしのものがあつたため、16 例を除外しました。最終的な有効回答数は 714 件となり、714 件を今回の調査対象として解析しました(図 II-4-(1))。

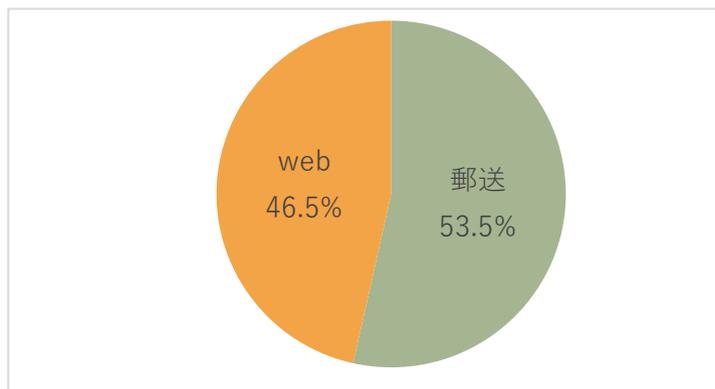
図 II-4-(1) 回答・回収状況



5. 郵送回答と Web 回答の違い

有効回答数 714 件のうち、郵送回収回答が 382 件（53.5%）、Web 回答が 332 件（46.5%）でした。

図 II-5-(1) 回答方法



回答方法（郵送回答/Web 回答）による違いを確認するために、アンケート調査票の調査項目のうち、「I. 患者さんご自身について」の主な項目と PHQ-9 について、郵送回答群（382 名）と Web 回答群（332 名）を比較しました。PHQ-9 は、本人が回答した 571 名を分析対象としました。

カテゴリ変数についてはクロス集計を行い、カイ二乗検定を実施しました。年齢、PHQ-9 については、対応のない t 検定による平均値の比較を行いました。各設問で無回答や非該当がある場合は適宜除外しました。クロス集計結果は、群別の横棒グラフで示し、カイ二乗検定の有意確率（p）を示しました。t 検定の結果は、平均値を棒グラフにし、有意確率を示しました。（エラーバーは標準誤差）

結果として、関連のあった項目を表 II-5-(1)にまとめ、関連のあった項目を図 II-5-(2)～(9) に示しました。

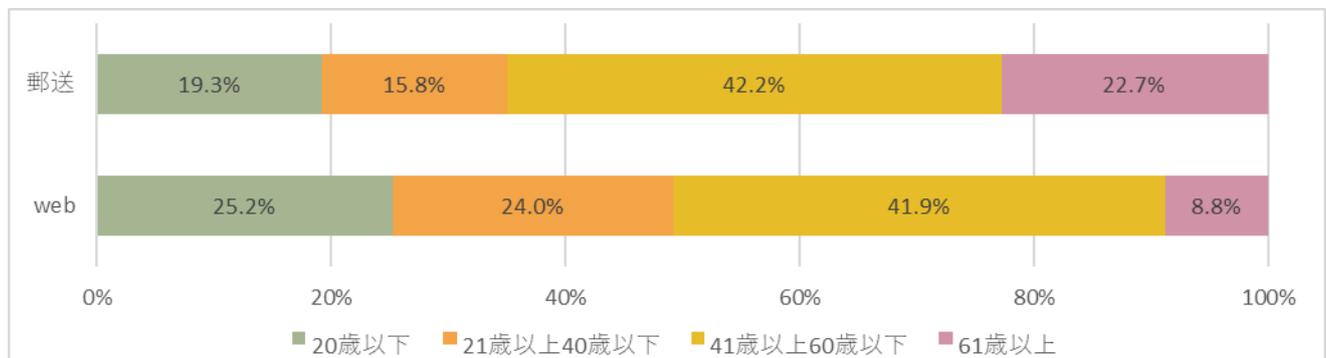
関連が見られなかった項目は記載者、同居家族の有無、結婚歴、HCV 感染、主に通院している施設、疾患名、インヒビター、関節手術歴、関節痛有無、関節内出血有無、PHQ-9（高群低群、スコア共に）でした。

表 II-5-(1) 回答方法（郵送回答/Web 回答）の違いに関連があった項目

関連のあった項目	郵送回答	Web 回答
年齢（年代）	61 歳以上の割合が高い	21 歳以上 40 歳以下の割合が高い
現在の身分	定年後離職の割合が高い	学生・生徒の割合が高い
居住地域	四国地方の割合が高い	中部地方の割合が高い
HIV 感染	感染ありの割合高い	
重症度	中等度の割合が高い	重症の割合が高い
補充療法	出血時補充療法の割合が高い	non-factor 製剤の定期投与の割合が高い
アンケート紹介/依頼者	知人の割合が高い	その他（Web など）の割合が高い

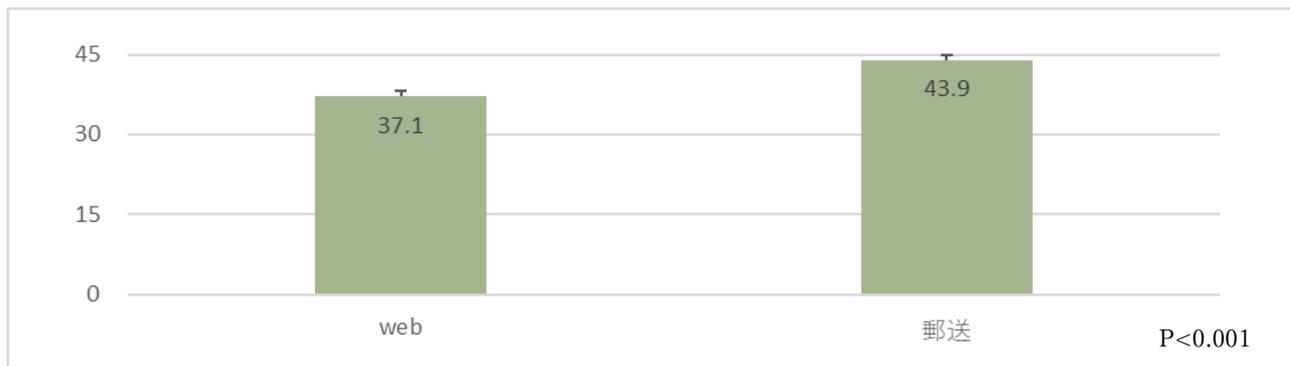
年齢は 61 歳以上で郵送回答の割合が高く、21 歳以上 40 歳以下で Web 回答の割合が高く、予想通りの結果となりました。回収率を少しでも高めるためにはやはりどちらでも回答できるようなシステムが必要であると考えられました。

図 II-5-(2) 回答方法と年齢の関連



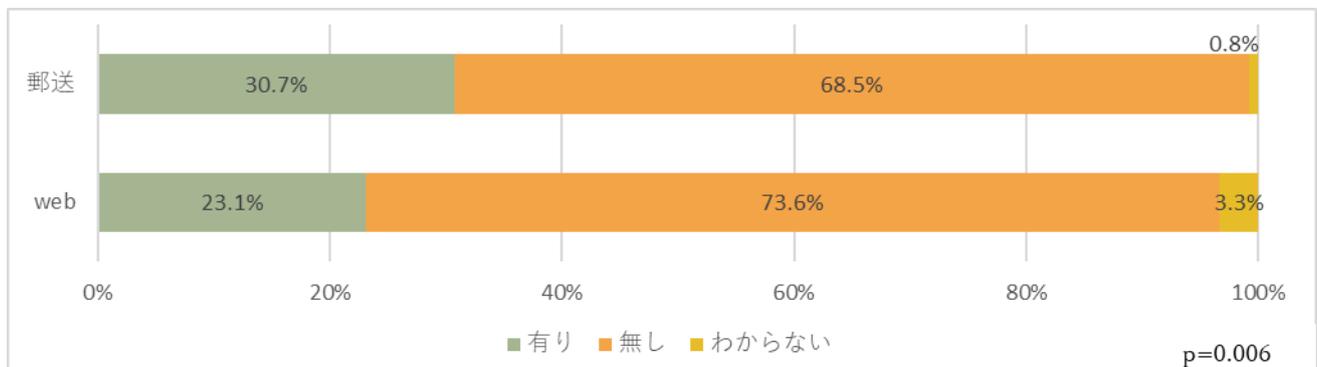
Web 回答者の平均年齢は 37.1 歳であったのに対し、郵送回答者は 43.9 歳と有意に平均年齢が高い結果となりました。

図 II-5-(3) 回答方法別の平均年齢



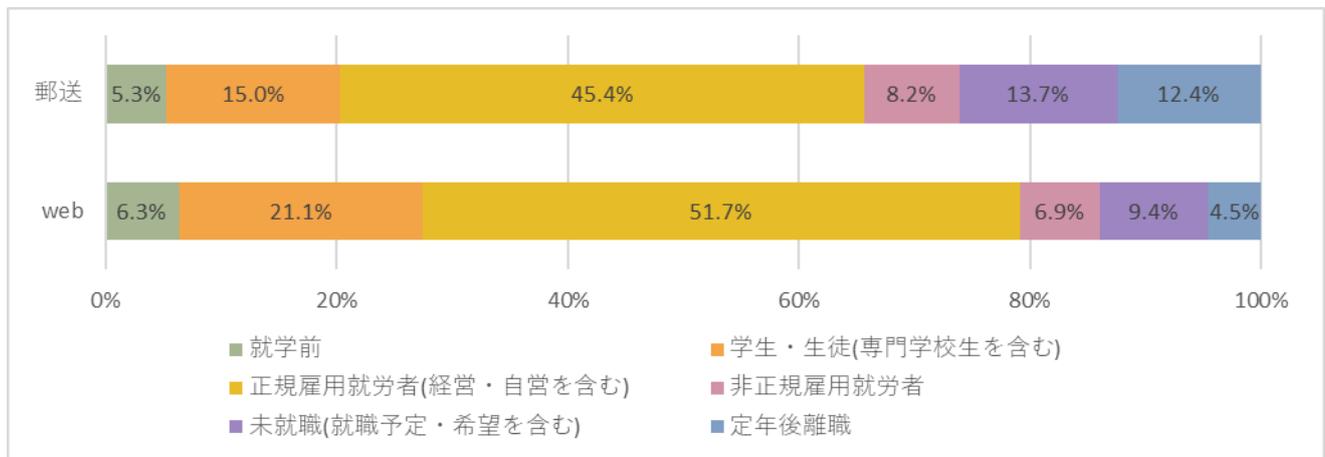
HIV 感染症の有無で比較した結果、郵送では HIV 感染ありの患者さんの割合が高い結果となりました。

図 II-5-(4) 回答方法と HIV 感染の有無の関連



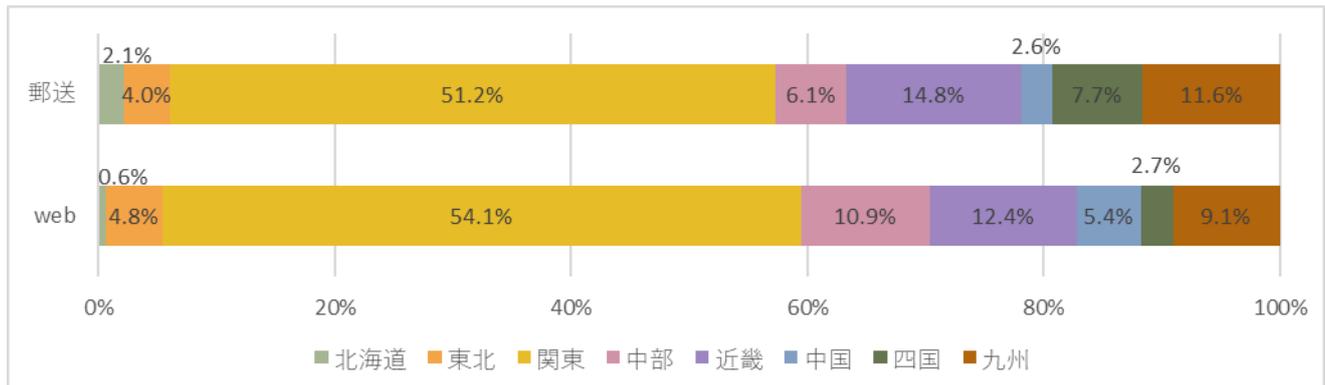
また、郵送回答は定年後の離職者の割合が高く、Web 回答は学生・生徒の割合が高い結果が得られました。

図 II-5-(5) 回答方法と現在の身分との関連



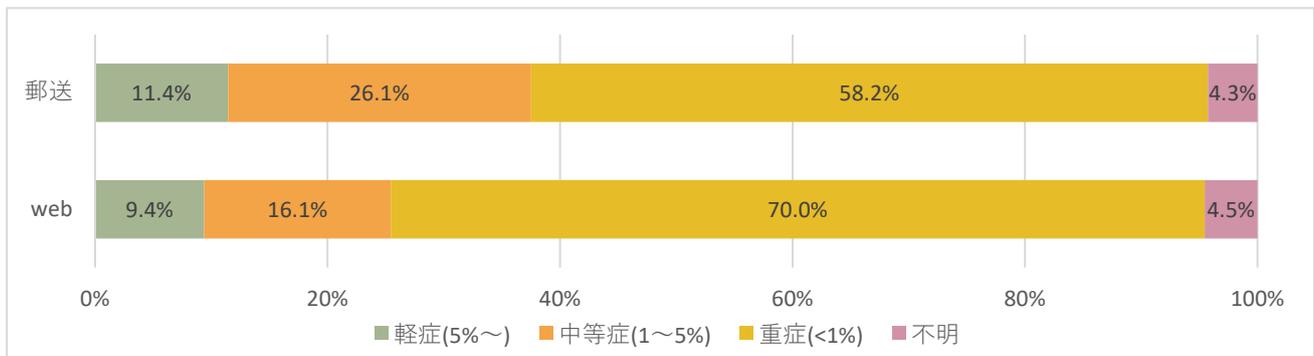
居住地域では郵送回答は四国地方の患者さんの割合が高かったのに対し、Web 回答は中部地方在住の患者さんの割合が高い結果が得られました。

図 II-5-(6) 回答方法と居住地の関連



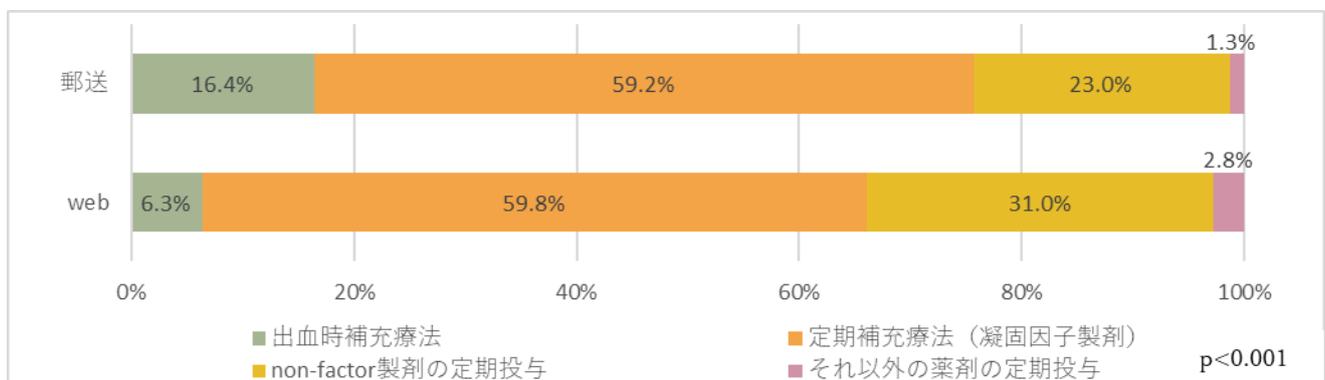
血友病重症度の関連では、郵送回答者は中等症の割合が高く、Web 回答者は重症の割合が多い結果でした。

図 II-5-(7) 回答方法と血友病重症度の関連



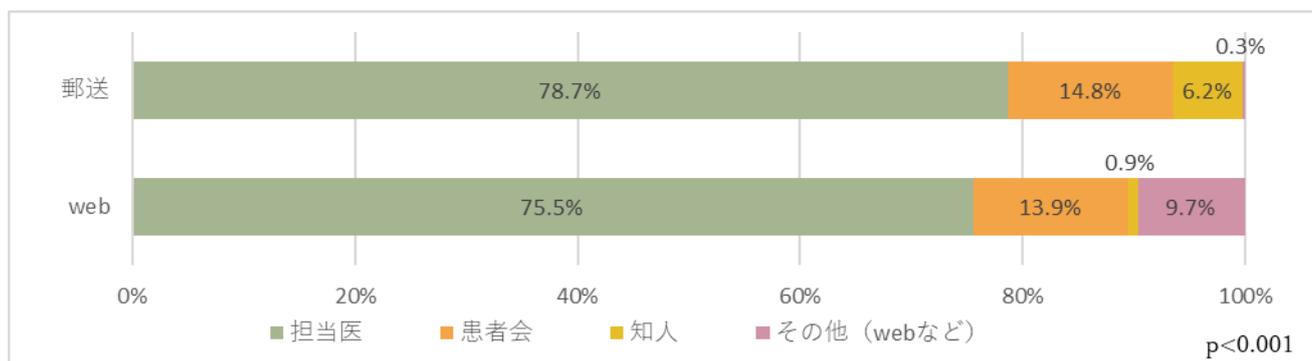
補充療法関連に関しては、郵送回答者が出血時補充療法を行っている割合が高く、Web 回答者は non-factor 製剤の定期投与を行っている割合が高い結果となりました。

図 II-5-(8) 回答方法と補充療法の関連



他にも、郵送回答者は知人からの紹介の割合が高く、Web 回答者は、その他 (Web など) の割合が高いことが分かりました。

図 II-5-(9) 回答方法とアンケート紹介/依頼者の関連



PHQ-9 に関しては、郵送回答は PHQ-9 が高得点であった患者さんが 14.3%、低い結果であった患者さんが 85.7%であり、Web 回答は PHQ-9 が高得点であった患者が 17.5%、低い結果であった患者さんが 82.5%で、有意差は認めませんでした。PHQ-9 の平均点も郵送回答群が 4.9 で、Web 回答群が 4.2 という結果で、有意な差は認めませんでした。