

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患政策研究事業）  
分担研究報告書

先天異常症候群の心理社会的影響に関する質問紙調査の把握と検討

研究分担者 渡辺智子

国立研究開発法人国立がん研究センター中央病院・遺伝カウンセラー

**研究要旨**

先天異常症候群のライフステージ全体の自然歴と合併症の把握を目指す本研究課題において、先天異常症候群の患者・家族における心理社会的影響を考慮することも重要である。そこで、先天異常症候群の患者・家族における心理社会的影響に関する質問紙調査を把握し、実際の質問紙調査に向けた質問項目の検討を行った。先天異常症候群のライフステージ全体の自然歴と合併症の把握を行う際の支援体制構築の一助としたい。

**A. 研究目的**

「先天異常症候群のライフステージ全体の自然歴と合併症の把握」を目的とする本研究課題において、先天異常症候群の患者・家族の心理社会的影響に着目し、質問紙調査の把握・検討を行うことを目的とした。これにより、先天異常症候群の自然歴・合併症の把握を行う際の支援体制構築の一助としたい。

**B. 研究方法**

本研究課題で対象としている18疾患の先天異常症候群はいずれも希少疾患である。先行研究のうち、希少疾患を対象とした”The supportive care needs of parents with a child with a rare disease: results of an online survey (Pelentsov *et al.*, BMC Fam Pract, 2016)”に記載の質問紙を中心に検討した。著者の許可を得て、上記の質問紙を日本語に翻訳し、質問項目の検討を行った。その他、遺伝医療に関する尺度および日本語版の既存尺度についても検討した。最終的に、本研究の質問紙を作成し、質問紙調査のためのウェブ入力フォームを構築した。

(倫理面への配慮)

質問紙調査は「人を対象とする生命科学・医学系研究に関する倫理指針」を遵守し、研究倫理審査委員会で承認を受けた研究計画書に基づいて実施する。

**C. 研究結果**

該当の先行研究 (Pelentsov *et al.*, 2016) においては「希少疾患がある18歳以下の子どもの保護者（父親または母親）」を対象としていた。

質問紙は6ドメイン（45問、108項目）から構成されていた。6ドメインは「あなたについて（属性）」「ケアにおける公平性」「実際のケアに関するニーズ」「人間関係」「感情面」「まとめ（全体的な満足度）」が挙げられていた。

属性には、保護者の年齢、子の診断の有無、居住区、教育レベル、雇用状況などが含まれていた。実際のケアに関するニーズには「情報の必要性」「自信」「経済的支援」「アクセス」の4点が含まれていた。このうち「情報の必要性」に着目した。

1) 情報の必要性として、「子どもの病気に関する情報」「子どもの成長および発達に関する情報」「子どもの行動に対処する方法に関する情報」「子どもが現在利用できるサービスに関する情報」「今後子どもが受ける可能性のあるサービスに関する情報」の必要性についての質問項目があった。回答は「もっと情報が必要」から「必要な情報はすべて揃っている」の5段階で回答する形式となっていた。加えて、アクセスできる情報がどの程度理解でき、どの程度役立つかも問う構成となっていた。前者は「全く容易ではない」から「とても役立つ」の5段階、後者は「全く役に立たない」から「とても役に立つ」の5段階で回答する質問形式になっていた。

2) 情報源としては、「ウェブサイト」「印刷物」「オンラインによるサポート」「電話によるサポート」「対面によるサポート」「上記以外の情報源（自由記載）」でどれが最も役立つと思うかを問う質問形式になっていた。

3) 情報源に関する質問の中には、「子どもの教育的なニーズ」「病気について子どもに教え

る」「子どもの病気について兄弟姉妹に説明する」「両親または親戚に子どもの病気について説明する」「友人、近所の人、その他の人が、子どもについて質問したときに対応する」「子どもの病気について他の子どもに説明する」「子どもの病気について教育者や学校に説明する」「医療関係者と連絡をとる」にどの程度支援が必要かという項目も含まれていた。

上記1)～3)を含め、先行研究の質問項目を検討した後、遺伝医療の心理社会的影響に関する尺度についても探索した。両者を比較し、最終的な質問項目を選定した。加えて、今回作成する質問紙調査の妥当性を検証する上で比較尺度が必要であり、日本語で信頼性と妥当性が担保されている既存尺度についても検討した。最終的に、先天異常症候群の患者・家族を対象とした質問紙を作成し、質問紙調査のウェブ入力フォームを構築した。

#### D. 考察

本研究では、先天異常症候群の患者・家族の心理社会的影響に着目し、先天異常症候群のライフステージ全体の自然歴と合併症の把握を行う際の支援体制構築に向けて、質問紙調査を把握・検討した。希少疾患のサポータティブケアに関する質問紙および遺伝医療に関する質問紙の調査を行い、最終的な質問紙を作成するとともに、質問紙調査のためのウェブ入力フォームを構築した。

先行研究で評価されていたサポータティブケアニーズには「身体面」「感情面」「情報面」「実践面」「精神面」「心理面」「社会面」の7領域があると定義されている (Fitch M, 1994, 2008)。先行研究の質問紙調査の基となったレビューでは、希少疾患の子どもをもつ親において、情報面、社会面、感情面のニーズが多く認められると報告されている (Pelentsov et al., Disabil Health J, 2015)。

情報面のニーズは先行研究同様にニーズが高いものと考えられる。実際の質問紙調査が必要となるが、先行研究の結果を踏まえつつ、本研究ではそれらの情報提供時に配慮すべき項目について、更なる絞った質問紙調査を行う必要があると議論・検討した。具体的には、先天異常症候群の自然歴・合併症の把握の基盤となる遺伝医療に着目し、その点にフォーカスした質問項目が必要であると考え、最終的に25項目を選定している。

次に、今回検討した先行研究においても「人間関係」や「感情面」を問う項目があったが、日本語で信頼性と妥当性が担保された既存尺度を検討した結果、社会面・感情面への心理社会

的影響の評価は、その回答で兼ねることができると考えた。実際の調査では既存尺度も採用することを予定している。

#### E. 結論

先天異常症候群の患者・家族の心理社会的影響の把握に向けて、質問紙調査の把握・検討を行った。先行研究の質問項目を比較・検討した後、本研究の質問紙を作成し、質問紙調査のためのウェブ入力フォームを構築した。研究倫理審査委員会による研究実施の承認が得られた後、質問紙調査を実施する。これにより、先天異常症候群のライフステージ全体の自然歴と合併症の把握を行う際の支援体制構築の一助としたい。

#### F. 研究発表

1. 論文発表 なし
2. 学会発表 なし

#### G. 知的財産権の出願・登録状況（予定を含む。）

1. 特許取得 なし
2. 実用新案登録 なし
3. その他 なし