

令和2年度がんサバイバーシップ研究助成金

研究報告書
(年間)

2021年 12月 24日

公益財団法人 がん研究振興財団

理事長 堀田 知光 殿

研究施設 国立がん研究センター中央病院

住所 東京都中央区築地 5-1-1

役職 医長

研究者氏名 岩田 慎太郎

(研究課題)

AYA世代の悪性骨腫瘍サバイバーにおけるスポーツ活動に関する調査研究

令和2年 9月 4日付助成金交付のあった標記研究課題について研究が終了致しましたのでご報告いたします。

小児・AYA 世代の悪性骨腫瘍サバイバーにおけるスポーツ活動に関する 多機関共同質問紙調査研究 年間研究報告書

2021年12月24日
国立がん研究センター中央病院 骨軟部腫瘍・リハビリテーション科
岩田慎太郎

1. 研究の背景と目的

骨肉腫に代表される原発性悪性骨腫瘍に対する根治的治療として、腫瘍の外科的切除は必須である。しかしその結果として、程度の差はあれ何らかの運動機能の損失が生じることは避けられない。腫瘍広範切除を達成するための重要な神経や筋の合併切除、腫瘍切除後の再建術としての腫瘍用人工関節置換、あるいは切断術後の義肢の利用などによって、どの程度の運動機能障害が生じるかを事前に予測することは、様々な要因が関係するため困難と考えられる。そのため、悪性骨腫瘍患者の治療後のスポーツ活動に関し、医療提供者から伝えられる情報は限られており、それぞれの経験の範囲にとどまっていると予想される。

一方で、悪性骨腫瘍の好発年齢である小児およびAYA世代 (Adolescents and young adults) は、スポーツに触れる機会や興味も比較的高いと考えられ、悪性骨腫瘍に対する根治的治療完了後にスポーツへの復帰を希望することも多いと予想される。しかしながら提供される情報が少なく、客観性に欠けることから、悪性骨腫瘍サバイバーのスポーツ復帰へのアクセスは良好とは言えず、ここにアンメットニーズが存在すると考えられる。

本研究では、小児・AYA 世代の悪性骨腫瘍サバイバーを対象としたアンケート調査および各医療機関で収集された診療情報による後方視的研究を行うことで、小児・AYA 悪性骨腫瘍サバイバーにおけるスポーツ活動の実態を明らかにし、スポーツ活動を阻害する要因および潜在的ニーズを明らかにすることを目的とする。

2. 研究方法

A) 研究対象者の選定方針

原発性悪性骨腫瘍の診療機関6機関（国立がん研究センター中央病院、千葉県がんセンター、神奈川県立がんセンター、慶応義塾大学病院、東京大学医学部付属病院、国立成育医療研究センター）において、2000年から2020年までに原発性悪性骨腫瘍（骨肉腫、軟骨肉腫、ユーイング肉腫、脊索腫、悪性骨巨細胞腫、分類不能肉腫など）の診断を受け、根治的手術（切断術、回転形成術を含む）が実施され、1年以上の無病生存が確認されている、12歳以上39歳以下のサバイバーを対象とした。

B) 研究の方法

本研究は質問紙調査による多機関共同横断的研究および多機関共同後方視的観察研究としてデザインされた。

各研究機関において研究対象者が抽出され、研究内容とアンケートの利用目的が記載された説明文、個別研究ID、返信用メールアドレスが記載された説明文書を対象者に郵送した。対象者からの本人の名前が記載された返信メールの受信をもって適切な同意が取得されたものとした。なお、本研究では疾患の好発年齢を鑑み、研究対象者に未成年を対象に加えた。研究対象者が16歳以上20歳未満の

場合には、本人および代諾者の名前が記載された返信メールの受信をもって、適切な同意が取得されたものとした。

同意を得た対象者に対し、以下の3つのウェブアンケートを実施した（図1）。

- ① スポーツ活動の実施状況に関するアンケート
 - スポーツへのニーズや実際の実施状況、その満足度、スポーツに関する医療者からの情報提供の実態などの項目を含む。
- ② TESS (Toronto Extremity Salvage Score)
 - 骨軟部腫瘍領域で用いられる疾患特異的機能評価法の一つであり、患者立脚型機能評価尺度として用いられる。0～100%の範囲で、高いほど機能良好と判断される。
- ③ EORTC-QLQ-C30
 - がん領域で用いられる健康関連 QOL 評価法の一つであり、患者立脚型機能評価尺度として用いられる。0～100%の範囲で、高いほど機能良好と判断される。

EORTC qlq-C30

以下の項目は、あなたの体調をお聞きするためのものです。最も良くあてはまる数字を「✓」で選択し、全部の質問にお答え下さい。「正しい」答えや「間違っている」といったものではありません。お答えいただいた内容は、秘密厳守とさせていただきます。

1.重い買い物袋やスーツケースを運ぶなどの力仕事に支障がありますか。*

1 まったくない

2 少しある

3 多い

4 とても多い

2.長い距離を歩くことに支障がありますか。*

1 まったくない

2 少しある

3 多い

4 とても多い

図1. ウェブアンケートの一例 (EORTC-QLQ-C30)

各研究機関での対象者の診療記録から、患者・疾患の基本情報（性別、診断時年齢、診断名、罹患部位など）、治療関連情報（化学療法・放射線治療・手術の内容など）などを抽出した。

C) 評価項目及び評価方法

本研究の Primary endpoint は治療前に対する治療後の運動復帰割合、また Secondary endpoints は TESS、EORTC-QLQ-C30 とした。

治療前に対する治療後の運動復帰率の因子解析を、カイ二乗検定もしくは Mann-Whitney の U 検定などの統計解析方法により実施した。

3. 研究の結果

A) 対象者の臨床病理学的背景

現時点で3施設において治療を受けた39名から回答を得た。男性22名女性17

名、本研究参加時の年齢は12歳から39歳(中央値25歳)であり、また治療完了後からは1~15年(中央値10年)が経過していた。

原疾患としては、骨肉腫が最も多く26名(67%)、その他ユーイング肉腫(8名、21%)、軟骨肉腫(3名、8%)その他2名であった。また発生部位としては下肢35名(90%)、上肢4名であった。

調査時に装具や義肢を使用している方は15名(38%)であり、内訳は義肢4名、装具8名、杖3名であった。

B) 小児・AYA 悪性骨腫瘍サバイバーにおけるスポーツの実施状況

治療終了後にスポーツをしたいと思った方は34名(87%)であったが、治療前にスポーツの習慣があった24名中、治療終了後にスポーツに復帰できたのは13名(54%)であった(図2)。そのうち同じスポーツに復帰できたのは7名(テニス、バドミントン、登山、野球、水泳など)であり、種目を変えたのは6名(登山→カヌー、サッカー→野球、水泳→フライングディスク、空手→シャドーボクシング、剣道→水泳、バスケットボール→陸上競技)であった。また治療前にスポーツの習慣が無かった15名中、5名が治療終了後に新たにスポーツを開始していた(ウォーキング、卓球、ダンス、サイクリングなど)。

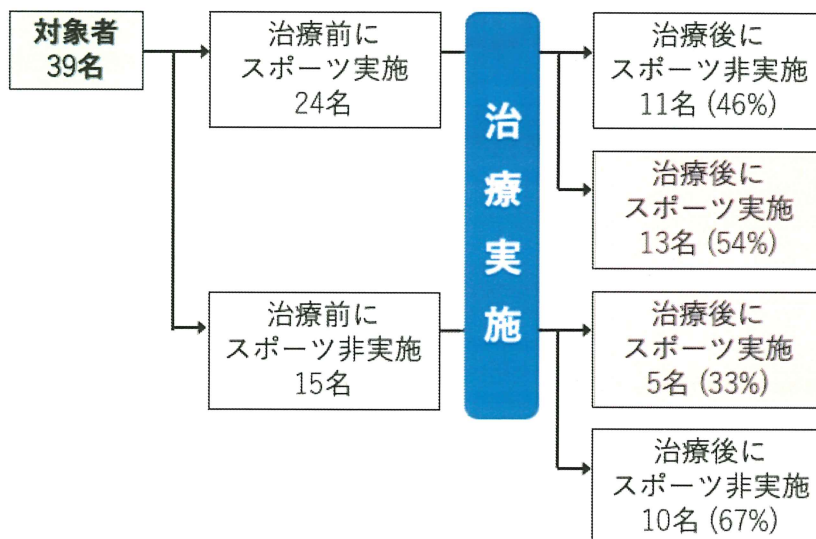


図2. 治療後のスポーツ実施率

スポーツの実施頻度は週一回以下が18名中11名(61%)である一方で、学校のクラブ活動として週6回、15時間以上のスポーツを行なっている方が2名おられた。全体での1週間のスポーツ活動時間は1~24時間(中央値2.75時間/週)であった。満足度調査では、18名中12名が5段階評価での「1.とても楽しんでいる」、残り6名が「2.少し楽しんでいる」との回答であり、全員がスポーツを楽しんでいると回答した。その一方で、「1.とても満足している」「2.少し満足している」と回答したのは18名中14名(78%)であったのに対し、「3.どちらとも言えない」「4.あまり満足していない」と回答した方が4名おられた。この4名中3名は、治療前と同じスポーツに復帰されていた方々であった。

一方治療終了後にスポーツをしたいと思った34名中、スポーツができていない方は16名おられた。できなかった理由(複数回答)として、思うように動けない(11名)、スポーツの機会がない(7名)などの声が多かったのに対し、体力がなくなった、痛みがある、意欲がなくなったと回答したのはそれぞれ4名、2名、2名であった。

悪性骨腫瘍サバイバーに対する情報提供の状況については、医療提供側からの

スポーツに関する情報提供があったと回答したのは39名中11名(28%)にとどまった。またどのような情報が欲しかったかの質問に対しては、障害者スポーツの種類やコミュニティなどの紹介、機能障害の回復の見込みやトレーニング方法、スポーツを行うことのリスクなどといった回答が多かった(表1)。

義足になった時に趣味が継続できるか
術後の体力作りの方法について
運動の種類によるリスクとリターン、同じ状態にある他の患者の状況
学校での体育はどうしていたか
趣味として水泳を続けることはいいことだと言って貰えて安心しました
パラリンピックや障害者スポーツ団体の活動を詳しく知りたかった
人工膝関節がある人でも楽しめるスポーツの情報
障がい者も見してくれる指導者がいるかどうか
膝の手術だったため何度膝を曲げられたら自転車に乗れるようになるか
できる範囲を明確に
地元で活動している障害者スポーツグループの情報
どの程度の負荷をかけても大丈夫なのか、具体的に知りたかった
似た境遇の方々との交流ができるコミュニティの情報など

表1. 患者が希望する提供して欲しい情報

C) 小児・AYA 悪性骨腫瘍サバイバーのスポーツ実施に影響する因子の検討

治療終了後にスポーツが実施できたのは39名中18名(46%)であった。このスポーツ実施に関連する臨床病理学的因子を検討したところ、スポーツ実施率は男性で有意に高かった(80% vs 29%, $p=0.031$) が、原発部位(上肢67% vs 下肢57%, $p=0.76$) や術式(切断術100% vs 患肢温存術53%, $p=0.21$)、治療時年齢(実施群中央値17.5歳 vs 未実施群14歳, $p=0.73$) において有意な差を認めなかった。

機能評価として、39名におけるTESSの分布は73~94%(中央値90%)であった。TESSはスポーツ実施群の方が、非実施群よりもやや良好である傾向が見られた(91% vs 79%, $p=0.102$) が、有意ではなかった。またスポーツ実施者におけるスポーツの満足度においても、両者に有意差を認めなかった(92% vs 90%, $p=0.43$)。

健康関連QOLの評価として用いたEORTC-QLQ-C30のうち、global QOLは33-100%(中央値83%)、functional scoreは58-98%(中央値89%)であった。このうち、global QOL(83% vs 83%, $p=0.88$)、functional scale(89% vs 87%, $p=0.73$)のいずれにおいても、スポーツ実施群と非実施群の間に有意差を認めなかった。

4. 考察

本研究では、小児・AYA世代の悪性骨腫瘍サバイバーにおける治療終了後のスポーツ活動の実態を明らかにし、スポーツ活動を阻害する要因および潜在的ニーズを明らかにするために、アンケート調査と臨床病理学的因子の検討を行なった。その結果、治療終了後にスポーツをしたいと思った方は全体の87%を占めたものの、実際のスポーツ復帰率は54%という結果であった。スポーツを行なっている方は全員そのスポーツを楽しんでいるようであったが、そのスポーツの満足度は78%にとどまった。またスポーツ復帰を阻む要因として、身体的・精神的な問題の他に、スポーツを行う機会がないことが挙げられ、さらに医療者からのスポーツに関する情報提供はわずか28%でしか行われていなかった。実際にサバイバーにおける術後運動機能やQOL評価とス

スポーツ復帰率との関連は認められず、また治療時年齢や患肢温存の有無（切断か否か）などの要因も、スポーツ復帰率とは関連が無かった。

今回の結果から、小児・AYA 世代というスポーツに親和性の高い年代の悪性骨腫瘍サバイバーにおいても、スポーツへの関心が非常に高いことが明らかとなった。海外における悪性骨腫瘍サバイバーの調査研究においても、AYA 世代のスポーツへの関心が高いことが報告されている。しかしながら本研究における治療後のスポーツ復帰率は海外の報告と比較しても低かった。これは術後患肢機能が低かったり、QOL が不良であることが原因ではなく、医療者側から十分な情報が提供できていないことが問題であると考えられる。2021 年に東京で開催されたパラリンピックをきっかけに、本邦でも障害者スポーツへの理解や関心が深まりつつあるが、実際の情報提供の機会はまだ十分とは言えない。スポーツ領域と医療分野、さらには患者・一般市民を巻き込んだ障害者スポーツの啓蒙が求められる。

本邦の小児・AYA 世代の悪性骨腫瘍サバイバーにおけるスポーツ復帰率が低いことのもう一つの理由として、医療者が積極的なスポーツ実施の提案をしていないことが想定される。本邦の骨腫瘍専門医の多くは、人工関節置換術後のサバイバーにはコンタクトスポーツをはじめとした激しいスポーツを行うことを禁ずることが多い。一方で欧米においては、治療後の生活においてスポーツ活動の制限をしないことが多く、そのため人工関節の破損などの晩期合併症は本邦のデータに比べ高い傾向があることが知られている。この場合、再置換術などの外科的介入が必要となり、その分周術期感染症などの合併症が発生するリスクは上昇する。このようなリスクを許容しつつ、人として健康的なスポーツ活動を行う自由を尊重するか、それとも、ともすれば難治性感染による切断術に帰結するようなリスクを許容せず、スポーツ活動をある程度制限するかは、文化や宗教観を含めた多面的な背景が影響すると考えられる。我々医療者には、正確なデータを収集し、多角的な解析を行うことで、少しでも小児・AYA 世代の悪性骨腫瘍サバイバーの希望するスポーツ復帰へのエビデンスを構築することが求められていると考える。