

平成26年度 厚生労働科学研究費補助金（エイズ対策研究事業）  
血友病とその治療に伴う合併症の克服に関する研究  
（H21 - エイズ - 一般 - 001）

「薬害 HIV 感染被害者・家族等の現状からみた、  
血友病に係る今後の課題及び課題克服への支援研究」  
報告書

研究分担者 柿沼 章子



社会福祉法人 はばたき福祉事業団

平成27年3月



平成26年度 厚生労働科学研究費補助金（エイズ対策研究事業）

血友病とその治療に伴う合併症の克服に関する研究

（H21 - エイズ - 一般 - 001）

**「薬害 HIV 感染被害者・家族等の現状からみた、  
血友病に係る今後の課題及び課題克服への支援研究」報告書**

研究分担者 柿沼 章子

（ 社会福祉法人 はばたき福祉事業団 ）

平成 27 年 3 月

平成 26 年度 厚生労働科学研究費補助金エイズ対策研究事業

血友病とその治療に伴う合併症の克服に関する研究（代表：坂田 洋一）

「薬害 HIV 感染被害者・家族等の現状からみた、血友病に係わる今後の課題及び課題克服への支援研究」

分担研究者

柿沼章子 （社会福祉法人はばたき福祉事業団）

研究協力者

井上 佳世 （お茶の水女子大学大学院人間文化創成科学研究科）

板垣 貴志 （株式会社アクセライト）

久地井 寿哉 （社会福祉法人はばたき福祉事業団）

廣瀬直紀 （東京大学医学部健康総合科学科）

望月美栄子 （株式会社アクセライト）

**「薬害 HIV 感染被害者・家族等の現状からみた、  
血友病に係わる今後の課題及び課題克服への支援研究」報告書**

— 目次 —

|   |        |
|---|--------|
| はじめに  |        |
| 柿沼 章子（社会福祉法人はばたき福祉事業団）  | ・・・ 1  |
| 1. 薬害 HIV 感染被害者・家族等の現状からみた、血友病に係わる今後の課題<br>及び課題克服への支援研究 3 年間のまとめ（平成 24 年度～平成 26 年度） |        |
| 柿沼 章子（社会福祉法人はばたき福祉事業団）  | ・・・ 5  |
| 2. 血友病児の母親にとっての遺伝をめぐる経験類型と克服すべき課題<br>—血友病家系女性への支援に向けて—                              |        |
| 望月 美栄子（株式会社アクセライト）  | ・・・ 27 |
| 3. 血友病家系女性の血友病に対する認識と自身の出血症状について  |        |
| 井上 佳世（お茶の水女子大学大学院人間文化創成科学研究科）   | ・・・ 46 |
| 4. 血友病保因者の遺伝に関する支援課題の検討<br>—テキストマイニングによるインタビューデータ分析の試み—                             |        |
| 板垣 貴志（株式会社アクセライト）<br>廣瀬 直紀（東京大学医学部健康総合科学科）  | ・・・ 60 |

はじめに

柿沼 章子

社会福祉法人 はばたき福祉事業団福祉事業団

社会福祉法人はばたき福祉事業団は薬害 HIV 感染被害者、血友病患者・家族の健康と社会参加を支援しています。HIV に汚染された血液凝固因子製剤による補充療法がもたらした薬害被害を二度と起こしてはなりません。本事業団は安心・安全な血液事業への働きかけだけでなく、血友病治療に関して患者・家族の潜在的希望である根治療法、遺伝子治療を目指しています。

本研究では、こうした血友病患者・家族の思いとともに 6 年前から血友病の根治を目指した研究班の一員として取り組んできました。本報告書では、薬害 HIV 感染被害者・家族の経験や教訓に基づき、血友病に関する意識や血友病の患者のための家族支援を構築する必要性や将来のビジョンについてまとめました。得られた主な知見は以下の通りです。

### 血友病患者の自立

医療が向上し、就労できる健康状態であっても就労、社会参加が進まない現状が薬害 HIV 被害者にはあり、これが大きな課題の一つです。

相談事業で薬害 HIV 被害者の支援をしている中、同じ被害経験を受けても仕事や家庭をもち生活している患者もいれば、そうでない患者もいます。被害を受けた時期（年齢）が関係しているとも思いますが、同世代間でも違いがあります。それではこの違いは何から生じているのか突き詰めていきたいと考えました。

そこでこの研究では『自立＝社会参加・就労』と定義し、自立への準備期間でもある成育歴と自立の関係を調べる為、血友病患者の母親に聞き取り調査を行いました。

### 母親の影響が大きい

初期の聞き取り調査では、東海地区の患者の就労率、結婚、挙児等自立した患者が多いことがわかりました。他地域に比べ東海地区は「病気があっても働くのは当たり前」という考えをもちながら子育てをしていた母親が多いことがわかり印象的でした。

（血友病だから）仕事は難しい、（血友病だから）結婚は難しい等、前置きのような「血友病だから」という否定的な前提をしていません。この母親の姿勢が自立に大きく影響していると感じました。

### 母親の負担の重さ

しかし、血友病患者をとりまく家族の中で母親の負担は非常に重いことは明らかです。

①遺伝はもちろん、子育て、特に②学校への対応、③夫（父親）との関係 ④血友病のきょうだいの子育て等課題が多いことがわかりました。そしてこれらを⑤情報が不十分な中、薬害 HIV 感染被害が起きたことで母親の負担はさらに重くなり、血友病医との隔たりや患者会も崩壊する中、だれにも相談できずに独り対応し苦慮してきた母親の姿が浮かんできます。

### 母親の負担は更に大きく

母親の負担の根底には遺伝がありました。薬害 HIV 感染被害が起こったことでさらにその負担が大きくなりました。「血友病に産んでいなければ HIV に感染することもなかった」と薬害 HIV 被害に対しても自身の遺伝を責める様子が伺われました。

また患者本人への「負い目」だけでなく、女兒がある場合も保因者の継承の可能性という「負い目」をもっています。これらの対応は個人で背負うにはあまりにも過酷な現実でした。

### 遺伝はブラックボックス化

薬害 HIV 被害とも絡んで、遺伝に関するネガティブな経験に関して「墓場までもっていく」と話す母親は少なくありませんでした。そして女兒をもつ母親は娘にも保因者として同じ苦しみを継承させてしまうのではないかと心を痛めつつ独り悩みを抱えています。誰にも相談できず各々の心の中にブラックボックスを抱えつづけています。

### 血友病を家族で共有することの大切さ

『血友病』は家族にとって多かれ少なかれ影響はあります。夫との関係や母親ときょうだい、血友病患者ときょうだいの関係にも影響があります。その影響をもたらす『血友病』を（血友病だから）というネガティブなものでなく（血友病だけれど）というポジティブなものに変えて家族が『血友病』に向き合うことが大切なのではないでしょうか。

また、あわせて解決に向けて以下の具体的支援にも取り組んできました。本研究の遺伝相談については、保因者の潜在的なニーズがよりむしろ準備性支援にあることを発見しました。これまでに取り組んだ具体的な支援事例から学んだことは以下の通りとなります。

### 遺伝相談に関する情報提供

遺伝相談は保因者にとって有効な具体的支援の一つですが、そうした支援のための準備期間の確保や適切な情報提供が重要と考えました。それにはいくつかの理由があります。

### 準備性支援とは

遺伝の相談は母親が娘の相談という形ではじまることが多いです。つまり、相談者＝相談対象者ではありません。単なる相談者対応では解決につながらないケースが少なくありません。実際の事例では、母親が娘に十分説明せず何となく本事業団や医療機関に連れてこられたという状況が多くありました。娘にとっては準備どころか晴天の霹靂ということでしょう。また、遺伝相談は保因者かどうかをすぐに、はっきりさせたいという保因者や血友病家系女性特有のニーズがあり、そうした検査の相談が多いことも特徴でした。こうした状況では、まず検査ありきで、検査によっては血友病患者の協力も必要であることや、結果が明らかになった後の対応まで十分考える余裕がない様子が見受けられました。これも検査結果に対する準備ができていないということが問題であり、その後の適切な支援にもつながりにくいという背景となります。以上のことから遺伝カウンセラーや医療機関に相談する以前に準備がとても必要だということがわかります。

### 準備性支援が重要な理由

このように保因者の潜在的なニーズとして準備性支援が重要であることを発見しました。現状では、いつか遺伝の事を話し合おうと思いつつ、先延ばしにしている母親は少なくありません。そして、結婚や出産という場面に突き当たりやっとな決心することが多いようです。しかし、時期を逃し、問題に目をつぶり対処しないまま結婚・血友病児を出産して問題が生じ悩んでいる家族がいます。一方で、はじめから、結婚・出産をしないと決めているきょうだいもいます。その背景には血友病の正しい知識や情報がないことや薬害 HIV 被害を経験したきょうだいや自身のネガティブな経験によるものがあります。どちらも血友病、遺伝に関する準備をしないことにより問題が生じるケースです。以上により準備性支援は、保因者の人生のそれぞれの局面でも非常に重要なものだと考えます。



### 保因者としての問題解決

こうした保因者に対する有効な支援についての研究を進める中で、私たちは、「健康・心・負い目」といった支援に関する重要なキーワードを発見しました。保因者や血友病家系女性の人生設計のための支援法の必要性が明らかになりました。あわせて具体的な支援方法として CCC（キャリア キャリア カウンセリング）を提案したいと思います。CCC の目的は、その人らしく生きるため、次世代に命をつなぐため、保因者（キャリア）として一人としての（キャリア）を相談できる人、場をつくる相談体制づくりです。

母親自身の保因者としての支援する際、配慮すべき点としては以下があります。

- ・ 心：（保因者としての受止め）
- ・ 身体（凝固活性が低いことによる身体への影響）
- ・ 負い目 血友病患者に対して／娘に対して

### 準備性支援の支援ツール作成

上記のポイントを踏まえ、準備性支援のためのツールとして、以下の内容を含むウェブコンテンツを作成しました。

- ・ 遺伝の相談は誰のため？
- ・ 事実に向き合うこと
- ・ 具体的な対処～遺伝相談は家族ぐるみの取り組み
- ・ 私の人生をいきる

今後の課題としては、こうしたブラックボックスをどう開け、将来を考える機会や動機づけを支援し、将来に対する希望をどのような形で実現するか、その理論や実践が必要になると考えています。そうした目的での患者参加型研究は少なく、本研究が初となる取り組みです。あわせて各専門家の視点での分析や提言についても本報告書にまとめました。

また、血友病克服という大きな目標に関していえば、薬害 HIV 感染被害者・家族の経験や教訓に基づき、研究のための研究に陥ることなく、具体的でダイナミックな支援につながるよう、集約的な支援機能を持つ「血友病センターの設置」が望まれます。また、中立的な第三者支援機関による、疫学・データベース・相談録などの分析実施や、最新の医学的な知見を患者・家族に情報提供するなどの支援提供が望まれています。

本研究から明らかになったように、血友病根治を目指しつつ社会的課題を克服するための支援の開発・実施が必要であり、積極的に取り組みたいと考えています。

研究課題：薬害 HIV 感染被害者・家族等の現状からみた、  
血友病に係わる今後の課題及び課題克服への支援研究  
3 年間のまとめ（平成 24 年度～平成 26 年度）

研究分担者：柿沼 章子（社会福祉法人はばたき福祉事業団）

### 研究要旨

本研究では、当事者参加型実証研究として、薬害 HIV 被害者・家族に対し、血友病とともに生きる生活の質の向上、心理社会的な問題の解決、薬害被害の歴史を伝える等の観点から、機縁法による面接調査および自記式質問紙による支援ニーズ調査等を実施、あわせて困難事例については支援を実施し、支援ニーズの抽出を行った。分析の結果、薬害 HIV 感染被害者・家族等の人生上の発達と社会生活の質の向上に関連した潜在的な支援要因「支援準備性」を発見し、克服課題の鍵となることが示唆された。克服すべき主要な課題は、1) ライフステージにおいて、当事者性の獲得や意思決定の出発点となる「準備期」を含む長期 QOL 対策 2) 支援の欠如、特に長期に渡り「薬害 HIV 被害克服」ならびに「血友病根治」への困難が継続していること、3) 薬害 HIV 被害と関連した負の経験は、血友病の「遺伝」や「保因」といった社会的課題の形で次世代に継承する可能性、であった。これらを教訓に、集約的な支援機能を持つ「血友病センターの設置」が必要である。あわせて、中立的な第三者支援機関による、疫学・データベース・相談録などの分析実施、最新の医学的な知見を患者・家族に情報提供するなどの支援が望まれる。

#### A. 研究目的

薬害 HIV 感染被害者・家族等の現状と困難経験については、血友病・HIV と関連した病気の受け止めやその後の意思決定・将来計画について顕著な困難を継続していることが明確化しつつあり、準備性支援の欠如が課題となっている。血友病家系の女性に対する支援は、慢性疾患・遺伝子性疾患特有の家族問題等に対応できる遺伝相談体制、自己決定に関する情報共有に課題があり、世界的にもアウトリーチの重要課題である(MARK W.SKINNER, Haemophilia,2012)。

そこで、本研究は、血友病家系女性、特

に血友病保因者の心理社会的影響や、保因者自身の健康状態についての十分な調査が我が国では十分に行われていない現状を踏まえ、まず、保因者女性に対してパイロットスタディとしてインタビュー調査を実施する。一連の健康史を把握したうえで、課題を抽出し、遺伝相談に関わる支援プロセスについて分析と検討を行う。

つぎに、本研究では、保因者における準備性の課題を焦点化し、分析と検討を行う。準備性とは、保因者が血友病・遺伝に関する個別の課題に対し、意思決定する前段階（無関心期・関心期・準備期）のことである。

さらに本研究では、保因者の支援特性を多角的に明らかにし、今後の課題克服・支援に必要な情報共有・相談体制の構築のために必要となる科学的・論理的・実践的な枠組みを提供したい。

## B. 研究方法

### 1) 調査準備～分析計画の策定（平成 24 年度）

遺伝・血友病はケースセンシティブなテーマであり、調査目的、意義、調査内容の説明に慎重な配慮を要する。また分析にあたり、対象者の準備性段階に応じて情報提供や支援のあり方、社会関係性の違い、自らの保因情報の獲得・共有・開示状況、ならびに生活構造が異なるという仮説を立て、複数の研究者、医療従事者、当事者らにより分析計画を策定した。

### 2) 聞き取り調査・自記式質問紙調査（平成 25 年度）

機縁法により質問紙調査（n=30）を行い、個人情報に配慮し、非連結により分析を行った。

質問項目は、遺伝および血友病の保因に関わる生活史、および検査・告知に関わる出来事、情報の共有・開示範囲、開示意图等について尋ねた。

あわせて、生活史を中心に支援脆弱性についての血友病保因者（5 名）に対する半構造化インタビュー調査を行った。

### 3) 分析（平成 26 年度）

質問紙調査については、単純集計を行い、基本属性に基づく一元配置分散分析を行った。その後の統計的推論では、準備性要因

の探索のため、多変量解析を用いたベイズ推定ならびにモデル化を行った。

準備性支援においては、ケース対応を基本にし、準備性評価を行い、支援目標の設定を行った。準備性評価については、予防行動採用理論（Precaution Adoption Process Model : PAPM(Glanz, et al., 2008)）を用いた。ステージ 1～ステージ 7（問題の無認識～意思決定の維持が）が定義されており、準備性段階にはステージ 1～4 が対応している。その後、複数の研究者、遺伝カウンセラー、医療従事者、当事者によって、対象者の支援特性について支援計画の検討を行った。

聞き取り調査については、新たにケースとして追加された 5 件を含む、インタビューデータ合計 34 件を対象に、特に遺伝に関する語りを中心に、質的研究の手法を用いて内容を分析する。逐語トランスクリプトをコーディング⇒カテゴリーを作成、妥当性を高めるために、共同研究者間で検討し、課題ならびに支援プロセスの類型化を行った。

（倫理面への配慮）

本研究は、「疫学研究に関する倫理指針」等を遵守する形で、社会福祉法人はばたき福祉事業団倫理審査委員会に諮り、平成 21 年 4 月 12 日承認を得た上で、研究を実施した（承認番号 1）。

また質問紙調査については、「生物医学的研究に関する倫理指針」等を遵守する形で、お茶の水女子大学生物医学的研究の倫理特別委員会に諮り、平成 24 年 12 月 13 日承認を得た上で、研究を実施した。（通知番号第 24-20 号）

## C. 研究結果

### 1) 調査準備～分析計画の策定（平成 24 年度）について

本研究では、分析計画策定段階で、参加型活動研究（participatory action research）型の研究デザインを採用した点が特徴である。理由として、対象者らは、心理的侵襲性、スティグマや PTSD 等に関するフォロー体制が必要であったことがある。あわせて、医療的な調査対応として当面は薬害 HIV 感染被害者・家族に限ることの条件で医療機関側からの支援協力が得られたこと、丁寧に調査内容、対応について事前説明を丁寧に行う、などの配慮を行った。あわせて、質問紙調査（調査対象：血友病保因者、30 名、機縁法）を計画した。

### 2) 聞き取り調査・自記式質問紙調査、支援実施（平成 25 年度）

自記式質問紙票の開発、配票を完了した。あわせて、困難事例を中心にケースアプローチ（5 件）による準備性評価と予防行動採用ステージ分類を行い、支援目標を設定した。支援ニーズとして、1) 保因者の健康支援 2) 世代継承に関する相談支援 3) 意思決定の共有（shared decision making）ならびに準備性支援が抽出され、具体的な支援事例から、薬害 HIV 感染被害の影響は 1) ～3) にかかわる課題克服プロセスの阻害要因であることが示唆された。

### 3) 分析（平成 26 年度）

血友病家系女性へのアンケート調査の分析の結果、対象者への支援がほとんど行き届いていない現状があった。支援の未経験率は、心理カウンセリング（90.0%）、電話相

談（86.7%）、ホームページ等（80.0%）、遺伝カウンセリング（76.7%）、ピアカウンセリング（63.3%）等であった。また、これらの支援経験の状況を元に、事後的な支援経験の程度からベイズ推定を行ったところ、潜在的な支援要因として、「支援準備性」が新たに発見された。また、 $GFI=0.930$ 、 $CFI=1.000$ 、 $RMSEA<0.001$  と、適合度の高い説明モデルが得られた。

あわせて、聞き取り調査データの質的分析の結果、血友病家系女性の遺伝をめぐる状況と問題として、「母親たちの保因者に関する認識を形成する経験」が「保因者に関する認識と受け止め」に影響を与え、その結果、以下 3 点の問題へと繋がっていた。1) 保因者に関する認識が与える影響（血友病児を出産する不安、保因者可能性のある娘への対応、夫婦関係の変化）、2) 遺伝子医療の意味と役割（出生前診断、遺伝子診断、遺伝カウンセリング）、3) 血友病家系女性にとって必要な支援（相談窓口、適切な情報提供）

## D. 考察

薬害 HIV 感染被害者・家族等の現状と困難経験として、支援準備性の欠如ならびに、薬害 HIV 被害による社会的課題が明確化した。特に、「血友病の根治」が可能ではないこと、「薬害 HIV 被害克服」が十分でないことを背景に以下が示唆された。1) 事後的なライフイベントへの対処スタイルは、医師＝患者パターンリズム関係を強化し、さらに家族関係の疎外を招いた。2) 薬害 HIV 被害とその後の支援の欠如が特に被害者の母親たちの血友病の保因に関する認識形成の機会喪失を招いた。3) 薬害被害経験への

負の対処スタイルは、娘や孫へ次世代へと「負の遺産 (negative legacy)」として継承されていた。一方で、準備性支援、人生設計といったライフイベントに対する事前的な対処について、専門的な支援状況、ピアへの支援状況、支援環境ともに十分ではなかった。本研究においては、この困難類型について、予防行動採用理論を拡張する形で、準備性のステージ 0 にかかわる課題と位置づけ、支援を提案した。また、具体的な取り組みとして、「血友病家系女性・保因者のための情報サイト」開設を行い、準備性に関する支援を行った。URL：  
<http://hemophilia-line.info/>

#### E. 結論

本研究により、薬害 HIV 感染被害者・家族等の現状からみた、血友病に係わる課題克服と支援について、新たな知見として、潜在的な支援要因「支援準備性」を発見した。人生上の発達と社会生活の質の向上に関連した克服課題であり、当事者性の獲得や意思決定の出発点となる重要な支援である。また、薬害 HIV 被害者・家族は、長期に渡り「薬害 HIV 被害克服」ならびに「血友病根治」の課題が重なる困難が継続しており、さらにその負の経験が「遺伝」や「保因」の社会的課題の形で、次世代に継承する困難の歴史にいる。これらの解決のために、治療開発・支援開発含む集約的な支援機能を持つ血友病センターの設置、中立的な第三者支援機関による最新の情報提供や相談機会の提供、具体的な社会的課題克服のための支援開発と実施は可能であり、これらは将来に対する継続的な支援方法として有用性が期待できる。

これらは、本研究により新たに得られた知見であり、薬害エイズ事件の教訓から得られた貴重な薬害 HIV 被害者・家族等の課題克服と支援方策の今後の方向性を示すものであると考えられる。

#### F. 健康危険情報

なし

#### G. 研究発表

- 1) 柿沼章子、久地井寿哉、岩野友里、大平勝美、HIV/HCV 重複感染患者の支援特性 (第 6 報) ～薬害 HIV 感染被害者の長期療養と今後の支援の方向性と提言. 第 28 回日本エイズ学会学術集会・総会、2014.12
- 2) 久地井寿哉、柿沼章子、岩野友里、大平勝美、HIV/HCV 重複感染患者の支援特性 (第 5 報) ～薬害 HIV 感染被害者の長期間生存データに基づく生存予測分析. 第 28 回日本エイズ学会学術集会・総会、2014.12
- 3) 岩野友里、久地井寿哉、柿沼章子、大平勝美、HIV/HCV 重複感染患者の支援特性 (第 4 報) ～生活困難状況ならびに生活機能との関連. 第 28 回日本エイズ学会学術集会・総会、2014.12
- 4) 大金美和、塩田ひとみ、小山美紀、柴山志穂美、久地井寿哉、岩野友里、柿沼章子、大平勝美、池田和子、瀧永博之、岡慎一、HIV 感染血友病患者の健康関連 QOL の実態調査、第 28 回日本エイズ学会学術集会・総会、2014.12

- 5) 久地井寿哉、柿沼章子、岩野友里、大平勝美. 乳がんサバイバーにおける生活機能の原状回復に関するパイロットケーススタディ、第 73 回日本公衆衛生学会総会、2014.11
- 6) 久地井寿哉、柿沼章子、岩野友里、大平勝美. 血友病保因者の遺伝に関する予防行動採用に関わる準備性評価の試み～薬害 HIV 感染被害者・家族を事例としたパイロット調査より第 23 回日本健康教育学会大会、2014. 7
- 7) 板垣貴志、久地井寿哉、柿沼章子、大平勝美、岩野友里、根岸麻歩由. 肝炎患者の就労と病気の治療・療養の両立に関する相談事例の類型化、第 23 回日本健康教育学会大会、2014. 7
- 8) 白坂るみ、久地井寿哉、柿沼章子、岩野友里、大平勝美. HIV 感染者の北海道福祉施設への受け入れ促進を目的とした地域実践の試み、第 23 回日本健康教育学会大会、2014. 7
- 9) 柿沼章子、榎本哲、久地井寿哉、大平勝美. 乳がんサバイバーの生活機能実態に関する ICF を活用した患者参加型研究（第一報）：基本設計と意義～生活機能の原状回復に関連するライフ要因探索～、第 55 回日本社会医学会総会、2014.7
- 10) 板垣貴志、久地井寿哉、柿沼章子、岩野友里、大平勝美. 血友病保因者の遺伝に関する支援課題の検討（第三報）—テキストマイニングによるインタビューデータ分析の試み—、第 40 回日本保健医療社会学会大会、2014.5
- 11) 岩野友里、久地井寿哉、柿沼章子、大平勝美. 血液凝固因子製剤による HIV 感染被害者の生活困難度の推定（第三報）ICF サブセット（HIV/HCV：個別疾患群項目）を用いた生活困難度の検討、第 40 回日本保健医療社会学会大会、2014.5
- 12) 久地井寿哉、柿沼章子、岩野友里、大平勝美. 血液凝固因子製剤による HIV 感染被害者の生活困難度の推定（第二報）J-SEC（新社会経済的階層分類）を用いた社会経済的地位および規定要因の検討、第 40 回日本保健医療社会学会大会、2014.5
- 13) 柿沼章子、久地井寿哉、岩野友里、大平勝美. 血液凝固因子製剤による HIV 感染被害者の生活困難度の推定（第一報）ICF コアセット（7 項目版）を用いた年齢階級別の分析、第 40 回日本保健医療社会学会大会、2014.5
- 14) Miwa Ogane, Toshiya Kuchii, Fumihide Kanaya, shiomi Shibayama, Akiko Kakinuma, Katsumi Ohira, Junko Tanaka, Megumi Shimada, Kazuko Ikeda, Shinichi Oka: Barrier Assessment in Establishing Comprehensive Client-Level Coordination for Treatment and Medical Welfare of People Living with Hemophilia and HIV/AIDS in Japan.WFH, 2014.5.
- 15) Seki Yukiko , Akiko Kakinuma, Toshiya Kuchii, Kayo Inoue, Katsumi Ohira: Strategies by Japanese Mothers of

- Children with Hemophilia Regarding Hemophilia Disclosure at School, WFH, 2014.5.
- 16) Kayo Inoue , Hironao Numabe, Akiko Kakinuma, Toshiya Kuchii, Yukiko Seki, Katsumi Ohira: The bleeding symptom of women in the Japanese hemophilia families ,WFH, 2014.5.
- 17) Toshiya Kuchii, Akiko Kakinuma, Kayo Inoue, Yukiko Seki, Katsumi Ohira:Life events, support taking experiences and health readiness; psychosocial difficulties among hemophilic carriers in Japan (A pilot).WFH, 2014.5.
- 18) Akiko Kakinuma, Toshiyuki Kuchii, Kayo Inoue, Yukiko Seki, Katsumi Ohira :How we address support needs and hereditary issues in Japanese hemophilic carriers? Narrative case study based on semi-structured interviews (A pilot).WFH, 2014.5.
- 19) 柿沼章子、久地井寿哉、岩野友里、藤谷順子、大平勝美、HIV/HCV 重複感染患者の支援特性（第 1 報）ICF（国際生活機能分類）に基づく生活機能尺度 の開発第 27 回日本エイズ学会学術集会・総会、2013.11
- 20) 久地井寿哉、柿沼章子、岩野友里、藤谷順子、大平勝美 HIV/HCV 重複感染患者の支援特性（第 2 報）生活機能の社会経済的格差の分析、第 27 回日本エイズ学会学術集会・総会、2013.11
- 21) 岩野友里、久地井寿哉、柿沼章子、大平勝美、HIV/HCV 重複感染患者の支援特性（第 3 報）自己観察記録に基づく期間健康特性の分析 第 27 回日本エイズ学会学術集会・総会、2013.11
- 22) 柿沼章子、久地井寿哉、小俣智子、西牧謙吾、大平勝美、小児がん患者等の多職種協働による病気を持つ子どもの自立を実現するための動的的教育支援システム分析、第 60 回日本学校保健学会、2013.11
- 23) 久地井 寿哉、柿沼章子、岩野友里、大平勝美、「エイズ患者／HIV 感染者」に対する長期療養時代の施設受け入れ可能性～北海道介護・福祉施設調査、第 72 回日本公衆衛生学会、2013.10
- 24) Toshiya Kuchii, Akiko Kakinuma, Tomosato Iwano, Katsumi Ohira, A nationwide survey of SRH and Socio-economic positioning for HIV/AIDS patients in Japan. ;The International Conference on Social Stratification and Health 2013:Interdisciplinary Research and Action for Equity, 2013.8.
- 25) 柿沼章子、久地井寿哉、井上佳世、大平勝美、血友病保因者の遺伝に関する支援ニーズの検討（第一報）—薬害 HIV 感染被害者・家族を事例としたパイロット調査について—、第 54 回日本社会医学学会総会、

- 2013.7
- 26) 久地井寿哉、柿沼章子、井上佳世、大平勝美、血友病保因者の遺伝に関する支援ニーズの検討（第二報）—薬害 HIV 感染被害者・家族を事例とした支援モデルの検討一、第 54 回日本社会医学会総会、2013.7
- 27) 井上佳世、柿沼章子、久地井寿哉、大平勝美、血友病家系女性の心理社会的課題と健康状況の調査研究報告 血友病保因者の遺伝に関する支援ニーズ検討(第三報) , , 第 54 回日本社会医学会総会、2013.7
- 28) 柿沼章子、久地井寿哉、小俣智子、西牧謙吾、大平勝美、小児がん患者等の多職種協働による病気を持つ子どもの自立を実現するための教育支援システム分析、第 22 回日本健康教育学会学術大会、2013.6
- 29) 久地井寿哉、柿沼章子、岩野友里、石射いずみ、大平勝美、日本の自発的無償献血（VNRBD）に関する健康教育上の課題、第 22 回日本健康教育学会学術大会、2013.6
- 30) 柿沼章子、久地井寿哉、井上佳世、大平勝美、血友病保因者の遺伝に関する支援課題の検討（第一報）薬害 HIV 感染被害者・家族を事例としたパイロットスタディ、第 39 回日本保健医療社会学会、2013.5
- 31) 久地井寿哉、柿沼章子、井上佳世、大平勝美、血友病保因者の遺伝に関する支援課題の検討（第二報）—薬害 HIV 感染被害者・家族における支援特性・支援環境構築の検討一、第 39 回日本保健医療社会学会、2013.5
- 32) 柿沼章子、久地井寿哉、井上佳世、関由紀子、北村弥生、玉井真理子、井上洋士、大平勝美.薬害H I V感染被害者・家族の現状からみた、血友病に係わる今後の課題及び課題克服への支援研究(第三報)—生活の再構築支援と支援展開 健康の多様性（Health Diversity）の観点から—第 38 回日本保健医療社会学会大会. 2012.5
- 33) 久地井寿哉、柿沼章子、井上洋士、井上佳世、関由紀子、北村弥生、玉井真理子、大平勝美. 薬害H I V感染被害者・家族の現状からみた、血友病に係わる今後の課題及び課題克服への支援研究(第四報)—生活再構築のための、自己支援・相互支援・専門的支援の連携における課題一、第 38 回日本保健医療社会学会大会. 2012.5
- 34) 柿沼章子 ,久地井寿哉、井上佳世、玉井真理子、大平勝美、薬害H I V感染被害者・家族の支援環境構築（第一報）～自立と意思決定に関する課題:第 53 回日本社会医学会特別号  
(0910-9919)2012page111-112(2012.07)
- 35) 久地井寿哉、柿沼章子、井上佳世、玉井真理子、大平勝美：薬害H I V感染被害者・家族の支援環境構築（第二報）～情報支援とF A C Tアプローチ:第 53 回日本社会医学会特別号  
(0910-9919)2012page113-114(2012.07)
- 36) 井上佳世、玉井真理子、久地井寿哉、柿沼章子 ,大平勝美薬害H I V感染被害



者・家族の支援環境構築（第三報）～遺伝性疾患であることの課題と支援：：第 53 回日本社会医学会特別号  
(0910-9919)2012page115-116(2012.07)

37) Akiko Kakinuma , Toshiya Kuchii, Yukiko Seki, Yoji Inoue, Yayoi Kitamura, Yayoi Kitamura, Mariko Tamai, Kayo Inoue, Katsumi Ohira: Restructuring and improving QOL in Japanese HIV victims with hemophilia and their families: How do we rebuild our life with effective support? : WORLD FEDERATION OF HEMOPHILIA, WFH 2012 World Congress, 8-12 July, 2012, Paris, FRANCE

38) Yukiko Seki, Akiko Kakinuma , Mariko Tamai, Yayoi Kitamura, Yoji Inoue, Toshiya Kuchii, Kayo Inoue, Katsumi Ohira: Difficulties faced by haemophilic students in Japan : Yukiko Seki (Saitama University): WORLD FEDERATION OF HEMOPHILIA, WFH 2012 World Congress, 8-12 July, 2012, Paris, FRANCE

39) Yayoi Kitamura, Akiko Kakinuma , Toshiya Kuchii, Yukiko Seki, Yoji Inoue, Yayoi Kitamura, Mariko Tamai, Kayo Inoue, Katsumi Ohira: Feelings, Experiences on the Sibling Relationship and the Perception of Heredity on Hemophilia by Patients and Siblings. WORLD FEDERATION OF HEMOPHILIA, WFH 2012 World Congress, 8-12 July, 2012, Paris, FRANCE

40) Eiichi Mizukoshi , Akiko Kakinuma, Ysuhiko Sugwara, Shinichi Oka, Katsumi Ohira A 10-year follow up of an HIV/HCV co-infected hemophilia A after living donor liver transplantation: WORLD FEDERATION OF HEMOPHILIA, WFH 2012 World Congress, 8-12 July, 2012, Paris, FRANCE

41) 久地井寿哉、柿沼章子、関由紀子、岩野友里、大平勝美. 職域における HIV/AIDS と就労に関する意識調査. 第 21 回日本健康教育学会学術大会. 2012.7

11) 柿沼章子、久地井寿哉、関由紀子、岩野友里、大平勝美. 慢性疾患患者の自立・将来計画支援～、血友病・遺伝に関する情報支援プログラムの開発. 第 21 回日本健康教育学会学術大会 2012.7

42) 久地井 寿哉、柿沼章子、岩野友里、大平勝美, 近年における薬害 HIV 感染被害者の累積死亡者数および粗死亡率の地域特性に関する分析, 第 71 回日本公衆衛生学. 2012.10

43) 柿沼章子. 岩野友里. 久地井寿哉. 大平勝美 .HIV・HCV 重複感染血友病患者の長期療養に関する患者参加型研究（第一報）患者背景. 第 26 回日本エイズ学会学術集会・総会. 2012.11

44) 岩野友里, 柿沼章子, 久地井寿哉, 大平勝美. HIV・HCV 重複感染血友病患者の長期療養に関する患者参加型研究（第二報）困難経験の類型化. 第 26 回日本エイズ学会

学術集会・総会. 2012.11

45) 久地井寿哉、柿沼章子、岩野友里、田中純子、大津留晶. HIV・HCV 重複感染血友病患者の長期療養に関する患者参加型研究（第三報）ADL の社会心理特性評価. 第 26 回日本エイズ学会学術集会・総会. 2012.11

#### H. 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

#### 謝辞

本研究は以下の協力研究者の尽力によりなされたことに深く御礼申し上げます。

井上 佳世（お茶の水女子大学大学院人間文化創成科学研究科）、久地井 寿哉（社会福祉法人はばたき福祉事業団）、関 由起子（埼玉大学教育学部学校保健講座）、望月美栄子（株式会社アクセライト）、板垣貴志（株式会社アクセライト）

平成26年度研究結果  
薬害HIV感染被害者・家族等の現状からみた、  
血友病に係わる今後の課題および課題克服への支援研究  
～薬害HIV被害者・家族、血友病家系の調査に基づく  
血友病家族の本質的な課題～

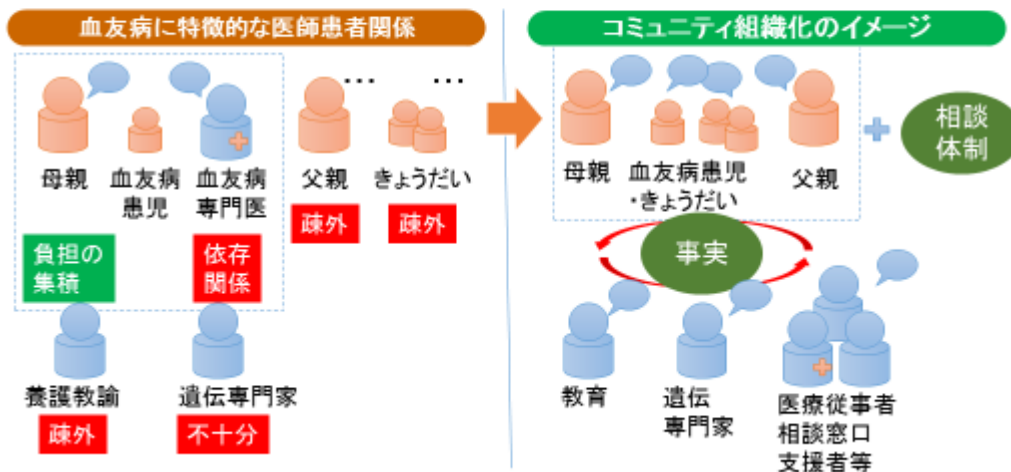
分担研究者：柿沼章子

## 背景 自立の課題



## 背景

- ★ 薬害HIV被害者・家族の自立支援課題として、これまで具体的な研究を続けてきた。
- ★ 被害の発生、拡大、その後の長期的影響には支援の本質的なあり方に問題があった。
- ★ 血友病保因者・血友病家系女性の健康問題が、本研究班の取り組みを契機に顕在化した。



## 支援のための課題

- 家族関係とそのサポート要因 (父親、きょうだい関係も)
- 医療機関の確保と医療スタッフとのコミュニケーション
- 保育園・幼稚園・学校生活
- 就労 (教育・社会参加とのかかわり)
- HIV/AIDS・血友病の偏見 (内なる差別不安も)
- +
- 遺伝をめぐる問題

## 本研究の目指すもの

- 有形／無形の準備性を支える「しくみ」とは？
  - 中立的な意思決定、人生の自己決定を支援するしくみ。
    - 公的な仕組み、国の資源としての位置づけ（ハード面／ソフト面）。
  - ファクト（事実）を知る
    - ファクトシートの作成／普及啓発
    - そのようなファクトシートを毎年発行する機構が必要
  - 汎抵抗資源の創出（さまざまな困難に適切に対処する）
    - 医療等によるパターンリズムの影響を低減
    - 相談機会の保障
    - 運営主体の自立性の保障
- これらは、血友病保因者／薬害被害者・家族の課題克服に有益であると同時に、広く病気をもつ人への新たな支援の形を示唆すると同時に具体的な提言を目指したい。

## 【結果】

- 国際発表（2014年度分、WFH2014など）

|                            | タイトル  | 内容   |
|----------------------------|---|--|
| WFH2014<br>(柿沼他、2014)      | How we address support needs and hereditary issues in Japanese hemophilic carriers? Narrative case study based on semi-structured interviews (A pilot).WFH, 2014.             | 血友病の保因者の支援課題と、遺伝の問題について、聞き取り調査を基に事例を紹介した研究。母親、保因者としての自分自身の健康問題、ケア提供者としての負担が、薬害HIV事件によって、より重いものになったことを示した |
| WFH2014<br>(久地井、柿沼他、2014)  | Life events, support taking experiences and health readiness; psychosocial difficulties among hemophilic carriers in Japan (A pilot).WFH, 2014.                               | 保因者の人生を長いスパンで考えた時に、よりよい支援につながるための鍵は、病気や自分の人生を受け入れることに加え、過去によりよい支援を受けた経験が多いほど、準備性が高くなり、将来のサポートにつながりやすい    |
| WFH2014<br>(井上、柿沼他、2014)   | The bleeding symptom of women in the Japanese hemophilia families ,WFH, 2014.   | 血友病保因者の健康について、確定保因者と推定保因者を比較した研究。共通点としては、婦人科疾患の頻度が大いこと、とくに出血や流産等の経験が高い                                   |
| WFH, 2014<br>(関、柿沼他、2014)  | Strategies by Japanese Mothers of Children with Hemophilia Regarding Hemophilia Disclosure at School, WFH, 2014.  | 学校関係者や当事者への調査に基づき、血友病の患児を持つ母親が、学校でどのように血友病について開示し、どのようにすればトータルサポート（治療や生活など）を受けられるかについての戦略                |
| WFH, 2014<br>(大金、柿沼他、2014) | Barrier Assessment in Establishing Comprehensive Client-Level Coordination for Treatment and Medical Welfare of People Living with Hemophilia and HIV/AIDS in Japan.WFH,2014. | 薬害HIV被害患者に対し、治療と、医療福祉に関するバリアアセスメントを行い、包括的な生活調整の実現（こついで提言   |

6

## 【結果】

### ・国内発表（2014年度分、健康教育学会他）

|                             | タイトル   | 内容   |
|-----------------------------|--|--|
| 日本保健医療社会学会<br>(徳根、横沼他、2014) | 血友病保因者の遺伝に関する支援課題の検討<br>(第三報)ーテキストマイニングによるインタビュー<br>データ分析の試みー        | インタビューデータをワードマイニング手法にて分析。人間関係<br>を示すキーワードが頻出しており、特に医療者との関係を示す<br>キーワードの出現頻度が高く、次いで家族を表すものが多い。<br>対象者の関心のあり方を可視化した。 |
| 日本健康教育学会<br>(久地井、横沼他、2014)  | 血友病保因者の遺伝に関する予防行動採用に関<br>わる準備性評価の試み～薬害HIV感染被害者・家<br>族を事例としたパイロット調査より | 血友病家系女性(含む保因者)に対する支援実態について多<br>変量解析を行った。準備性に関する潜在的な因子が示唆され<br>た。また情報機会について、電子化された資源にも課題がある。                        |

7

## 共通した背景～遺伝

- ・血友病保因者・血友病家系女  
性の健康問題
- ・薬害HIV被害を契機に顕在化
- ・現在でも支援につがなっていない現状がある。

## 【目的】

血友病保因者・血友病家系女性の健康問題が、薬害HIV被害者の自立支援課題としてこれまで具体的な研究を続けてきたことを契機に顕在化

現在でも支援につながっていない現状をふまえ、支援の具体的なありかたと関連して今後の課題克服への提言を行う。

### 結果1-1: 支援経験 (血友病家系女性へのアンケート調査)

支援経験(range score 8-40, Cronbach's  $\alpha=0.837$ ) N=30

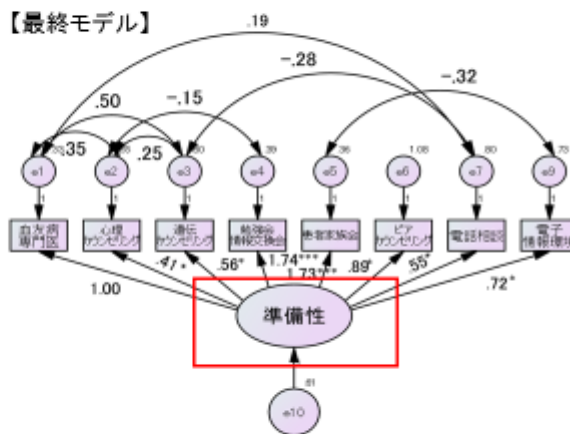
|             | 未経験率<br>(まったく=1/あまり=2) |      | score |        |
|-------------|------------------------|------|-------|--------|
|             | n                      | %    | mean  | (S.D)  |
| 1 血友病専門医    | 14                     | 46.7 | 2.40  | (1.43) |
| 2 心理カウンセリング | 27                     | 90.0 | 1.33  | (0.84) |
| 3 遺伝カウンセリング | 23                     | 76.7 | 1.67  | (0.99) |
| 4 勉強会・情報交換会 | 12                     | 40.0 | 2.77  | (1.52) |
| 5 患者会・家族会   | 7                      | 23.3 | 3.27  | (1.51) |
| 6 ピアカウンセリング | 19                     | 63.3 | 1.97  | (1.27) |
| 7 電話相談      | 26                     | 86.7 | 1.50  | (1.01) |
| 8 電子情報環境    | 24                     | 80.0 | 1.57  | (1.04) |

保因者への支援が行き届いていない現状がある。

## 結果1-2: 潜在的な支援要因の発見

～支援準備性に関する多変量解析

- 適合度の高いモデルが得られた。
  - GFI=0.930
  - CFI=1.000
  - RMSEA <0.001
- 準備性からのパスはすべて有意
- 各支援経験に促進的に作用
- 抑制的に作用する誤差分散間のパスがみられる。  
 (パターンリズムや、対象者の社会的孤立を反映)

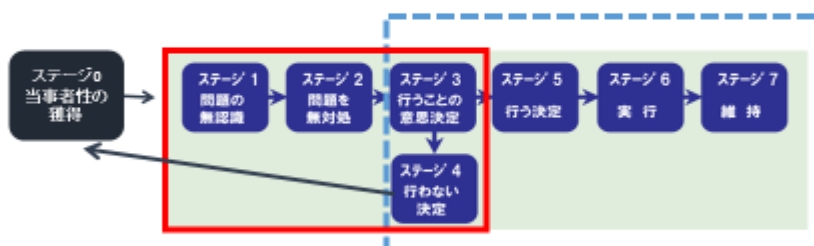


GMIN=8.704 p=.795  
 AGFI=.807 GFI=.930 NFI=.926  
 RMSEA=.000 AIC=54.704

(考え方: 準備性に対し、事後的な支援経験の程度からベイズ推定を行っている。)

## 支援ターゲットは？～支援理論の視点より

- 予防行動採用理論に基づく準備性評価の位置づけ



- 予防行動採用モデル(Precaution Adoption Process Model: PAPM)(Glanz, et al., 2008)
- ステージ0は本研究班にてあらたに定義



## 結果2：血友病家系女性の 遺伝をめぐる状況と問題

### ー血友病児母親インタビューよりー

#### 研究②血友病児を持つ母親の遺伝に 関する語りの質的分析

- 背景と目的

平成21年に実施された血友病児をもつ母親のインタビューデータを用い、とくに遺伝に関する語りを分析・類型化することにより、遺伝に関する問題の所在を明らかにし支援策を検討することを目的とする

- 方法

得られたインタビューデータ合計34件を対象に、特に遺伝に関する語りを中心に、質的研究の手法を用いて内容を分析する。

- 期待される効果

血友病児を持つ母親のインタビューという大変貴重なデータから、これまで明らかにされなかったニーズを検討することができ、当事者の準備性に即した支援を行うための新たな知見を得られることが期待できる。

## 研究方法

### ・データ収集

#### ー調査 I (平成21年5月～11月)

全国の血友病児の母親29名に半構造化インタビュー  
質問内容：病気告知時期、母親自身に起こった出来事、子どもとの関係、きょうだいや父親との関係、学校医療との関係

#### ー調査 II (平成24年9月～25年6月)

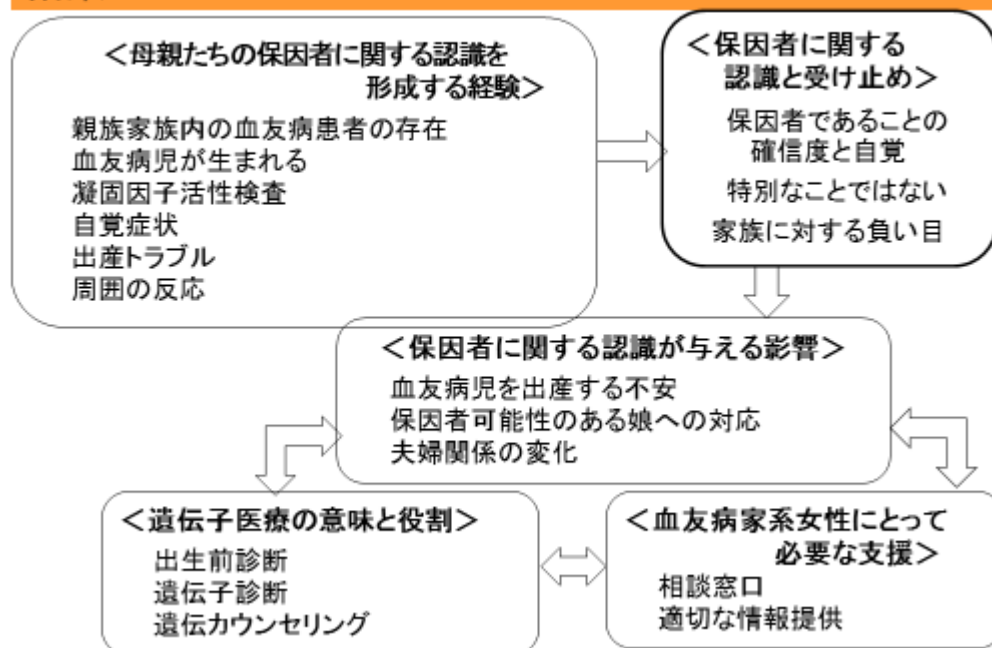
全国の血友病児の母親8名に半構造化インタビュー  
質問内容：家族歴、保因者検査や保因者としての症状、保因者や遺伝に関わる経験、遺伝子医療について

⇒調査 I、IIともに録音し、逐語トランスクリプトを作成

### ・分析方法

逐語トランスクリプトをコーディング⇒カテゴリーを作成  
妥当性を高めるために、共同研究者間で検討

## 結果1



## 結果(2)

### ＜保因者に関する認識と受け止め＞

#### 「保因者であることの確信度と自覚」

- ・家族歴の有無と確信度
- ・確信度と自覚の強さは必ずしも一致しない

#### 「特別なことではない」

- ・父や兄弟の病気の様子を見慣れており、病気や遺伝を体質、当たり前なことと思う
- ・特別支援が必要なこととは思わない

#### 「家族に対する負い目」

- ・語りの様々な文脈の中に表出する
- ・『申し訳ない』という思い

## 結果(3-1)

### ＜母親たちの保因者に関する 認識を形成する経験＞

#### 「親族家族内の血友病患者の存在」

- ・家族歴有無の割合
- ・存在を知っていたことによる影響
- ・存在を知らなかった事情

#### 「血友病児が生まれる」

- ・子どもの血友病判明時の驚きとショック
- ・子どもの病気と遺伝・保因者という二重のショック
- ・遺伝に関する説明不足による戸惑い

#### 「凝固因子活性検査」

- ・あいまいな結果の様々な受け止め方

## 結果(3-2)

### ＜母親たちの保因者に関する 認識を形成する経験＞

#### 「自覚症状」

- 具体的な自覚症状、
- 性質上自覚困難、問題として表出しにくい

#### 「出産トラブル」

- 母体大量出血と新生児内出血
- 保因者であることを病院に通知していたにもかかわらず、病院側の不十分・不適切な対応により事態悪化
- 保因者出産リスクについて本人及び医療者に周知する必要性

#### 「周囲の反応」

- 『責められなかった』『責められた』

## 結果(4)

### ＜保因者に関する認識が与える影響＞

#### 「血友病児を出産する不安」

- 妊娠前の躊躇、
- 胎児が血友病であることからの不安から起こした妊娠中の行動
- 生まれた子が血友病であった場合の備え

#### 「保因者可能性のある娘への対応」

- 娘の保因者可能性を意識する
- 娘に伝えることの難しさ
- 伝えられないケース

#### 「夫婦関係の変化」

- 深まるケースと夫が疎外されるケース

## 結果(5)

### < 遺伝子医療の 意味と役割 >

#### 「出生前診断」

- 有効性、必要性、倫理的観点からの賛否両論

#### 「遺伝子診断」

- これから妊娠出産を迎える女性には有効
- デリケートな問題

#### 「遺伝カウンセリング」

- 遺伝カウンセリングの役割
- 馴染みのなさ、アクセスしづらさ



### < 血友病家系女性に とって必要な支援 >

#### 「相談窓口」

- 娘に相談の場必要
- 病院以外の相談窓口
- 気楽にアクセスできることを希望

#### 「適切な情報提供」

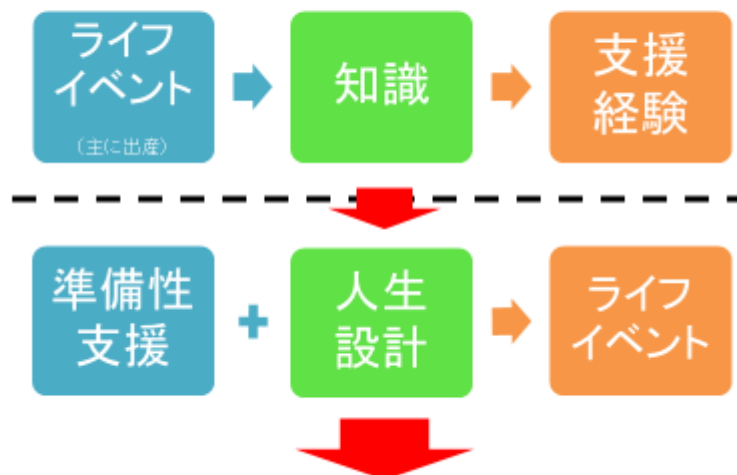
- 特にこれから妊娠出産を迎える若い世代の男女に必要
- 常に新しい情報が必要
- 具体的な手段

## 支援の具体的取組み

- 「血友病家系女性・保因者のための情報サイト」開設  
URL: <http://hemophilia-line.info/>



# 支援提言



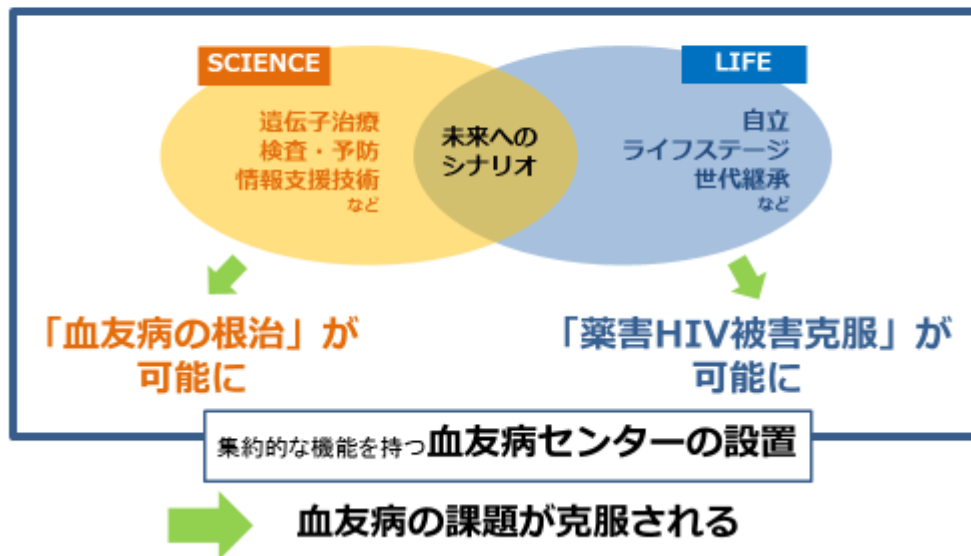
次世代への継承(娘、孫)

集約された支援（薬害HIV被害者・家族への血友病克服に向けて／LIFEの視点）



## 支援提言：新たな支援の考え方

### 患者・家族支援のパラダイムシフト



血友病児の母親にとっての遺伝をめぐる経験類型と克服すべき課題  
—血友病家系女性への支援に向けて—

望月 美栄子 （株式会社アクセライト）

## 1. 研究の目的

これまでのはばたき福祉事業団による研究により、血友病児の母親は子どものそれぞれの成長段階で、様々な困難と向き合いながら育児をしている様子が明らかになった。そのうちの一つに血友病の遺伝・保因者の問題があることが浮かび上がってきた。しかし、血友病児の母親については、これまで患者の母親としての経験に焦点を当てられており、保因者としての経験や遺伝に関わって起こる様々な問題は見過ごされてきた。そのため、彼女らが具体的にどのような問題を抱えているのかは明らかになっておらず、それに応じた支援もほとんど行われていないのが現状である。そこで、血友病児の母親への聞き取りから、遺伝や保因者に関わる経験を把握することで彼女らが置かれている状況や抱えている課題を明らかにし、血友病児の母親を含む血友病家系女性に対する支援を検討する。

## 2. 研究方法

### 1) 調査方法

調査は二段階にわたって行われた（調査Ⅰ、調査Ⅱ）。

（調査Ⅰ）薬害 HIV 感染被害者とその母親の経験を明らかにするために、平成 21 年 5 月～11 月に、全国の薬害 HIV 感染被害者の母親及び対象群として非感染血友病患者の母親を対象に、半構造化インタビュー調査を行った。（社福）はばたき福祉事業団が連絡先を把握している東京訴訟、大阪訴訟の薬害 HIV 感染被害者の母親および非感染血友病患者の母親に向けて協力依頼の手紙を出し、了解が得られた 29 名に対し、インタビューを行った。

インタビューは、協力者の自宅や患者会事務所、会議室などのプライバシーが保持できる環境で実施した。インタビュー時間は一人当たり約 1～2 時間であった。インタビュー前に、調査の目的、調査方法、プライバシー保護などについて説明をし、文書で同意を得た。インタビューでは最初に、母子の年齢、家族構成、住所や血友病型や重症度、病気告知時期などについて尋ね、その後、子育てを振り返ってもらいながら、母親自身に起こった出来事、子どもとの関係、学校や医療との関係等について、成長段階別に尋ねた。

（調査Ⅱ）調査Ⅰの結果から、血友病患者の母親にとって、遺伝や保因者に関することが非常に大きな問題となっていることが示唆されたため、さらに遺伝・保因者の問題について焦点を絞った調査を行うこととした。今回は質問内容が遺伝という非常にデリケートかつ個人情報に関わる点であることを考慮し、機縁法にて調査協力者を募集した。依頼方法は調査Ⅰと同様である。協力への同意が得られた 8 名に対し、インタビューを行った。インタビュー時期は平成 24 年 9 月～25 年 6 月であった。



インタビュー場所や事前の説明についても調査 I と同様である。インタビューでは、家族歴、子どもの血友病が判明した経緯、保因者症状の有無や検査などの保因者や遺伝に関わる経験について尋ねた。

調査 I、調査 II とともに協力者の許可を得てインタビューを録音し、逐語訳を作成した。分析対象としたのは、調査 I の 29 件のインタビューのうち、その後調査への協力を撤回した 1 名と血友病児の実の母親ではない 1 名を除いた 27 件と調査 II の 8 件のインタビューで、調査 I と調査 II では 2 名の協力者が重複していたため、全 35 件 33 名のインタビューデータである。

## 2) 分析方法

全てのインタビューの逐語訳を繰り返し読み、全体を理解した後に、初めに調査 II の逐語訳について、母親たちの経験や気持ちに注目し、意味のまとまりごとにラベルをつけた。そして、類似したラベルを集めてカテゴリーを作成した。調査 I はインタビュー内容が広範にわたるため、調査 II で作成したラベルとカテゴリーを参考に、特に遺伝や保因者に関わる発言をピックアップした。その後、ピックアップした発言に対しラベルをつけ、調査 II と同様にカテゴリーを作成した。さらに、調査 I と調査 II のデータから作成されたカテゴリーを合わせて、一人一人の協力者のおかれた状況に注意して、それぞれの経験を比較しつつカテゴリー間関係を検討した。それによりそれぞれのカテゴリーの位置づけを明確にし、その位置づけをさらに上位のカテゴリーとした。分析の妥当性を高めるために、共同研究者間のミーティングをもち、分析内容について話し合った。

## 3. 結果及び考察

### 1) 協力者の特徴

協力者の特徴は表 1 にまとめた。年代は、60 代が 12 名と最も多く、ついで 50 代 10 名、40 代 7 名 70 代 2 名と続き、80 代と 30 代が 1 名ずつであった。出産した血友病児の数は、1 人が 25 名、2 人が 7 名、一番多い人で 4 人が 1 名あった。また、血友病児の年齢については、52 才が最も高齢で、最も若いのは 5 才 3 才の兄弟であった。家族歴については、協力者本人の発言に基づいており、息子以外に親族家族に血友病患者がいる、あるいは血友病だった可能性があるという人は 15 名であった。

表 1. 協力者の特徴

| ID <sup>1)</sup> | 年代  | 地域     | 子(年齢) <sup>2)</sup>                       | 家族歴 <sup>3)</sup>             |
|------------------|-----|--------|---|-------------------------------|
| 1                | 50代 | 関東・甲信越 | 男(不明)・男(30代)                              | なし                            |
| 3                | 60代 | 関東・甲信越 | 男(37)・女(35)                               | なし                            |
| 4                | 50代 | 九州・沖縄  | 男(30)・女(29)・男(14)                         | 姉の子                           |
| 5                | 60代 | 関東・甲信越 | 男(37)・男(36)                               | 祖父・兄                          |
| 8                | 60代 | 近畿     | 男(40代)・女(2才差)                             | なし                            |
| 9                | 50代 | 東海     | 男(26)・女(25)・男(24)                         | なし                            |
| 11               | 70代 | 関東・甲信越 | 男(52)・女(50)・男(49)                         | なし                            |
| 12               | 50代 | 関東・甲信越 | 男(28)・女(25)                               | なし                            |
| 13               | 80代 | 関東・甲信越 | 男(47)・男(43)                               | 父親・姉の子                        |
| 14               | 60代 | 東海     | 男(35)・男(33)・男(31)                         | 弟・姉の子                         |
| 15               | 50代 | 九州・沖縄  | 男(24)・男(21)・男(18)                         | なし                            |
| 16               | 50代 | 九州・沖縄  | 男(37)・女(35)・男(34)・男(28)・女(27)・男(26)・男(20) | 母の兄弟が出血を伴って死亡・孫               |
| 17               | 50代 | 九州・沖縄  | 女(33)・男(30)                               | 姉妹の子                          |
| 18               | 50代 | 九州・沖縄  | 男(25)・女(21)                               | 弟・いとこ                         |
| 19               | 40代 | 東海     | 男(27)                                     | なし                            |
| 20               | 60代 | 東北     | 男(42)・男(28)                               | 姉の子                           |
| 21               | 40代 | 九州・沖縄  | 男(24)*・女(14)                              | なし                            |
| 22               | 40代 | 九州・沖縄  | 女(28)・男(24)・男(22)                         | なし                            |
| 23               | 50代 | 東北     | 男(32)・女(22)                               | 兄・弟(二人とも診断を受けたのは最近)           |
| 24               | 40代 | 近畿     | 男(18)                                     | 母の弟が血友病だった可能性(出血多量で死亡)        |
| 25               | 40代 | 近畿     | 男(17)・男(4)                                | なし                            |
| 27               | 60代 | 関東・甲信越 | 女(37)・男(33)                               | 孫                             |
| 28               | 60代 | 関東・甲信越 | 女(45)・男(43)                               | なし                            |
| 29               | 60代 | 関東・甲信越 | 女(34)・男(31)                               | なし                            |
| 30               | 70代 | 関東・甲信越 | 男(39)・男(37)                               | 弟                             |
| 31               | 50代 | 近畿     | 女・女・男・男(29)・男(19)                         | なし                            |
| 32               | 60代 | 東海     | 男(39)・女(37)                               | なし                            |
| 33               | 60代 | 東海     | 男(死亡)・男(35)・女(29)                         | 母のいとこ・弟が血友病だった可能性(幼少時に紫斑病で死亡) |
| 34               | 40代 | 近畿     | 男(18)・男(11)・女(8)                          | なし                            |
| 35               | 40代 | 近畿     | 男(14)・女(8)                                | 父親・妹の子                        |
| 36               | 60代 | 関東・甲信越 | 男(41)・女(40)                               | 不明                            |
| 38               | 60代 | 関東・甲信越 | 女(40)・男(39)                               | 叔父と弟が血友病だった可能性                |
| 39               | 30代 | 関東・甲信越 | 男(5)・男(3)                                 | なし                            |

\*1 分析除外や重複は欠番になっている

\*2 太字は血友病児

\*3 斜線は血友病児出産前から分っていたもの

## 2) 血友病児の母親の経験

協力者たちの語りから、血友病児の母親の遺伝や保因者に関連する経験は 12 個抽出され、それぞれの経験は、〈保因者に関する認識と受け止め〉、〈保因者に関する認識を形成する経験〉、〈保因者に関する認識によって引き起こされる経験〉の 3 つのカテゴリーに分類された（図 1）。

自分に保因者の可能性があることについて、どのように認識し受け止めているのかという点について、「保因者であることの確信と自覚」「特別なことではない」「家族に対する負い目」という 3 つの内容が抽出された。そして、これらの現在の認識や受け止めは、協力者一人一人のこれまでの様々な経験によって形作られてきたものであることがわかった。今回のインタビューでは、その経験として「親族家族内の血友病患者の存在」「血友病児を生む」「凝固因子活性検査」「保因者症状の自覚」「出産トラブル」「周囲の反応」の 6 つがあった。協力者ごとにこれらの経験の有無や経験の仕方に差があり、その差が〈保因者に関する認識と受け止め〉の違いにつながっていた。

さらに、こうした〈保因者に関する認識と受け止め〉があることによって、引き起こされた経験があった。それが、「血友病児を出産する不安」「保因者可能性のある娘への対応」「夫婦関係の変化」の 3 つで、いずれも家族内の問題となっていた。これらは協力者たちが実際に保因者であることによって起きているのではなく、保因者であるかどうかに関わらず、こうした認識や受け止めの仕方が影響して、生じている経験であるといえた。

## 3) それぞれの経験について

次に、協力者たちが語ったそれぞれの経験について、カテゴリーごとに考察を交えて説明していく。なお、『』と斜線は実際に協力者たちが語った言葉で、語りの中の()は筆者による補足である。また、協力者 ID は#で示した。

### (1) 〈保因者に関する認識と受け止め〉

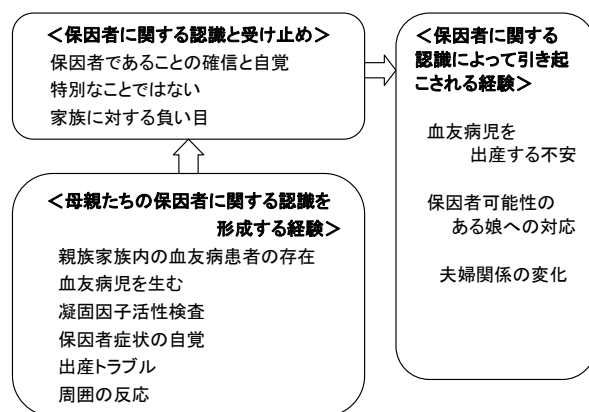


図1 血友病児の母親たちの経験

協力者たちは自分自身に保因者の可能性があることについてどのように認識し、あるいは保因者であることをどう受け止めているのか、以下の3点が語られた。

#### 「保因者であることの確信と自覚」

それでも親族に血友病患者がいることが判明している場合は、ほとんどは自分が保因者であることを確信している様子であった。しかし、親族に血友病患者がいない場合は、その判断については複雑であった。たとえ血友病児を 2 人出産していても、本人にとっては子どもが血友病であること以外には保因者について心当たりが何もなく、自分自身が保因者

であることに納得できないという協力者について心当たりが何もなく、自分自身が保因者であることに納得できないという協力者もいれば、出産しているのが 1 人でも自分は保因者であろうと考えている協力者もいた。

突然に産まれる子もあるって聞いたけど、2人とも（血友病に）なっているし。それで私保因者かな。（途中省略）・・・突然変異で血友病患者ができる場合もあると言う先生があったので、私は一体どっちなんだろうとか、周りに何も無いし。それが皆（3人の他の子どもたちと孫）、どうもないんで（血友病ではなかった）。私に何がいるんだろう。・・・遺伝については本当に不思議。見えないので。はっきりと自分のきょうだいもそうやったとか、親がそうやったという人はおのずとそうなんですけど。うちの場合、何もない状態の中でできているから、「何かな」っていう不審があるんですが（#31）

そう（自分が保因者）じゃないかなと思うんですけど。・・・まあ、私のほうだと思いますけど（#32）

これらは自分が保因者であるかどうかについての「確信」の強さについての認識である。今回の分析からは、保因者の認識にはこの「確信」とは異なるもう一つの要素が浮かび上がった。それは「自覚」である。「自覚」の強さは自分が保因者であること、あるいは保因者の可能性があることを生活の中でどれほど意識しているかというもので、この「自覚」の強さは「確信」の強さと関係はあるものの、必ずしも一致してはいなかった。例えば、自分の保因者状況が曖昧で保因者であることを確信できずにも、強くそのことを意識しているケースもあれば、逆に親族に血友病がいても『（父親が血友病だった。そう考えればやっぱり）遺伝なのですよねー（#13）』という発言が示唆するように、それまでは保因者であることの自覚がなく、今回のインタビューで改めて気づいた様子の協力者もあった。

今回の協力者たち、特に遺伝や保因者について尋ねた調査Ⅱの協力者たちは、リクルートの都合上遺伝や保因者の問題への関心が比較的強く、保因者についての認識も高い傾向が考えられる。しかし、インタビューの中で、患者会で出会う他の母親に関して保因者という認識がない母親もいるという発言があり、実際にはこうした認識の母親も多いことも十分に考えられる。

この間（患者会で）保因者の話を出したんですよ。そうしたらやっぱり、全然関係ないと思っていたというお母さんもいました。自分の息子は血友病で、自分ももしかしてその保因者かもしれないという認識は全くなかったと（#39）

しかし、母親たちの生活に影響を与えるという点で重要なのは、実際に保因者であるかどうかよりも、この認識があるかどうか、そして特に自覚があるかどうかであることが、今回の分析からみえてきた。日頃保因者であることを意識することのない母親は、仮に実際には保因者であったとしても、後述するような保因者特有の経験をするのは少ない。したがって、何も問題が起きない限りは保因者の自覚はなくても問題はなく、むしろない方が苦悩も少ないともいえるかもしれない。しかし、自覚がないということは、自分が保因者であることに対して具体的な行動に出ることがないということである。そのため、例えば子どもが血友病と診断されるなど、いざ何かが起こったときには事前の準備や覚悟ができておらず、対

応困難に陥る可能性は高い。したがって、過剰な自覚は必要がないが、保因者についての知識と同時に適切な認識は大切ではないだろうか。

「特別なことではない」

きょうだいや父親が血友病であり、その家族の様子を幼い時からずっと見ながら育ててきた協力者の中には、血友病という病気を『当たり前(#5)』のもの、『素直に受け入れている(#35)』、単に『体質(#5、#35)』に過ぎないというように捉えていた。そして、自分が保因者であることもそれと同様に『問題とは思わない、特別な支援とか私自身欲しいと思っただけ(#35)』という認識をもっていた。

幼い時より血友病の家族を見ながら育ててきた協力者にとって、それは素直な気持ちであろう。しかし、病気や保因者であることが「特別なことではない」と「問題はない」ということとは別の問題である。あえて「問題はない」「支援は必要と思わない」と考えることで、大切にすべき情報を見逃してしまったり、本来必要になる支援を受けることができなくなり、その結果対応が必要な事態が起きたときに適切に対処できなくなるということも考えられる。

「家族に対する負い目」

何人かの協力者は自分が保因者であることを「家族に対する追い目」として受け止めていることを語った。それは夫に対する場合もあれば血友病の息子に対する場合もあった。

私は悩みましたね、ひどく。やっぱり、保因者だっということに責任をすごく感じちゃって。うちの旦那、この父親が優しいんですよ、すごく。それで申し訳ないなって。彼は男の子が生まれたら空手をやらせたかったんですよ。・・・それで、男の子だっということ喜んでいたので、これはとんでもない、そんなことはとてもさせられないしと思って、これは申し訳ないことになったなっという思いがあっってちょっと悩みましたね (#3)

やっぱりこの子（息子）に負い目みたいなのがあっって、やらしちゃいけないっという部分があっただけ、全部（私が代わりに）やってたから (#9)

息子の意図しない言葉が自分を責めているように聞こえるという語りもあった。

今も（息子は）「こんな病気じゃなかったら…」とっかっていまだに言っています。「今こんな病気じゃなかったら、警察官になりたかった」って。それを言われるとすごく責められているような気持ちになる。本人はこっちを責めているような意味で言っているわけじゃないんだけど、親としたらやっぱり責任が、申し訳ないなっというので結構… (#19)

あるいは保因者の可能性がある娘に対して、責任を感じると同時に、自分と同じ「負い目」を娘にも負わせることの懸念を語った協力者もいる。

いつもわたしには負い目があるから、最終的には、この子（娘）がいろいろな将来を考えるとときには、これがネックになるんだな、というのは嫌でも分かりますので (#38)

このように家族に対する負い目の気持ちは何人もの協力者たちの発言の中に様々な文脈で登場しており、いかに多くの母親がこうした思いに苦しめられているかがうかがわれた。

## (2) <保因者に関する認識を形成する経験>

上述の自分が保因者であることについての認識や受け止め方は人によって異なっていたが、こうした認識は協力者一人一人のそれまでの様々な経験によって影響を受け、形作られてきたものであることが明らかになった。今回その経験として抽出されたものは以下の 6 つであった。

### 「親族家族の血友病患者の存在」

親族家族内の血友病患者の有無について協力者の発言に基づき整理した。親族家族内で息子以外に血友病患者の存在が分かっている人は 13 名、おそらくそうであったという人を入れると 15 名であった。そのうち、息子出生時にすでにその患者が生存もしくは死亡していたのは 11 名、残りの 4 名は甥や孫など後に生まれた親族であった。さらにすでに生存もしくは死亡していた 11 名のうち、息子出生時にそのことを把握していた人はわずか 6 名のみであった。すなわち、33 名の協力者のうち 27 名は自分の家系の遺伝については何も知らず、出産する子が血友病である可能性については全く考えずに出産したことになる。

特に息子出生時にすでに親族家族内に血友病患者がいた場合でも、そのおよそ半分（11 名のうち 5 名）がその患者や病気について把握していなかったことになるが、そのような事態が起こる原因について、次の 3 点に整理された。

- ① 医療が進んでいない昔のことであったり、症状が軽度であったため、血友病という診断がされておらず、患者本人さえも自分の病気について知らなかった（病識の問題）
- ② 親戚付き合いが薄く、患者のことや病気のことを知らなかった（ネットワークの問題）
- ③ 母親に病気や遺伝の認識がない、あるいは薄いため、伝えられていない（病気に対する認識の問題）

インターネット等で情報を得る機会が増え、医学も進歩した現代では①のようなケースは減少していく可能性はあるが、逆に現代の核家族化、都会化により親戚づきあいは希薄化してきており、②のようなケースはむしろ増加していく可能性が考えられる。③のようなケースに対しては、病気に関する情報提供の仕方を改善し、遺伝についての知識と意識を高めることで減らしていくことが可能であろう。

ところで、遺伝について知っていた場合と知らなかった場合ではどのような違いがあるのであろうか。協力者の中では、息子出産時に血友病児が生まれる可能性を知りながら出産に臨んだ人と、その可能性を知らなかった人では、息子の病気が分かった時の反応が異なっていた。知らなかった協力者は一様に子どもの病気判明時の驚きとショックを語ったが、家族の病気を知っていた人はある程度心の準備ができていた様子であった。

その時うちの周りに亡くなった弟はいましたけれども、それ（血友病）を感じるようなものがなかったので。（子どもの病気がわかったときは）やっぱり死のうかと思うぐらいショックでしたね（#38）

（息子が血友病と診断された時）ある程度私、わかってました。弟がそうだったんですよ。それで母が苦労しているのを見てましたのでね（#30）

一方、親族家族内の血友病患者と遺伝の事実を知っていた協力者については、結婚時の相手への説明と理解を得るといふ点での苦労があることが語られた。結婚前に遺伝の話をし、夫の理解を得て結婚に至った#18の協力者は、自分のようなケースが珍しいことを次のようなエピソードとともに語った。

*（患者会で）だんごと一緒にビデオを撮ってもらったときがあるんですよ。結婚前に。（夫の）理解があるということで、皆さんから頼まれて、お母さん方に勇気を与えてほしいと。（質問者「状況はまた躊躇されてる方とかいたんですかね。」）いました、たくさんいました。結婚したいんだけどご主人にばれたらどうするって。（うちは）主人が一番の理解者だったものですから、そういう形ってあまりないですよ。そういうのを言うと結婚破棄とかそういうのを聞いてましたから（#18）*

また、遺伝について夫へ説明をせずに結婚した協力者は、そのことで夫に対して「引け目」を感じているという。

このように血友病家系女性にとって結婚、特に相手の理解を得るといふことは非常に難しい問題である。そのため、血友病家系女性には初めから結婚はしないという選択をする人も少なくないという。今回のインタビューは血友病児の母親を対象としているため、協力者は全員結婚に至っていたが、結婚をしない選択をした人は今回の協力者たちとは異なる問題を抱えている可能性もある。したがって、今後はインタビュー対象を広げ、こうした血友病家系女性の声を集め、支援につなげていく必要があるだろう。

#### 「血友病児を生む」

上述したように、特に親族家族内の血友病について知らなかった協力者たちは、一様に子どもの血友病判明時に大きな驚きとショックを感じていた。子どもが先天的な病気であるといふことは、一般に母親にとって非常にショックな出来事であるが、血友病の場合、母親たちの驚きとショックは子どもの病気だけでは終わらない。子どもの病気が自分の遺伝によるものであるというさらなる衝撃的な事実を、子どもの病気とほぼ同時に知ることとなる。つまり、血友病の母親たちは子どもの病気と自分の遺伝という二重の衝撃を受けるのである。

今回の協力者たちは子どもの病気についての医師から説明の中で、初めて遺伝や保因者について知るケースが多かった。このような場合、医師にとっては子どもの病気を説明することが主な目的であり、遺伝に関する説明はその一要素に過ぎず、特別詳しいものではないことが多いようである。それは子どもの診療場面であれば当然のことかもしれないが、遺伝に関していえば、こうした中途半端な説明は余計に母親たちを戸惑わせていた。

*（遺伝についての詳しい説明は）まったく（なかった）。保因者というね、ちゃんとした説明がなかった。「家族にいてないんだったら、じゃあ、お母さんが原因かもね」って言われただけやったと思うんです。だから、その意味が何にも分からなくて、私の体が何ぞおかしいんや、遺伝子がおかしいんやっていうふうな認識やったと思うんですね（#34）*

しかし、常に病気の子どもの世話を追われ続ける母親には、遺伝に関してそれ以上の情報を求める時間も、自分が保因者であるということについて落ち着いて考える余裕もないだろう

う。誰にも相談もできず、自分が保因者であることを受け止めきれないまま放りだされてしまう母親たちの姿が想像できる。#39 の語りにもあったように、母親たちの中には保因者に関する自覚が薄い人がいるというのは、こういったことにも原因があるのではないだろうか。

こうした問題に対応するためには、母親たちが遺伝や保因者について知る最初の段階で、適切な説明が母親になされることが重要である。子どもの主治医にも遺伝についてある程度詳細な説明をすることが望まれるが、あくまで子どもの治療という役割を果たさなければならない主治医にとっては、遺伝や保因者の問題にまで十分に対応する余裕はないかもしれない。そのため、母親が遺伝や保因者について詳しい説明を受けられ、相談できる場とそうした場をスムーズに母親に紹介するシステムの確立が必要であろう。

#### 「凝固因子活性検査」

今回の協力者のほとんどが凝固因子活性検査を受けていた。凝固因子活性検査は凝固能を測定する検査であり、凝固能が低い場合、血友病の保因が疑われる。しかし、高いからといって保因者の可能性が否定されるわけではない。したがって、確定診断には遺伝子診断が必要であるが、遺伝子診断はハードルが高く、多くの場合自分が保因者であるかどうかは凝固因子活性検査の結果から「推定」するのみである。今回のインタビューでもそのような実態が裏付けられていた。

*（検査結果が）60%切ってたんですね、全部。で、まあ、保因者やろうなー、みたいな感じで（#34）*

*（凝固因子活性検査の結果を）グレーゾーンだって言われたときに、あ、たぶん、もしかしたらやっぱり次の子もそうかもしれないと思って。推定保因ではあるけれども、まあ、次の子もそうかもしれないという形で思っていました（#39）*

しかし、このように「推定」の範囲でしか結果はでないものであっても、それまでほとんど保因者としての情報や認識がなかった協力者たちにとっては、この検査結果は自分が保因者である可能性を自覚するきっかけとなるものとして重要な意味をもっていた。

だからこそ、凝固因子活性検査の結果については過信することがないように注意しなければならないだろう。今回のインタビューでは、検査結果について医師から『大丈夫だろう（#36）』と言われた、あるいは娘の検査結果について医師が『大丈夫、正常だよっていう手紙をくれました（#28）』というケースがあった。しかし、結果の数値が正常範囲だったとしても、それが「保因者ではない」ということではないことはきちんと理解しなければならないし、医師もその点については十分な説明をするよう注意が必要である。

*（医師は、）それ（凝固因子検査結果の結果）で「そう（保因者である、又は保因者でない）ですよ」とは絶対言っはいけないとは思いますがね。・・・（母親は）白黒つけたいんですね。でも、そこで医療者は決して、「いや、大丈夫です、白でした」とか、「黒でした」なんて言っはいけない（#39）*

### 「保因者症状の自覚」

調査Ⅱのインタビューでは保因者の症状の有無について尋ねた。回答した 8 名の協力者のうち「生理時の出血量が多い」が 3 名、「あざができやすい」が 3 名であった。他に抜歯後や手術後の「出血がなかなか止まらなかった」、「鼻血が止まりにくい」、「産後の悪露が長引いた」などの症状があり、合計 4 名の協力者が何らかの症状を自覚していた。しかし、出血量の多少などについては判断が難しいことを何人かが指摘した。

*他の人と比べようがまずないです。その凝固時間が短いのか長いのかって言われると分からない (#34)*

確かに生理の出血量などは特に他人と話題にすることなどほとんどなく、自分の出血量の多少については判断しづらいだろう。こうしたことから、出血量を普通だと回答した協力者の中にも、実際には通常より多かったとしても本人が気がついていない可能性も考えられる。

また、症状があると回答した 4 名に関しても、そのことにより多少の不便や不快感があってもそれが大事に至ることはなく、治療が必要だったり生活に支障が出たりなどの決定的な問題になっている様子はなかった。

*輸血とかの心配、今までなかったですね。そういう意味では無事にきていたんですかね。保因者として (#38)*

そのため、保因者の症状についてどこかで訴えたり相談したりなどというように、表に出す機会はほとんどなかった様子であった。そのためか、保因者の症状というものはこれまであまり知られていない。

しかし、ある協力者は保因者の症状について次のように述べた。

*私は保因者です。なぜかっていうとね、私、若い頃ね、鼻血が止まらなかった。女の子には(症状は) 出ないっていうけれども。ちょっと異常なぐらい、何の病気もないのに鼻血がいつまでも止まらなかったりとか。あと打つと、すごい青タンができるんですよ (#22)*

この協力者はこれらの症状と自分が保因者であることを関連付けて考えていた。つまり、自分に保因者の症状があることを自覚し、それにより自分が保因者であることを確信、自覚していたのである。こうした点においても保因者の症状には重要な意味があるといえるだろう。

しかし、保因者症状は上述のとおり判断が難しく、そのことを知らなければ気づかないケースも考えられる。そのため、保因者に起こりうる症状について医療者はきちんと説明する必要がある。それによって自身の症状が自覚されれば、自分が保因者であるかどうかの判断の助けとなるだろう。

### 「出産トラブル」

出産時に何らかのトラブルを経験していることを語った協力者がいた。トラブルの内容は母体側のトラブルとしては大量出血 (2 名)、新生児側のトラブルとしては頭蓋内出血 (1



名) やその他内出血 (1名)、頭血腫が引かず入院したというケース (1名) であった。

この中で保因者であることを事前に病院側に通知しておいたにも関わらず、病院の不十分な対応により事態が悪化したと考えられているケースが3件あった。母体の大量出血が起きたという#39は、あらかじめ病院側は自分が保因者であることを知っていたにも関わらず、医師がその時に持ち場を離れていたために、母体大量出血が起こったと語った。また、#27の協力者は助産師の認識不足から行った対応により、新生児に内出血を起こしたと考えており、その上、すぐに輸血が必要な状況であったにも関わらず、検査や手続きに時間を費やし、必要な処置を行うまでに時間がかかってしまったという。娘が保因者の可能性があることを病院に告げてあることで安心し、病院任せにしてしまったことを非常に後悔し自分を責めると同時に、適切な対応をしなかった病院に対する怒りを語った。#34は同じく新生児側のトラブルで、頭蓋内出血に気づいた自分がすぐに主治医へ連絡するよう主張しているにも関わらず、結局病院側が翌朝主治医が来るまで対応をしなかったことに対し、非常な憤りを表明した。

いずれのケースも保因者であることを病院側に告げてあり、特に#34は事前に産科と小児科の連携を依頼していた。それにも関わらずこうした事態が起こったことについて、3名とも産科医や助産師の勉強不足、認識不足、また産科と小児科の連携不足を指摘した。さらに、保因者の出産時のリスクがあまり知られていないことを指摘し、今後出産する保因者のために自分の経験から出産時のリスクについて機会があれば訴えていると語った。

*実際産んだ感覚として納得がいかないことがあって、それは私も無知やったからその結果やったかもしれへんけども、やっぱり、これから先、産む人のために、私いつも言うんですけど。。。で、またその患者さんが少ないっていうところで、やっぱり重要に思ってる方がなかなかいらっしやらない。一応、外国ではガイドラインに載ってるんですけどね、産科のね。血友病のとかね。やっぱり日本もなかなか、そこまで (#34)*

こうした保因者の出産トラブルを回避するためにも、保因者の出産時に起こり得るトラブルについては、保因者本人に対しても医療者に対しても注意を促すよう何らかの方策を講じる必要があるだろう。

#### 「周囲の反応」

今回のインタビューでは子どもの病気が母親側の遺伝によるものであることで、母親が夫や夫の親戚から責められる例があるということが何度か語られた。しかし、今回の協力者たちの中には自分が実際に夫や夫の親戚から責められたという人はなく、逆に夫がいかに自分を責めなかったかを語った協力者が何人かいた。

*遺伝の病気なので、私が持っているものが子どもにっていう形だったんだけど、そのことについて責めるわけでもなく。(患者)会の中では、そのことで家族間が壊れてしまったっていうような方の例も聞いたので。結局、血友病の子を生んでみたい。うちは2人も生んで(いるのに責めなかった) (#9)*

このような夫が自分を責めなかったという発言を、質問者の問いかけに答えた形ではなく、自発的に語った協力者が多かったことが印象的である。これは子どもの病気が自分の遺伝によるものであることが責められて然るべきことであるという認識を、母親たち自身ももっていることと表れであると考えられないであろうか。やはりここにも遺伝についての自責の念や負い目の気持ちが表れており、母親たちの苦悩を推し量ることができる。

親戚についても責められたという人は今回の協力者の中にはいなかった。ただし、それに関しては夫がそのことを妻に知らせないようにしているケースもあるという。したがって、実際の親戚の反応は異なる可能性は考えられる。それと同様に、夫に関しても妻が受け取る夫の反応と実際の夫の気持ちが異なることはあるだろう。インタビューに同席した#13の夫は、過去の気持ちを次のように語っている。

「なんで、事前に俺に話さなかった」というような、自分もその時はあんまりショックでそういう、そういういらぬことまで考えたことがありますよね。・・・(口に出して) 責めるということとはしなかったですよ。・・・「こっち(妻)の遺伝だ」ということで。恨んどった。わしは正直言うよ (#13夫)

このように、妻を責める気持ちをもちつつもその気持ちを隠してきた夫も存在する。自分も妻を責める気持ちを抑えつつ、一方では親戚からの非難が直接妻に向かうことがないよう心を砕く夫もまた、多くの葛藤と苦悩を抱えていることが予想される。こうした夫たちにも何らかの支援が必要とされていることも考えなければならないだろう。

### (3) <保因者に関する認識によって引き起こされる経験>

協力者たちは家族内において様々な悩みや葛藤を経験していたが、これらは前述のような保因者に関する認識をもっているからこそ生じているといえるものであった。

#### 「血友病児を出産する不安」

親族家族内に血友病患者がいたり、血友病の子をすでに出産し、自分が保因者である可能性を知っている場合、生まれてくる子が血友病であることに不安を感じ、家族の中で妊娠出産への躊躇があったことを何人もの協力者が語った。

うちは弟がそう(血友病)でして。弟と姉の子どもが2人。だから、子どもを生むつもりはなかったんですけどね、結婚するときに。わたしはとでもそんな…、育てられないと思ってたんですが (#14)

(長男は) インヒビターがあつて結構大変な思いをしたので、もう第二子でそういう思いもしたくないなと思って、(第二子を生むのを) もうちょっと間を置くことか、ちょっとよくよく考えたかったんですけど (#39)

旦那がちょっと反対で消極的だったんですよ。また今度も血友病、男の子だったらどうするんやということちょっと反対してたもんで (#33)

こうした躊躇の末、子を産むか産まないかを決断させたものは、夫や子どもたちといった家族の反応や意見、どうしても子どもが欲しいという自分自身の強い希望などであった。

しかし、躊躇の末に最終的に妊娠出産を決断した協力者でも、必ずしも胎児の血友病の可能性についての不安を克服したというわけではなく、その不安に対処するために妊娠中に様々な行動をとっていた。それは事前の躊躇を経験せずに妊娠した協力者についても同様であった。前述の#39 は夫の前向きな態度に妊娠出産を決意したが、妊娠中に自分で遺伝外来を調べ、大学病院の遺伝カウンセリングを受診し、その結果については次のように語っている。

*何か気持ちが楽になって、ああ、たぶん、どんなインヒビターができて今だったら対応できるんだろうと思って*

父親が血友病であった#35 は、『ちょっと覚悟しといたほうがいいなっていうつもりで、男の子っていうことで』と羊水検査を受けていた。また、育児に夫の協力を得ることが期待できなかつたため、墮胎を決意し病院に行ったことを明らかにした協力者もいた。

*本当に墮ろしに行ったんですけど、墮ろせなかつたです。やっぱりほかの人がね、生まれたばかりの子を抱いてるのに、できなかつたです。どんな子でもやっぱりもう、お父さんじゃなくて自分、自分が育てればいいっていう感じで産みましたが、女の子でしたからもうほっとしました (#32)*

このように、自分なりの方法で不安を乗り越え覚悟を決め、出産に臨んでいた様子が語られた。同時に出産する病院に対しては、生まれた子が血友病であった場合に備え、長男の主治医がいる病院での出産を決め、産科と婦人科との連携を依頼したり(#34)、出産後の新生児の血友病検査を依頼した(#31)ことなども語られた。

#### 「保因者可能性のある娘への対応」

血友病の息子の他に娘がいる協力者にとって、娘の保因者の可能性は非常に気がかりな問題であった。ほとんどの協力者は娘に凝固因子活性検査を受けさせていたが、その結果保因者の可能性があると言われた場合はもちろんであるが、検査結果に関わらず、『娘が保因者かもしれないことを前提に、私は今、あの子を育ててるんだけども』(#34)というように、娘が保因者である可能性を充分考え、娘に対してもそれに応じた対応の必要性を感じていた。そのような母親たちの娘に対する思いについて#34 は、

*保因者かどうかということを、いずれやっぱり、その年ごろになる前に調べやなあかんよなって、保因者を育ててるお母さん、保因者かもしれない娘を育ててるお母さんっていうのは思ってた。*

と語り、同時に娘に遺伝や保因者のことを伝えなければならないが、その伝え方には苦労している様子を語った。

*やっぱり、その年ごろの娘を（検査に）連れていくまでの間ね、それ（遺伝のこと）を聞かせてなくて、幼少期からそういうことを入れてなくて、お父さんであったり、きょうだいであったりが患者やった女の子っていうのは、ぼんやりとは分かっているけれども、あえてそれを親と対峙しないといけない時期っていうのが来ることに、みんな悩んでおられて。*

娘に遺伝や保因者のことを伝えることについては、将来血友病の子を生む可能性に対して準備と覚悟をさせるために必要であると多くの母親が考えていた。しかし、この語りからもわかるように娘に伝えるタイミングが特に母親たちにとって難しい問題であった。娘が妊娠結婚前に伝えておかなければならないことではあるが、早く伝えすぎても幼い娘には理解できない、とはいえタイミングを逃してしまうと言いづらくなってしまいうことを何人かの協力者が語った。実際、娘が小学生の頃に伝えたきりになっている協力者は、すでに結婚している娘についてこう語った。

一応言ってるんですけど、どのくらい理解してるかまではわかりません。まあでも、自分は別だと思ってるのかなあという気はするんですけど。去年の秋結婚したのでどの程度わかってるのか私も確認したことはないんですけど。今はね、もうアレですけど、もう 1 回こうでこうでって（遺伝の話を）言ったら、逆にビックリしちゃうかなって思うんですね。だからそういうのもあって、私からなかなか言えないまま結婚しちゃったんで、どうなんだろうなあと思うんですけど (#12)

では、娘に遺伝や保因者のことを伝えるタイミングとしてはいつが良いのか、何人かの協力者が 20 歳を過ぎた頃がよいと考えており、すでに娘に話をしたという協力者は次のように語った。

娘が二十歳になったときに、もうそのことをずいぶん言って、結婚したらこういうふうになりますよと。だからそれを覚悟で、赤ちゃんを産みなさいよということ、もう二十歳の誕生日のときに、ちょっと呼んで。・・・その前は学校で（血友病や遺伝について）いろいろ習ってきたも、それまではもう黙ってたんです。絶対それまではまだ子どもだっていう、私は考えであつたもんですから、だから二十歳になったらこれは言おうと思って (#32)

すでに結婚した娘に対して遺伝や保因者の事実を伝えていないケースもあった。今回の協力者である母親たちの中にも、親族家族に血友病患者がいても、病気や遺伝について知らされていなかった協力者がいた。そのケースと合わせて、遺伝や保因者について伝えられないケースについてその原因を整理すると、

- ① 娘に伝える必要は感じているものの、タイミングを逃し言えないままになっている
- ② 一度は伝えてはあるものの、十分ではなくその後その話題にふれるきっかけを得られない。母子互いに気遣ってしまい、それ以上深く話ができない
- ③ 凝固因子活性検査の結果「大丈夫」と言われ、保因者の可能性について母親が考えていない
- ④ 母親自身にも「遺伝」という認識が薄く、娘の保因者の可能性をあまり意識していないの 4 点があった。

①のケースとして現在妊娠中の娘について凝固因子活性検査もしておらず、娘にも全く遺伝の可能性を話していない協力者は、娘の出産についての心配を次のように語った。

私としたら、（長女の）産まれてくる子が血友病で産まれてきたらどうしようと。この子（長女）が保因者かどうか分からないし。・・・何回も不妊治療に行って、やっと妊娠したみたいだから、あんまり余計なことを言えないんですよ。本当は調べてほしいとは思うんですけども、まさか調べても、もう仕方ないし。だから、どうも言わないんです。いま一番気になっているのは、この長女が産む子どもが何もなくて産まれてきてくれたら、何も言うことはありません (#31)

②については前述の#12 のケースがあてはまる。③に関しては凝固因子活性検査の結果は絶対ではないため、たとえ医師から「大丈夫」と言われても血友病の子を生む可能性はある。そのために凝固因子活性検査の結果については、きちんとした説明と相談の機会が必要なことはすでに述べた。④については「母親の保因者としての認識が弱い→娘に伝える必要を感じなかったり、伝え方がわからず伝えられない→娘も保因者としての認識が弱い→その娘にも伝えられない」という悪循環に陥る恐れがある。

いずれの理由にせよ、娘に遺伝や保因者のことを伝えていないことは、娘の結婚妊娠出産のいずれかの段階で何らかの困難や問題が生じた際に対処しきれないという事態が起こりうる。そのため、母親たちが娘にスムーズに遺伝や保因者の話ができるよう何らかのサポートが必要であろう。また、こうした問題は伝えなければならない相手が娘ではなく、姪などの親戚である場合もある。そうした場合、伝えることはより一層難しくなるため、娘だけではなく保因者の可能性のある全ての女性にスムーズに伝わるようなサポートが必要である。

#### 「夫婦関係の変化」

血友病に限らず、子どもが病気になることで夫婦関係に何らかの影響が起こることは十分考えられることである。血友病でもそれは当てはまり、子どもの病気によって夫婦の関係が変化したことに触れる協力者は何人もいた。しかし、その中で2名と数は少ないものの、特に血友病が母親の遺伝によるものであることから、夫婦関係に変化が生じている様子を語った協力者がいた。

*（育児についての）話し合いはしてますね。だって、二人で話すしかないから。他人さまには言えないことだし。だから、ある意味で言えば、この病気のおかげで夫婦のあれが濃くなったっていうか（#3）*

逆に息子と母親が通常以上に密着した関係となり、夫婦関係が希薄化していくというケースがあるという。特に血友病の場合、治療のために子どもの主治医との関係が強くなる傾向があり、余計に父親が阻害されてしまうということが起こっていた。

*（主治医は）ずっと主人よりはありがたい存在で、貴重な存在だし、いや、ほんとにそうなんですよ。（困った時に）泣いて（頼って）行くのはそっちですからね。主人の方には泣いて行けないですからね。だって、病気がうち関係（自分の遺伝）じゃないですか。だから（夫に対して）悪いなーぐらいには思うけど、ごめんねぐらいには思うけど、泣いては行かないですよ（#5）*

このような場合、夫は密着した母子関係の外で自分の存在と役割に戸惑い苦悩していることであろう。遺伝による夫婦関係への影響、それと同時に夫の思いについても今後さらに詳細を明らかにし、夫への支援につなげていく必要がある。

#### 4) 遺伝子医療と血友病家系女性への支援

ここまではインタビューの結果から明らかになった、血友病の母親たちの経験とそれにつ

いての考察をまとめたが、調査Ⅱでは遺伝子医療と血友病家系女性に対する支援について尋ねている。以下ではその回答を踏まえつつ、遺伝子医療の役割と必要な支援について考察した。

(1) < 遺伝子医療の役割 >

遺伝子医療については具体的には「出生前診断(着床前診断、羊水検査)」、「遺伝子診断」、「遺伝カウンセリング」の 3 点について尋ねた。

「出生前診断」

出生前診断については 4 名の協力者が発言したが、この 4 名の中で実際にこれらの検査の経験者は、長男妊娠時に羊水検査を受けた#35 だけであった。彼女は羊水検査を受けた目的を『男の子かどうか確認だけはしておきたかった』と言っている。そして、『どっちにしても産むつもりだったので、あんまり、意味はないっちゃなかったんですけど、一応ね、ちょっと覚悟しといたほうがいいなっていうつもりで。』『他の人からみたら意味はないかもしれない』と羊水検査を受けたものの、結果に関わらず出産するのであれば受ける意味はなかったと考えていることを語った。

他の協力者は 1 名のみ現在は血友病だけならそれほど苦労はないが、HIV 等の感染症には非常に苦労しており、このような苦労を回避するためには羊水検査は有効であるという考えを述べた。しかし、あとの協力者は現在の血友病は血液凝固因子製剤の投与により他の病気と比較してもそれほどの障害とは思われないため、羊水検査の必要性に疑問がある。加えて自分が保因者と分かった時点で血友病の子を産むことは覚悟しなければいけないという考えを語った。

着床前診断についても、羊水検査に対して感染症による苦労を回避するためには有効とした協力者は同じ理由で着床前診断にも賛成したが、他の協力者は基本的に着床前診断については賛成できないという考えを表明した。その理由として、病気が治癒するわけではないため根本的解決になるわけではない、にもかかわらず患者数が減り、患者同士のつながりが希薄になっていくのではないかと、血友病治療の進歩のおかげで診断の必要性が強くない、また、出生前診断は長男のような子を否定することになる、『手前で診断するのは親の側のエゴ』であるという考えを語った。

これらの意見は、羊水検査、着床前診断ともに、その役割について「血友病児の出産を回避する」ということを前提としている。そして、今回のインタビューではその役割の必要性と有効性について認める意見よりも、認められないとする意見が上回っていた。

「遺伝子診断」

遺伝子診断については 6 名のインタビューで話題にのぼった。そのうち 2 名は遺伝子診断については聞いたことがなく、さらにそのうちの 1 名は自分には必要がないとし、その理由を『すでになっちゃっている以上、医学上追求できることはない(#35)』と答えた。

一方、2名の協力者は自分についての回答は避けたが、娘にはその必要性を認めており、すでに娘に対して遺伝子診断の受診を提案していた協力者もいた。他2名は自分が受けたいと回答したが、それについて同時に『興味本位で…(#34)』や『2人産んでから、今さらという気もしますけど(#39)』と付け足していることから、ぜひとも自分に必要だと考えているわけではないようであった。

こうした回答の背景には遺伝子診断が『デリケートな問題(#35、#39)』であるという考えも大きく関係しているだろう。受けてみたいと回答した協力者もデリケートな問題ゆえに『ただし、やみくもに受けてはいけないもの(#39)』という認識をもち、遺伝子診断には同時にカウンセリングが不可欠であると考えていた。さらに、受診できる機関も少なく、受診するまでの手続きも煩雑な印象があり、母親たちにとっては保因者かどうかを判明することによって得られるメリットに比べて、受診する際の負担の方が大きいのではないだろうか。

とはいえ、凝固因子活性検査では曖昧な結果しか得られないため、現時点では遺伝子診断が保因者かどうかを明らかにする最も確実な手段である。したがって、協力者たちが娘には勧めたいと回答したように、これから妊娠出産する女性にとっては自分が保因者であるかどうかは重要な問題であり、本人が希望するのであれば有効な手段であるという認識がもたれていた。

#### 「遺伝カウンセリング」

遺伝カウンセリングについては話題にのぼった6名のうち2名は聞いたことがないと回答し、そのうち1名は『私ぐらいになると、もういいです(#33)』と関心がないことを表明した。#34の協力者は遺伝カウンセリングに非常に関心のあることを示したが、それについて次のように述べた。

*産むのも産まないのも、遺伝をもってるのも私であって、・・・その方(カウンセラー)に何かの判断を委ねるわけじゃないじゃないですか。すごいデリケートというか、すごく微妙な位置があると感じてるので、だから逆に何を聞いてみたいというよりは、何を教えてくれるのよって*

これは遺伝カウンセリングの役割に疑問があるからこそ、受けて実感してみたいというものであった。このように、遺伝カウンセリングは協力者たちの中では、その存在もあまり認知されておらず、役割についても理解されていないようであった。

しかし、今回の協力者の中で唯一遺伝カウンセリングを実際に経験した#39は、遺伝カウンセリングが自分にとって有効だったことを語り、その経験から遺伝カウンセリングの役割を「母親たちの（特に妊娠出産にかかわる）意思決定プロセスの後押し」とであると認識していた。

*(遺伝カウンセリングは) 私が二男を産むステップになったなと思うので、やっぱり、あの段階は踏んで、自分の気持ちもクリアになったし。ああいう意味で私も遺伝カウンセリングというのはすごく重要なんだろうなと思ったんですね・・・やっぱりそのお母さんたちが、どう子どもを産もうかと思うというか、そこを大丈夫だよっていうように後押しをするのか、最終的にはご判断するのはお母さんたちですけど、そこまでの持っていくプロセスというのは非常に重要だなと思っています (#39)*

また、すでに娘に遺伝カウンセリングを提案しているという母親は、遺伝カウンセリングによって中立的で正確な情報を得られることを期待していた。このように、遺伝カウンセリングはその役割を期待する声もあるものの、実際に受診するとなると受診できる機関も少なく、どこにアクセスしたら良いのかが分かりにくいというのが現状である。遺伝カウンセリングについては、その存在と役割、実施機関を周知し、同時によりアクセスしやすい環境を作ることが現時点の課題といえよう。

## (2) <血友病家系女性にとって必要な支援>

### 「相談の場」

これまで血友病児の母親たちは、『自分は人目を気にし、人に相談することもないまま手探りでやってきた(#32)』という語りからもわかるように、遺伝や保因者の問題で悩んだ際にも、どこにも相談する場がなく、自分で考え解決するしかなかった。こうした自分たちの経験から、特に娘のいる母親たちの多くは、娘には相談できる場を強く望んでいた。

遺伝カウンセリングにもその役割を期待できるが、遺伝カウンセリングは上述のとおり、馴染みがなくなかなか受診までたどりつかない。また、保因者は治療が必要な病気ではないため、病院で相談することには抵抗があるうえ、病院内での相談は例えば結婚などのような医療に直接関係しない内容についての相談はしにくいということもあろう。そのため、より気楽に相談できる場として、病院外での相談の場が望まれていた。また、男性医師によるカウンセリングという形ではなく、女性同士で様々な話ができる場が望ましいという声もあった。

協力者たちの多くが、これから結婚妊娠出産を迎える若い世代にとってのこうした相談の場の必要性を訴えたが、果たして相談の場が必要なのは若い世代だけであろうか。今回の協力者の中にも妊娠出産というライフステージを終えた現在でも、娘への対応に苦慮している母親がいたように、遺伝や保因者に関わる様々な悩みは若い世代のものだけではない。あらゆる世代の血友病家系女性にとって、どんな内容でも気軽に相談でき、適切なアドバイスを得られる、そのような場が必要である。

### 「適切な情報提供」

遺伝や保因者を含めた血友病に関わる情報提供のあり方について尋ねたところ、以下の3点について語られた。

- ① 常に新しい情報が必要・・・血友病をめぐる医療の進歩は目覚ましく、医療費助成などの制度も変わってきた。それに伴い血友病患者とその家族をめぐる状況は大きく変化している。提供される情報はこの変化に応じて常に新しいものである必要がある。
- ② これから妊娠出産を迎える若い世代の人に必要・・・特にこれから妊娠出産を迎える若い世代の血友病家系女性とそのパートナーには、血友病に関しても遺伝に関しても正しい知識を身につけることはとても重要である。



③ 具体的な手段・・・協力者たちがこれまで情報を得てきた手段が、それに対する評価とともに挙げられた。

「本」『当たり前の』情報しかない

「ネット」簡単手早く情報を得ることができる、情報を更新しやすい、というメリットがある一方で、情報量が多すぎ、ポイントや自分にとって必要な情報の見極めが困難。情報の正確さが不明。自分からアクセスしないと新しい情報を得られないため、受け身では情報が得られない

「縁のあった人からの話」患者会や病院などで縁のあった人との会話の中で得られる情報。特に主治医との会話は、唯一の専門家と話す方法である

このような点を踏まえて、今後どのような情報提供が望ましいか尋ねたところ

「冊子」患者会や主治医を通して冊子を配る。という声がある一方で、冊子は最新の情報という点で、どの時点で更新されるのが難しいという意見もあった

「勉強会」時間が限られている中での開催は難しいものの、勉強会でビデオを見たりするのは効果的

「講演会」知識があり、信頼できる医師による講演会などが挙げられた。

### (3) 遺伝子医療と支援の関係性

今回のインタビューで取り上げた遺伝子医療（中でも特に遺伝子診断と遺伝カウンセリング）と情報提供や相談といった支援は、それぞれ血友病家系女性にとって、遺伝子医療は医療の面を、情報提供や相談は医療に限らない生活や人生全般を支えるものとして、両者がともに重要である。そのため、それぞれの役割を適切に果たしていく必要があるだろう。その際、両者が血友病家系女性の遺伝、保因者に関わる部分を支えるものである以上、双方の連携は不可欠である。

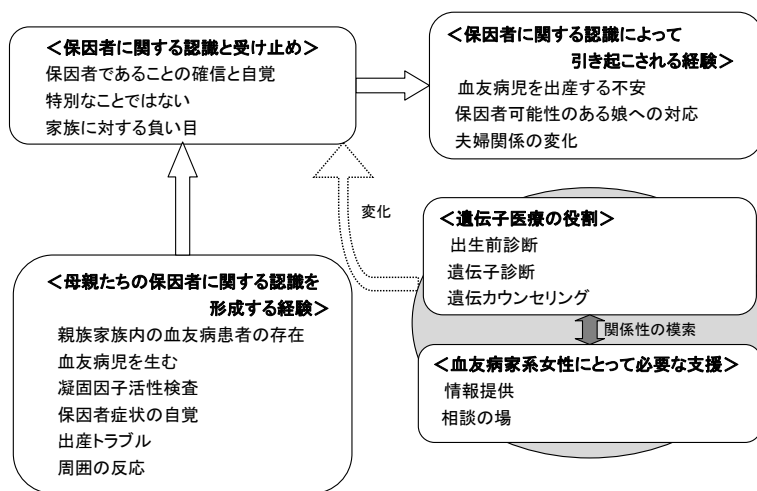


図2 母親たちの経験と遺伝子医療・支援の関係

とはいえ、生活や人生全般を支えるべき支援が医療に取り込まれてしまうようなことがあっては、それぞれの良さは生かせず、適切にその役割を果たしているとは言い難い。したがって、双方の関係のあり方を模索しつつ、そのシステムをいかに構築していくかが今後の課題であろう（図2）。

#### 4. まとめ 一血友病家系女性のこれまでとこれから一

今回の研究では、血友病児の母親のインタビューから、母親たちの遺伝や保因者に関する経験や思いを整理した。そこから明らかになったのは、保因者に関しての正確な情報を得る機会も少なく、実際に自分が保因者であるかどうか曖昧なまま、誰にもどこにも相談することもできず、遺伝や保因者に関する疑問や悩みをすべて自分の内に秘め、自分なりの認識と受け止めで様々な問題に対処するしかなかった血友病家系女性のこれまでの姿であった。中には自分が保因者であるという自覚ももてず、それゆえ問題の所在がどこにあるのかさえ分からないという人もいるという。

現在の医療では血友病の遺伝子が次世代の女性たちに引き継がれることを止めることはできない。しかし、血友病家系女性の困難や苦悩が遺伝子と一緒に次世代の女性たちに引き継がれていくことは止めなければならない。そのためには、遺伝子医療や医療面に限らない様々な支援が血友病家系女性に対して適切に行われることが重要である。これらが血友病家系女性たちに広く行き渡り、一人一人が正確な情報と知識、安心して相談できる場を得られれば、保因者に関する認識はより明確なものへと変わり、受け止め方にも変化が起きてくるだろう（図 2 点線矢印）。それと同時にいざ困難が生じたときにも柔軟な対応が可能となることが期待できる。

#### 5. 本研究の意義と今後の課題

本研究は血友病児の母親へのインタビューから、血友病家系女性の遺伝や保因者に関する経験とその課題を明らかにした。血友病家系女性のこれらの問題については、これまで明らかにされておらず、今回明らかになった結果は血友病家系女性に対する具体的支援を検討する際に貴重な資料となると考えられる。しかしながら、次のような限界と今後の課題もある。

調査Ⅱではインタビュー内容の特性から、遺伝や保因者について特に関心が強い協力者が集まっている可能性があり、血友病児の母親全般の状況を考える際には注意が必要である。また、今回のインタビュー協力者は 33 名であるが、その大半である調査Ⅰではインタビュー内容が血友病の子に関することをメインとしていたため、保因者・遺伝に関する語りは少ない。さらに保因者・遺伝に注目した調査Ⅱは協力者が 8 名と少ないため、より多くの母親の声を聞き、様々な経験を拾い集める必要がある。

さらに、今回の研究では血友病児の母親が対象となっていることから、すでに妊娠出産を経た血友病家系女性の経験や課題、それに対する支援を考察している。しかし、血友病家系女性の中には結婚、妊娠出産をしないという選択をした人も少なくないという。こうした女性の経験や困難は血友病児の母親とは異なることも考えられるため、インタビューの対象を広げ、様々な立場の血友病家系女性にとって有効な支援を考えていくことが今後の課題である。

## 血友病家系女性の血友病に対する認識と自身の出血症状について

井上佳世

お茶の水女子大学大学院 人間文化創成科学研究科

ライフサイエンス専攻 遺伝カウンセリング領域

### 1. はじめに

血友病は、X 染色体上にある、第Ⅷ因子遺伝子（血友病 A）、第Ⅸ因子遺伝子（血友病 B）の変異によって、その変異を受け継いだ男児が罹患する疾患であることが知られている。凝固活性因子の欠乏や異常により、出血性の症状を呈するが、血液凝固因子製剤によって治療が可能となった。しかし、その製剤の使用により、薬害エイズや、C 型肝炎、B 型肝炎など感染症を合併する問題もあり、今後更なる治療法の進歩が期待されている（白幡ら, 2012）。これまで我が国の血友病医療体制は、罹患児とその親への医療や心理社会的支援を中心に発展してきた。しかし、血友病は、罹患者だけではなく、その家系女性にも影響を与えている。

以前から血友病罹患児の母親は、その原因遺伝子変異をもつ保因者である可能性が高いことから、結婚や挙児について相談する例もあり、男女の生み分けや、血友病の出生前診断が、「罹患児の誕生を回避する」、また「出産時の罹患児の出血のリスクを最小限にするための分娩計画のため」（松尾, 2012）に実施されており、日本国内にも研究報告がいくつかある（福井ら, 1990, 白幡ら, 2012）。血友病家系の女性にとって罹患児を産む可能性があることは、女性の人生設計に影響を与える可能性がある。また、近年では、保因者女性も、出血症状の頻度が、一般女性よりも高いことが示唆されており、それらによる社会生活に影響を与えていることが報告されている（Kadir. et al, 1998）。しかし、罹患児の育児を通しての親の心理変容についての調査研究（Beeton. et al, 2007）は報告されているが、結婚や挙児、自身の症状といった課題が女性自身の人生にどのように影響しているかについての研究報告は見当たらない。

### 2. 目的

血友病患者の母親や、その娘、その姉妹は、血友病患児が生まれた時、あるいは、父親や兄弟が罹患していることからその疾患を認識することになる。しかし血友病の正確な知識や情報は、血友病家系の女性たちにどのように受け止められているのであろうか。患者は治療のために受診し、専門医から疾患についての情報を得る事が出来る。またその母親は罹患した息子を通じて疾患の情報を得ると考えるが、母親や娘、姉妹が実際にどの程度血友病を理解し、また支援を受けているかこれまでその実情を調査したものはない。

本調査では、我が国における血友病家系女性の実情を把握し、血友病家系女性に必要な支援のあり方を検討することを目的とする。

### 3. 方法

機縁法にて患者の母親や、患者の妻を中心として、母親、またその娘や姉妹に対して 2013 年 1 月～3 月に質問紙を郵送にて依頼し、30 名の回答を得た。

質問紙では、年齢、結婚状況、妊娠状況、家族歴などの背景、血友病についての知識(6 項目)、血友病についての認識(8 項目)、支援経験(血友病家系女性の立場としての支援経験 8 項目)を、支援ニーズ(血友病家系女性の立場としての支援ニーズ 8 項目)、女性自身の出血症状(6 項目)、月経過多がある場合の日常生活の支障の有無(6 項目)、婦人家系合併症の有無(4 項目)、出血症状についての知識と、相談経験の有無、保因者診断の有無、家族とのコミュニケーションの状況について尋ねた。

また、心の健康自己評価質問紙 (WHO SUBI : The Subjective Well-being Inventory) を用いて被験者の主観的な心の健康度を評価し、背景、知識や認識、支援状況や家族とのコミュニケーションとの相関をみることにした。SUBI は、疾病の有無を判定するのではなく、受検者の心の健康度 (陽性感情) および心の疲労度 (陰性感情) を測定するものであり、11 の下位尺度(人生に対する前向きな気持ち、達成感、自信、至福感、近親者の支え、社会的な支え、家族との関係、精神的なコントロール感、身体的な不健康感、社会的つながりの不足、人生に対する失望感)について計 40 項目の質問に 3 件法で回答してもらうものである。

### 4. 結果

#### ①背景

家族歴についての質問項目から、血友病 A と B に分類しそれぞれの年代 (表 1)、婚姻状況 (表 2)、保因者状況 (表 3)、保因者認識(自身が保因者だと認識しているかどうか) (表 4)、子どもの有無 (表 5)、罹患児の有無 (表 6)。罹患児死亡の有無 (表 7)、きょうだいの有無 (表 8)、きょうだい患者の有無 (表 9)、きょうだい患者死亡の有無 (表 10)、父親が患者の有無 (表 11)、おじ、祖父、いどこに患者の有無 (表 12) について下記に述べた通りである。尚、保因者状況については、質問項目の中の家族歴情報から、家系図を作成し、確定保因者か推定保因者に分類をした。その分類定義 (稲葉, 2012) は、確定保因者が①血友病の父親から生まれた娘、②2 人以上の血友病患児 (一卵性双生児ではない) を出産した母親、③一人の血友病患児を出産し、また母方家系に確実な血友病患者のいる女性であり、推定保因者は、①母方血縁に血友病患者がいるが、血友病患児を未だ出産していない女性、②1 人の血友病患児を出産したが、家系には血友病患者がいない女性である。

表 1. 年代別被験者の頻度

| 年齢別       | N=30 |      |      |      |      |      |
|-----------|------|------|------|------|------|------|
|           | 血友病A |      | 血友病B |      | 回答なし |      |
|           | n    | %    | n    | %    | n    | %    |
| 1 20-30歳代 | 0    | 0.0  | 0    | 0.0  | 1    | 50.0 |
| 2 30-40歳代 | 5    | 22.7 | 1    | 16.7 | 0    | 0.0  |
| 3 40-50歳代 | 3    | 13.6 | 2    | 33.3 | 0    | 0.0  |
| 4 50-60歳代 | 1    | 4.5  | 1    | 16.7 | 0    | 0.0  |
| 5 60-70歳代 | 11   | 50.0 | 2    | 33.3 | 0    | 0.0  |
| 6 70歳以上   | 2    | 9.1  | 0    | 0.0  | 1    | 50.0 |
|           | 22   |      | 6    |      | 2    |      |

表 2. 婚姻状況別被験者の頻度

| 婚姻状況別 | N=30 |      |      |      |      |      |
|-------|------|------|------|------|------|------|
|       | 血友病A |      | 血友病B |      | 回答なし |      |
|       | n    | %    | n    | %    | n    | %    |
| 1 既婚  | 18   | 81.8 | 5    | 83.3 | 1    | 50.0 |
| 2 未婚  | 1    | 4.5  | 0    | 0.0  | 1    | 50.0 |
| 3 離婚  | 2    | 9.1  | 1    | 16.7 | 0    | 0.0  |
| 4 死別  | 1    | 4.5  | 0    | 0.0  | 0    | 0.0  |
|       | 22   |      | 6    |      | 2    |      |

表 3. 家系情報からの確定保因者と推定保因者の頻度

| 確定保因者と推定保因者 | N=30 |      |      |      |      |      |
|-------------|------|------|------|------|------|------|
|             | 血友病A |      | 血友病B |      | 回答なし |      |
|             | n    | %    | n    | %    | n    | %    |
| 1 確定保因者     | 17   | 77.3 | 4    | 66.7 | 1    | 50.0 |
| 2 推定保因者     | 5    | 22.7 | 2    | 33.3 | 1    | 50.0 |
|             | 22   |      | 6    |      | 2    |      |

表 4. 保因者認識状況の頻度

| 保因者認識の有無 | N=30 |      |      |      |      |      |
|----------|------|------|------|------|------|------|
|          | 血友病A |      | 血友病B |      | 回答なし |      |
|          | n    | %    | n    | %    | n    | %    |
| 1 保因者である | 13   | 59.1 | 4    | 66.7 | 1    | 50.0 |
| 2 保因者でない | 3    | 13.6 | 1    | 16.7 | 0    | 0.0  |
| 3 わからない  | 6    | 27.3 | 1    | 16.7 | 1    | 50.0 |
|          | 22   |      | 6    |      | 2    |      |

表 5. 子どもの有無状況の頻度

| 子どもの有無 |    | N=30 |      |      |       |      |      |
|--------|----|------|------|------|-------|------|------|
|        |    | 血友病A |      | 血友病B |       | 回答なし |      |
| 子どもの有無 |    | n    | %    | n    | %     | n    | %    |
| 1      | あり | 21   | 95.5 | 6    | 100.0 | 1    | 50.0 |
| 2      | なし | 1    | 4.5  | 0    | 0.0   | 1    | 50.0 |
|        |    | 22   |      | 6    |       | 2    |      |

表 6. 血友病患児の有無状況の頻度

| 血友病患児の有無 |    | N=28 |       |      |       |      |       |
|----------|----|------|-------|------|-------|------|-------|
|          |    | 血友病A |       | 血友病B |       | 回答なし |       |
|          |    | n    | %     | n    | %     | n    | %     |
| 1        | あり | 21   | 100.0 | 6    | 100.0 | 1    | 100.0 |
| 2        | なし | 0    | 0.0   | 0    | 0.0   | 0    | 0.0   |
|          |    | 21   |       | 6    |       | 1    |       |

表 7. 血友病患児の死亡有無状況の頻度

| 血友病患児の死亡有無 |    | N=28 |      |      |       |      |       |
|------------|----|------|------|------|-------|------|-------|
|            |    | 血友病A |      | 血友病B |       | 回答なし |       |
|            |    | n    | %    | n    | %     | n    | %     |
| 1          | あり | 5    | 23.8 | 0    | 0.0   | 0    | 0.0   |
| 2          | なし | 16   | 76.2 | 6    | 100.0 | 1    | 100.0 |
|            |    | 21   |      | 6    |       | 1    |       |

表 8. きょうだいの有無状況の頻度

| きょうだいの有無 |    | N=30 |      |      |       |      |      |
|----------|----|------|------|------|-------|------|------|
|          |    | 血友病A |      | 血友病B |       | 回答なし |      |
|          |    | n    | %    | n    | %     | n    | %    |
| 1        | あり | 21   | 95.5 | 6    | 100.0 | 1    | 50.0 |
| 2        | なし | 1    | 4.6  | 0    | 0.0   | 1    | 50.0 |
|          |    | 22   |      | 6    |       | 2    |      |

表 9. きょうだい患者の有無状況の頻度

| きょうだい患者の有無 |    | N=27(欠損値=1) |      |      |      |      |       |
|------------|----|-------------|------|------|------|------|-------|
|            |    | 血友病A        |      | 血友病B |      | 回答なし |       |
|            |    | n           | %    | n    | %    | n    | %     |
| 1          | あり | 7           | 35.0 | 1    | 16.7 | 1    | 100.0 |
| 2          | なし | 13          | 65.0 | 5    | 83.3 | 0    | 0.0   |
|            |    | 20          |      | 6    |      | 1    |       |

表 10. きょうだい患者死亡有無状況の頻度

| きょうだい患者死亡有無 | N=9  |      |      |       |      |       |
|-------------|------|------|------|-------|------|-------|
|             | 血友病A |      | 血友病B |       | 回答なし |       |
|             | n    | %    | n    | %     | n    | %     |
| 1 あり        | 2    | 28.6 | 0    | 0.0   | 1    | 100.0 |
| 2 なし        | 5    | 71.4 | 1    | 100.0 | 0    | 0.0   |
|             | 7    |      | 1    |       | 1    |       |

表 11. 父親が患者である頻度

| 父親が患者有無 | N=30     |      |      |      |      |       |
|---------|----------|------|------|------|------|-------|
|         | 血友病A     |      | 血友病B |      | 回答なし |       |
|         | n        | %    | n    | %    | n    | %     |
| 1 あり    | 2(内2名死亡) | 9.1  | 2    | 33.3 | 0    | 0.0   |
| 2 なし    | 20       | 90.9 | 3    | 50.0 | 2    | 100.0 |
| 2 不明    | 0        | 0.0  | 1    | 16.7 | 0    | 0.0   |
|         | 22       |      | 6    |      | 2    |       |

表 12. おじ、祖父、いとこが患者の有無の頻度

| おじ、祖父、いとこが患者の有無 | N=29(欠損値=1) |      |      |      |      |      |
|-----------------|-------------|------|------|------|------|------|
|                 | 血友病A        |      | 血友病B |      | 回答なし |      |
|                 | n           | %    | n    | %    | n    | %    |
| 1 患者である         | 6           | 27.3 | 1    | 20.0 | 0    | 0.0  |
| 2 患者でない         | 12          | 54.5 | 3    | 60.0 | 1    | 50.0 |
| 3 わからない         | 4           | 18.2 | 1    | 20.0 | 1    | 50.0 |
|                 | 22          |      | 5    |      | 2    |      |

① 血友病に対する知識

血友病に対する知識は、血友病のガイドラインから女性血友病患者の存在、患児の出生頻度、保因者女性の出血状況、血友病支援サービス、保因者診断、突然変異の頻度の 6 項目において 5 件法で実施した。尺度の信頼性を検討したところ、Cronbach の  $\alpha$  係数は .906 であり尺度の内的整合性は高いことが示された。各項目に対する回答頻度を表 13 に示す。

調査に参加した女性の約半数は 1～5 項目は半数程度（42%～59%）が非常によく知っている/よく知っていると回答した。一方で、項目 4,5,6 では、全く知らない/ほとんど知らないと回答した女性も、それぞれ 30%～43%いることが判明した。このことから、血友病の一般的な知識を半数は持っているが、知らないと答えたものも半数～20%前後はおり、項目 4.5 の結果からは、その支援や検査方法についても十分に情報が届いてい

ない可能性が伺える。

表 13. 血友病知識の程度

| 血友病の知識 (range score 6-30, Cronbach's $\alpha=0.906$ ) |                    |        |                 |        |         |        |
|---|--------------------|--------|-----------------|--------|---------|--------|
|   | 非常によく知っている/良く知っている |        | 全く知らない/ほとんど知らない |        | 多少知っている |        |
|   | n                  | %      | n               | %      | n       | %      |
| 1 血友病は男性患者だけでなく女性患者もいる                                | 12                 | 51.7%  | 3               | 10.3%  | 11      | 37.9%  |
| 2 保因者女性が血友病男児を出産する確率は出生時の1/4である                       | 13                 | 59.20% | 5               | 18.50% | 6       | 22.20% |
| 3 保因者女性の中には出血症状等のある人がいる                               | 12                 | 48.10% | 5               | 18.50% | 9       | 33.30% |
| 4 遺伝カウンセリングは遺伝や保因者のことを相談できる                           | 11                 | 42.9%  | 12              | 42.9%  | 4       | 14.3%  |
| 5 血液凝固活性検査では保因者の確定診断にはならない                            | 11                 | 46.10% | 8               | 30.80% | 6       | 23.10% |
| 6 家系内で初めて血友病患児が生まれた場合の母親が保因者である確率は80%である              | 6                  | 29.60% | 10              | 37.00% | 9       | 33.30% |

## ② 血友病に対する認識

血友病に対する認識は、血友病家系の女性たちにとって、血友病をどうとらえているかを表 14 の 7 項目で確認した。尺度の信頼性を検討した結果、 $\alpha$  係数は .6 であった。

項目 2.3 は非常にそう思う/かなりそう思うと回答したものが半数いた。

このことより、血友病家系女性は、血友病について社会的に否定的な見方もあることが伺える。しかし、項目 4 では、すべての女性被験者が「保因者であることを知っておいたほうがいい」と考えていた。さらに項目 6 では、87%が「結婚や出産をやめておいたほうがいいとは思っていない」と回答しており、遺伝性疾患ではあるが、治療法が確立している現在において、結婚や出産に対して前向きに考えられている可能性がある。

表 14. 血友病に対する認識の程度

| 血友病の認識 (range score 7-49, Cronbach's $\alpha=0.6$ ) |                 |        |                    |        |         |        |
|---|-----------------|--------|--------------------|--------|---------|--------|
|   | 非常にそう思う/かなりそう思う |        | 全くそう思わない/あまりそう思わない |        | 多少はそう思う |        |
|   | n               | %      | n                  | %      | n       | %      |
| 1 病気というより、一つの特徴・個性(逆転項目)                            | 11              | 45.8%  | 9                  | 37.5%  | 4       | 16.6%  |
| 2 重症な病気であり育てていく事は大変                                 | 13              | 50.00% | 5                  | 19.20% | 8       | 30.70% |
| 3 社会的な差別がある   | 14              | 50.00% | 14                 | 50.00% | 0       | 0.00%  |
| 4 患児の出産・育児の環境が整っている                                 | 1               | 3.9%   | 19                 | 73.0%  | 6       | 23.0%  |
| 5 娘や孫は保因者かどうか分かっていったほうがいい                           | 19              | 76.00% | 0                  | 0.00%  | 6       | 24.00% |
| 6 保因者なら、結婚や出産はやめておいたほうがいい                           | 0               | 0.00%  | 21                 | 87.50% | 3       | 12.50% |
| 7 保因者の支援は充実している                                     | 3               | 12.50% | 15                 | 62.50% | 6       | 25.00% |

## ③ 支援経験

血友病患者に対する支援は様々なものがあるが、それを血友病家系女性は実際に利用しているのかを確認した。尺度の信頼性を検討したところ、 $\alpha$  係数は .88 であり尺度の内的整合性は高いことが示された。

最もよく支援を受けていると回答したのは、血友病についての勉強会や情報交換会



(48%) であった。次に、患者家族の会 (46.4%) 血液凝固異常症の専門医による指導 (28.6%) と続く。

表 15. 血友病支援の経験の程度

|                          | 支援経験 (range score 8-40, Cronbach's $\alpha=0.88$ ) |       |                        |      |          |       |
|--------------------------|--|-------|------------------------|------|----------|-------|
|                          | 非常によく受けている/かなり受けている                                |       | 全く受けたことがない/あまり受けたことがない |      | 多少は受けている |       |
|                          | n  | %     | n                      | %    | n        | %     |
| 1 血液凝固異常症の専門医による指導       | 8  | 28.60 | 12                     | 42.9 | 8        | 28.60 |
| 2 心理カウンセリング              | 2  | 9.50  | 18                     | 85.7 | 1        | 4.80  |
| 3 遺伝カウンセリング              | 2  | 8.30  | 17                     | 70.9 | 5        | 20.80 |
| 4 血友病についての勉強会や情報交換会      | 12   | 48.00 | 7                      | 28.0 | 6        | 24.00 |
| 5 患者家族の会(友の会など)          | 13   | 46.40 | 6                      | 21.4 | 9        | 32.10 |
| 6 ピアカウンセリング(同じ立場の人たちの支援) | 3  | 14.30 | 9                      | 42.8 | 9        | 42.90 |
| 7 電話相談                   | 2  | 10.00 | 16                     | 80.0 | 2        | 10.00 |
| 8 メールリストやパソコンのコミュニティ     | 2  | 9.50  | 16                     | 76.2 | 3        | 14.30 |

#### ④ 支援ニーズ

一方で、どのような支援が提供されることを望んでいるかを表 16 の 8 項目で確認した。

こちらも尺度の信頼性は  $\alpha$  係数 .75 であり尺度の内的整合性は十分にあると考える。ここで最も高いのは専門医による指導 (77.7%) であった。次に血友病についての勉強会や情報交換会 (76.1%)、ピアカウンセリング (72.2%)、遺伝カウンセリング (70.9%) と続く。このことより、正確な情報の提供と、自分たちの不安な思いや相談を受けることが出来る場所を望んでいることが伺える。

表 16. 血友病支援ニーズの程度

|                          | 支援ニーズ (range score 8-40, Cronbach's $\alpha=0.758$ ) |       |                  |      |          |       |
|--------------------------|--|-------|------------------|------|----------|-------|
|                          | 非常に必要である/かなり必要である                                    |       | 全く必要でない/あまり必要でない |      | 多少は必要である |       |
|                          | n  | %     | n                | %    | n        | %     |
| 1 血液凝固異常症の専門医による指導       | 21   | 77.70 | 0                | 0.0  | 6        | 22.20 |
| 2 心理カウンセリング              | 11   | 64.70 | 3                | 17.6 | 3        | 17.60 |
| 3 遺伝カウンセリング              | 17   | 70.90 | 2                | 8.3  | 5        | 20.80 |
| 4 血友病についての勉強会や情報交換会      | 16   | 76.10 | 2                | 9.5  | 3        | 14.30 |
| 5 患者家族の会(友の会など)          | 14   | 66.60 | 2                | 9.5  | 5        | 23.80 |
| 6 ピアカウンセリング(同じ立場の人たちの支援) | 13   | 72.20 | 0                | 0.0  | 5        | 27.80 |
| 7 電話相談                   | 8  | 50.00 | 3                | 18.8 | 5        | 31.30 |
| 8 メールリストやパソコンのコミュニティ     | 7  | 53.90 | 1                | 7.7  | 5        | 38.50 |

#### ⑤ 保因者自身の症状に対する医療的情報知識と支援の程度

95%以上が、保因者自身の症状に対する医療的な情報を得る機会を持たず、また妊娠、出産時にも血友病保因者に関する注意事項についての情報も得られず、対応もなかったと回答されている。

##### a) 出血症状や婦人科領域疾患等の合併症の情報の程度(回答 28 名)

非常によく知っていると回答したものは、1 名。全く知らない/ほとんど知らないとして回答したものが、67.9%(19 名)であった。

また、そのことについて医療機関へ相談に行ったものは、10名(58.8%)であった。

表 17. 出血症状・婦人科領域疾患の合併症についての情報の程度

|            | 出血症状や婦人科領域疾患の合併症の情報の程度 |      |      |      | N=28(回答なし2) |       |
|------------|------------------------|------|------|------|-------------|-------|
|            | 血友病A                   |      | 血友病B |      | 回答なし        |       |
|            | n                      | %    | n    | %    | n           | %     |
| 非常によく知っている | 1                      | 4.6  | 0    | 0.0  | 0           | 0.0   |
| よく知っている    | 0                      | 0.0  | 0    | 0.0  | 0           | 0.0   |
| 多少は知っている   | 7                      | 31.8 | 1    | 16.7 | 0           | 0.0   |
| ほとんど知らない   | 7                      | 31.8 | 1    | 16.7 | 0           | 0.0   |
| 全く知らない     | 6                      | 27.3 | 3    | 50.0 | 2           | 100.0 |
|            | 21                     |      | 5    |      | 2           |       |

表 18. 出血症状・婦人科領域疾患の合併症についての医療機関へ相談有無

|                 | 出血症状や婦人科領域疾患の合併症について医療機関へ相談有無 |      |      |      | N=17(回答なし13) |       |
|-----------------|-------------------------------|------|------|------|--------------|-------|
|                 | 血友病A                          |      | 血友病B |      | 回答なし         |       |
|                 | n                             | %    | n    | %    | n            | %     |
| 相談した            | 8                             | 66.7 | 1    | 25.0 | 1            | 100.0 |
| 相談しない           | 3                             | 25.0 | 2    | 50.0 | 0            | 0.0   |
| どうすればいいかわからなかった | 1                             | 8.3  | 1    | 25.0 | 0            | 0.0   |
|                 | 12                            |      | 4    |      | 1            |       |

- b) 保因者の妊娠・出産時の注意事項について知っていたかどうか（回答 28 名）について、知らないと回答したものが、96.4%(27 名)。はいと回答したものが 1 名のみであった。

表 19. 妊娠・出産時の自身の保因者認識有無

|       | 妊娠・出産時に自分が保因者であることを知っていたか |      |      |      | N=28(回答なし2) |       |
|-------|---------------------------|------|------|------|-------------|-------|
|       | 血友病A                      |      | 血友病B |      | 回答なし        |       |
|       | n                         | %    | n    | %    | n           | %     |
| 知っていた | 2                         | 9.5  | 1    | 16.7 | 0           | 0.0   |
| 知らない  | 19                        | 90.5 | 5    | 83.3 | 1           | 100.0 |
|       | 21                        |      | 6    |      | 1           |       |

表 20. 保因者の妊娠・出産時の注意事項の知識有無

|       | 保因者の妊娠・出産時の注意事項を知っていたか |       |      |      | N=28(回答なし2) |       |
|-------|------------------------|-------|------|------|-------------|-------|
|       | 血友病A                   |       | 血友病B |      | 回答なし        |       |
|       | n                      | %     | n    | %    | n           | %     |
| 知っていた | 0                      | 0.0   | 1    | 16.7 | 0           | 0.0   |
| 知らない  | 21                     | 100.0 | 5    | 83.3 | 1           | 100.0 |
|       | 21                     |       | 6    |      | 1           |       |

- c) 血友病保因者として産科での対応が得られたか。（回答 23 名）  
「対応してもらった」回答したものは 1 名のみであった。

表 21. 妊娠・出産時に保因者としての産科対応有無

| 保因者の妊娠・出産時に産科で対応してもらったか | 血友病A |       | 血友病B |      | N=23(回答なし7)<br>回答なし |       |
|-------------------------|------|-------|------|------|---------------------|-------|
|                         | n    | %     | n    | %    | n                   | %     |
| 対応してもらった                | 0    | 0.0   | 1    | 16.7 | 0                   | 0.0   |
| 対応してもらっていない             | 17   | 100.0 | 5    | 83.3 | 0                   | 100.0 |
|                         | 17   |       | 6    |      | 0                   |       |

⑦出血症状

血友病の保因者女性が、非保因者と比較して出血症状が高い傾向にあることは、これまで海外の研究で調査されてきている (Mauser-Bunschoten, 2008)。また、月経過多症状が保因者女性の仕事や社会活動に支障をきたしていると感じている女性が多いことも報告されている (Kadir, *et al.*1998)。我が国での状況については、まだ実際的な調査はされていない。本研究では血友病家系女性へのインタビューの中で、「出血が止まりにくい」「痣が出来やすい」、「鼻血が止まりにくい」、「仕事を休むほどの月経過多」、「出産時の出血過多」、「産後の貧血」といった症状を示す症例が 3 例あった。これらの出血症状は、彼女たちの社会活動や QOL に影響を与える。今回、30 名の血友病家系女性に対して、主観的経験から表 17 の 5 つの出血症状について 2 件法で質問した。この 5 項目は、(あざが出来やすい、傷口からの長引く出血、抜歯、扁桃腺摘出、外科手術後の長引く出血、分娩後の長引く出血、月経過多) Mauser-Bunschoten ら (1988) から選択した。

表 17. 主観的出血症状の頻度

| 出血症状                          | 合計 |      |
|-------------------------------|----|------|
|                               | n  | %    |
| 鼻血が良く出る                       | 5  | 16.7 |
| 抜歯または扁桃腺摘出後、その他の外科手術後出血が止まらない | 6  | 20.0 |
| 外傷後、出血が止まらない                  | 1  | 3.3  |
| 内出血が良くできる                     | 16 | 53.3 |
| 月経過多(出血期間が1週間以上、出血量が多い)       | 8  | 26.7 |
| 分娩後の出血が止まらない                  | 3  | 10.0 |
|                               | 39 |      |

女性の家系の凝固因子 (A/B) ,保因者認識状況 (自分は保因者である/保因者ではない/分からない) ,質問紙調査情報からの保因者状況 (確定保因者/推定保因者) でそれぞれ、出血症状について相関をみたが、有意差はみとめられなかった。

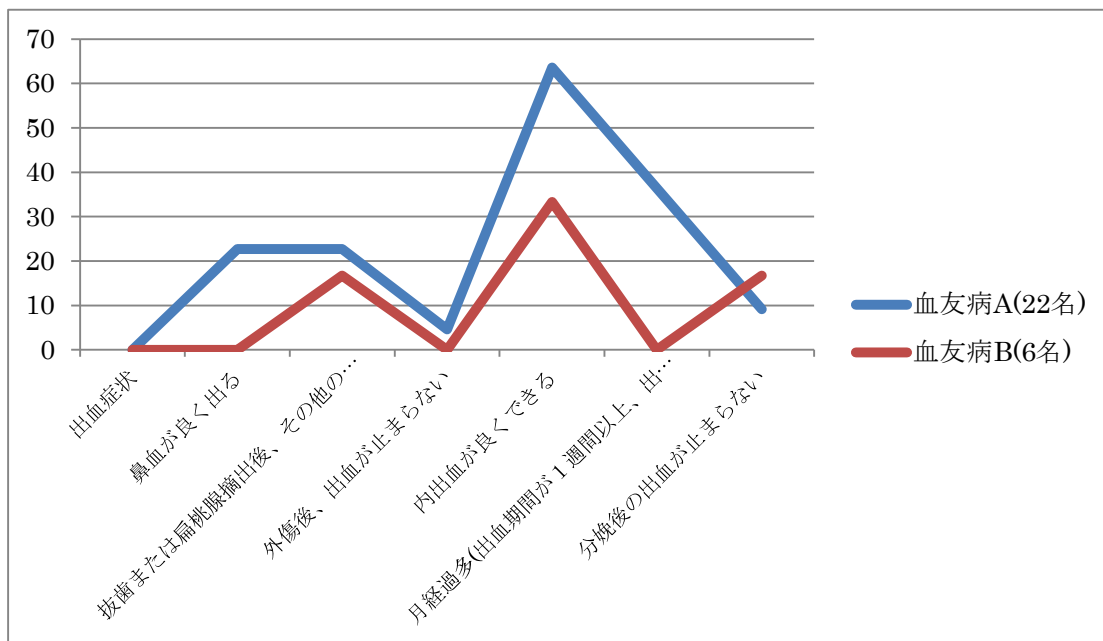


図 1. 血友病 A と B の出血症状の程度

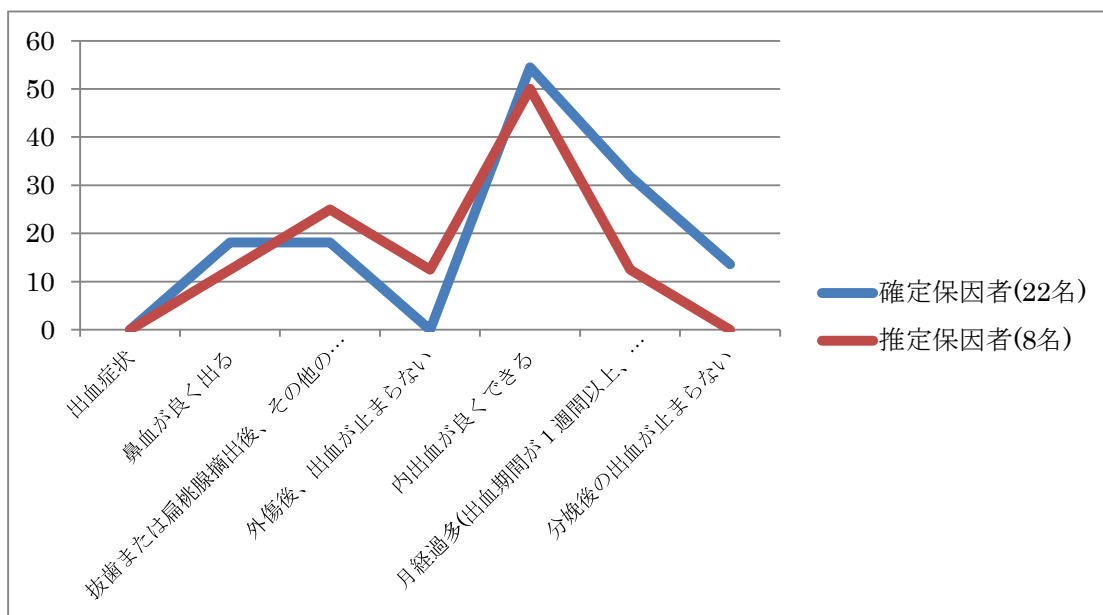


図 2. 確定保因者と推定保因者の出血症状の程度

⑥ 婦人科合併症

また、婦人科系疾患のリスクも、遺伝性血液凝固異常症の女性に有意に高いことが報告されている。(Lee. *et al.* 2006)

本調査では Lee らの報告から、出血性卵巣のう胞、子宮内膜症、月経困難症、流産に

ついて、主観的に合併症の有無について調査し、女性の家系の凝固因子(A/B),保因者認識状況(自分は保因者である/保因者ではない/分からない),質問紙調査情報からの保因者状況(確定保因者/推定保因者)でそれぞれ、出血症状について相関をみたが、有意差はみとめられなかった。

しかし、血友病 A のほうが、血友病 B と比較するとこれらの合併症を呈した割合が多い傾向にある。

表 18. 主観的婦人科系合併症の有無

| 婦人科系合併症  | 合計 |      |
|----------|----|------|
|          | n  | %    |
| 出血性卵巣のう胞 | 3  | 11.1 |
| 子宮内膜症    | 10 | 37.0 |
| 月経困難症    | 8  | 29.6 |
| 流産       | 1  | 3.7  |

N=25

22

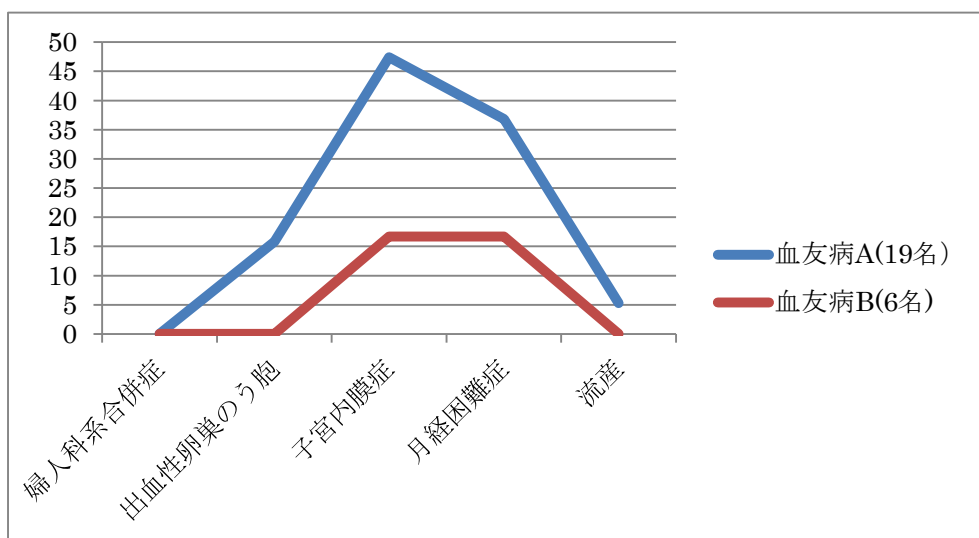


図 3. 血友病 A と B の婦人科合併症の頻度

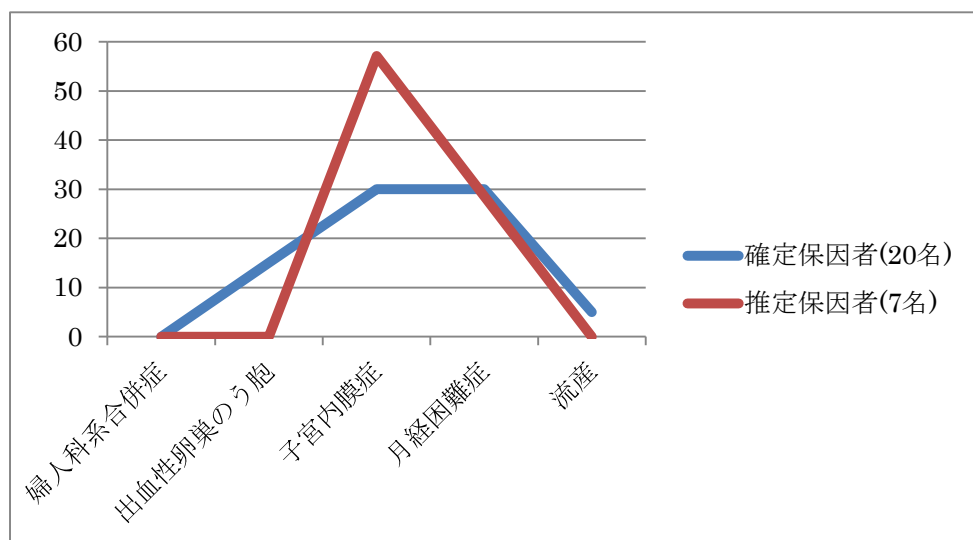


図 4. 確定保因者と推定保因者の婦人科合併症の頻度

### ③分娩時既往

保因者女性にとって、妊娠分娩時は様々な止血負荷のリスクが高い時期であることが報告されている。また血友病 A 保因者は、妊娠中に活性レベルが有意に増加し、血友病 B 保因者は、妊娠中の活性レベルの有意な増加は認められないということが分かっている。(Lee, 2006)

本調査では、分娩時の既往として、輸血、大量出血、児の頭蓋内出血、児の頭血腫の有無について確認したところ、確定保因者また、血友病 A 家系女性にそれぞれ既往がみとめられた。被験者数が限られていることからその傾向が有意な相関があることは言えない。

表 19. 主観的分娩時既往の有無

| 分娩時既往   | 合計 |      |
|---------|----|------|
|         | n  | %    |
| 輸血      | 1  | 4.0  |
| 大量出血    | 1  | 4.0  |
| 内出血     | 0  | 0.0  |
| 児の頭蓋内出血 | 1  | 4.0  |
| 児の頭出血   | 3  | 12.0 |

6

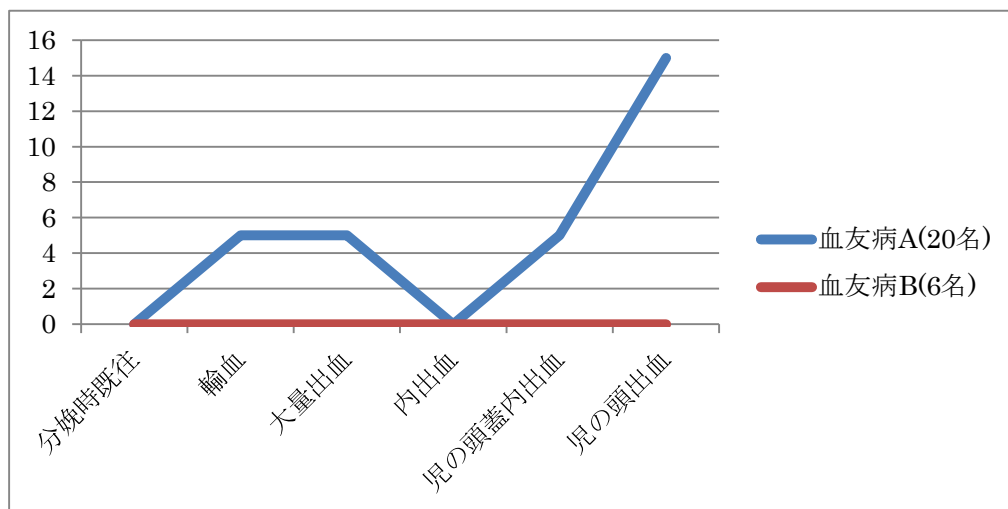


図 5. 血友病 A と B の分娩時既往の頻度

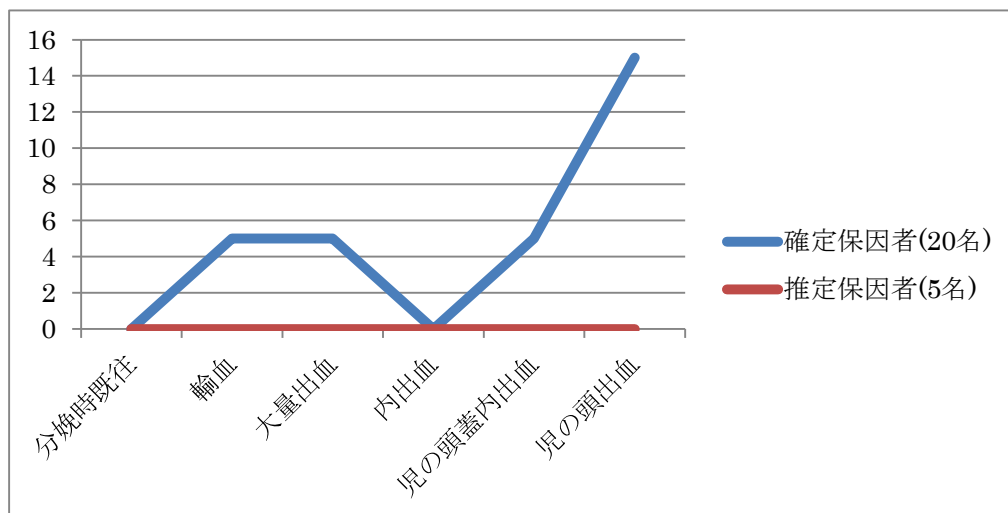


図 6. 確定保因者と推定保因者の分娩時既往の頻度

#### 考察

血友病家系の女性にとって、血友病についての正しい認識や知識を得ることや、自身の身体状況の理解することは、将来の人生設計や、QOLに影響してくると考える。わずか30名の血友病家系女性への主観的な調査であり限界はあるが、出血症状や、婦人科合併症、妊娠・分娩時の出血症状等が認められた。それに対して、医療的情報の提供や支援を十分に受けていると感じているものがほとんどいないことがわかった。

また、血友病についての知識を理解していないと回答したものが半数おり、また血友病についてネガティブな認識を持っている傾向が伺えた。

支援に対するニーズは高く、正確な情報提供や、心理社会的サポートを求めている。これらのことを踏まえて、血友病家系女性の主観的な心の健康度について検討する。今回収集した

WHO SUBI を用いての内容については投稿論文作成中である。

#### 6. 本研究の限界

本研究では 30 名の血友病家系女性たちの主観的な知識の有無や認識の程度、自身の症状について尋ねており、血液凝固活性値や、正確な月経量等について確認しているわけではなく科学的な根拠は乏しい。また、一般女性との違いについては調査していない。しかし、女性本人自身が自分自身についてどうとらえているかを把握することは重要と考える。今後は、一般女性にも同様の質問調査を実施して、比較検討を続けていく。

#### 7. 参考 / 引用文献

Babul-Hirji R. *ed.* 2007 All About Carriers A Guide for Carriers of Hemophilia A and B Canadian Hemophilia Society

Beeton K, Neal D, Watson T and Lee C.A. 2007 Parents of children with haemophilia – a transforming experience. *Haemophilia* 13,570-579

白幡聡 (編) 2012 血友病の基礎と臨床 医療ジャーナル社

稲葉浩 2012 血友病の遺伝と保因者診断 血友病の基礎と臨床 医療ジャーナル社

福井弘 中宏之 西村卓也 松本雅彦 吉岡章 他 血友病 A の出生前診断

平成 9 年度厚生省心身障害研究「小児慢性疾患のトータルケアに関する研究」

Lee C.A. *et al.* 2006 The obstetric and gynaecological management of women with inherited bleeding disorders – review with guidelines produced by a taskforce of UK Haemophilia Centre Doctor's Organization.

松尾陽子 2012 保因者と周産期のケア 血友病の基礎と臨床 医療ジャーナル社

Mauser-Bunschoten E.P. 2008 Symptomatic carriers of hemophilia, *Treatment of Hemophilia* No.46



血友病保因者の遺伝に関する支援課題の検討  
—テキストマイニングによるインタビューデータ分析の試み—

板垣貴志 （株式会社アクセライト）  
廣瀬直紀 （東京大学医学部健康総合科学科）

## 要旨

血友病児の子育てには様々な課題が存在しており、その子育ての直接の担い手となる母親には長期に渡る心身への負担が懸念される。そこで本調査では血友病児を持つ母親に半構造化インタビューを行い、得られたテキストデータをテキストマイニングにより分析した。その結果、人間関係においては医師や学校の先生、夫の存在が母親に強い影響を与えていることが示唆され、また母親にとって児の結婚や就職が児の自立に繋がることとして重要視されていること、児の痛みや出血が母親と児の日常生活に大きな影響を与えていることが示唆された。血友病児を持つ母親の支援方法を構築するうえで、これらの点を重視した具体的な支援策を検討していくことが必要である。今後、焦点を母親自身に向けたインタビューガイドを作成しテキストマイニングの辞書ファイルを構築していくことで、個人レベルでのニーズがより明らかになり、一人一人のニーズに即した支援が可能になると考えられた。

## 目的

血友病児への子育ては、その母親が直接の担い手となることが多い。一般的な子育てに加えて、血友病児の子育てには、医療・教育・社会関係の脆弱性や、就労・結婚などの将来への不安など、特有の課題が存在しており、そのため母親が長期に渡り心身への負担を抱えることが懸念される。血友病家系の母親に対する支援の必要性は示唆されているものの、そのニーズの所在や支援の方向性、準備性に応じた適切な支援方法などを明らかにするための研究は十分とは言い難い。

そこで今回の調査では血友病児を持つ母親へ半構造化面接によるインタビューを行い、テキストマイニングを用いてデータを分析することで、血友病家系の母親の支援課題を明らかにし、支援方法を検討することを目的とした。

## 方法

機縁法により血友病児を持つ母親に調査協力を依頼し、得られたインタビューデータをテキストマイニングにより分析した。調査期間は平成 21 年 5 月から 11 月、データ収集方法は半構造化面接によるインタビュー調査である。インタビュー対象は 29 名であった。うち 18 名が薬害 HIV 感染被害者の児をもつものであった。

テキストマイニングはデータ中の単語や文節の出現頻度や共出現の相関、出現傾向などを分析する、文字列を対象としたデータマイニングのことであり、分析前にテキストデータの

加工が必要である。そのためインタビューデータの逐語録を話者ごとに区分し、話者交代の際に一つの単位の区切りとすることで文節を 1 つの分析単位とした。なお、今回の分析では血友病児を持つ母親の語りを対象としているため、インタビュアーの語りは分析から除外した。

その後、テキストマイニングのソフトウェアとして IBM SPSS Text Analytics for Surveys4 を使い、テキストデータを形態素解析にかけ、適切な言語処理になるよう辞書ファイルを作成した。辞書ファイル作成の方法としては出現頻度 4 以下のキーワードは辞書ファイル作成の対象外とし、また“中学”と“中学校”といった類義語は“中学校”として 1 つのキーワードとして分析されるようにまとめ、さらに意味をなさない語（そ、うい）や返事（うん、ああ）、指示代名詞（そう言う、あの、その）といった不要語を除外した。

また、後述の人間関係の関連分析のために人間関係を表すキーワードをカテゴリにまとめ、〈私〉、〈子供〉、〈子供の友達〉、〈血友病の子供〉、〈夫〉、〈家族〉、〈親戚〉、〈血友病〉、〈病気〉、〈患者会〉、〈医療従事者〉、〈学校の先生〉、〈子供のパートナー〉のカテゴリを作成した。各カテゴリの構成キーワードは表 6 に記載した。以上の手順で辞書ファイルの作成の後、以下の 4 つの分析を行った。

### 1. キーワード出現頻度の分析

キーワードの出現数は、会話の関心の所在を量的に表現する一つの指標として扱うことができる。全データのキーワードの出現頻度を上位 30 位まで抽出した。その際、指示代名詞、副詞は分析の対象外とした。

### 2. 感性分析

感性分析では、文章中に含まれる、人間の心の快適・不快を表明している部分や、その心の動きによって生じた行動を報告している部分を抽出することができる。感性タイプはテキスト分析パッケージにある

Sentiments.tap を用いて定義されている辞書による。各キーワードをポジティブカテゴリ、ネガティブカテゴリに振り分け、それぞれのカテゴリにおけるキーワードの出現頻度を分析した。

### 3. 係り受け分析

係り受け分析では、単語が語られる前後の文脈を考慮した分類・分析を行うことができる。

| ID | 年代  | 職業   | 子人数 | うち、血友病児人数 | 子同居状況 | 血友病の重症度 |
|----|-----|------|-----|-----------|-------|---------|
| 1  | 50代 | 自営業  | 2   | 1         | 別居    | 不明      |
| 3  | 60代 | 自営業  | 2   | 1         | 同居    | 中等度     |
| 4  | 50代 | 常勤   | 3   | 2         | 同居    | 重度      |
| 5  | 60代 | 自営業  | 2   | 1         | 同居    | 重度      |
| 6  | 70代 | 専業主婦 | 2   | 2         | 同居    | 中等度     |
| 7  | 50代 | パート  | 3   | 2         | 同居    | 重度      |
| 8  | 60代 | 専業主婦 | 2   | 1         | 別居    | 中等度     |
| 9  | 50代 | 常勤   | 3   | 2         | 同居    | 重度      |
| 10 | 50代 | 自営業  | 2   | 1         | 別居    | 重度      |
| 11 | 70代 | 専業主婦 | 3   | 2         | 同居    | 中等度     |
| 12 | 50代 | 専業主婦 | 2   | 1         | 別居    | 不明      |
| 13 | 80代 | 自営業  | 2   | 1         | 別居    | 中等度     |
| 14 | 60代 | 自営業  | 3   | 1         | 同居    | 重度      |
| 15 | 50代 | 専業主婦 | 3   | 1         | 別居    | 中等度     |
| 16 | 50代 | 自営業  | 7   | 4         | 不明    | 不明      |
| 17 | 50代 | 専業主婦 | 2   | 1         | 同居    | 不明      |
| 18 | 50代 | 専業主婦 | 2   | 1         | 同居    | 中等度     |
| 19 | 40代 | 自営業  | 1   | 1         | 別居    | 重度      |
| 20 | 60代 | 専業主婦 | 2   | 1         | 同居    | 重度      |
| 21 | 40代 | パート  | 2   | 1         | 同居    | 重度      |
| 22 | 40代 | 常勤   | 3   | 1         | 同居    | 重度      |
| 23 | 50代 | 常勤   | 2   | 1         | 同居    | 中等度     |
| 24 | 40代 | パート  | 1   | 1         | 同居    | 重度      |
| 25 | 40代 | 専業主婦 | 2   | 1         | 同居    | 重度      |
| 26 | 30代 | パート  | 2   | 1         | 同居    | 重度      |
| 27 | 60代 | パート  | 2   | 1         | 同居    | 中等度     |
| 28 | 60代 | パート  | 2   | 1         | 同居    | 重度      |
| 29 | 60代 | 専業主婦 | 2   | 1         | 別居    | 重度      |
| 30 | 70代 | 専業主婦 | 2   | 1         | 同居    | 中等度     |

表 1. インタビュー対象者の属性と特徴

ここでは、“できる”というキーワードに着目し、“できる”に係っているキーワードのうち出現頻度が 3 回以上のものを抽出した。

#### 4.人間関係の関連分析

〈私〉というカテゴリを中心にして人間関係を表す各カテゴリとの関連を分析した。この分析により、〈私〉にとって重要な人間関係が、共起する出現数として観測することが出来る。

### 結果

#### 1. インタビュー対象者の属性と特徴

インタビュー対象者の年代、職業、子どもの数、同居状況、血友病の重症度は表 1 の通りであった。

#### 2. キーワード出現頻度の分析

出現頻度 30 位までのキーワードと、それぞれの出現頻度数は以下のようになった。人間関係に関連する用語と病気に関連する用語が上位に入ることが確認された。

| 順位 | キーワード | 頻度   | 順位 | キーワード | 頻度  | 順位 | キーワード | 頻度  |
|----|-------|------|----|-------|-----|----|-------|-----|
| 1  | いう    | 1085 | 11 | いる    | 230 | 21 | できる   | 119 |
| 2  | ない    | 632  | 12 | 先生    | 211 | 22 | 病気    | 117 |
| 3  | ある    | 534  | 13 | いい    | 192 | 23 | 聞く    | 115 |
| 4  | 思う    | 496  | 14 | 病院    | 191 | 24 | 感じる   | 114 |
| 5  | 私     | 477  | 15 | 分かる   | 181 | 25 | 子供    | 113 |
| 6  | 行く    | 376  | 16 | くる    | 180 | 26 | 血友病   | 108 |
| 7  | はいる   | 270  | 17 | 自分    | 173 | 27 | 本人    | 106 |
| 8  | 子     | 235  | 18 | うち    | 149 | 28 | 話     | 97  |
| 8  | やる    | 235  | 19 | 母     | 144 | 29 | すごい   | 95  |
| 10 | なる    | 232  | 20 | 出る    | 122 | 30 | 注射    | 94  |

表 2. キーワード出現頻度上位 30 位

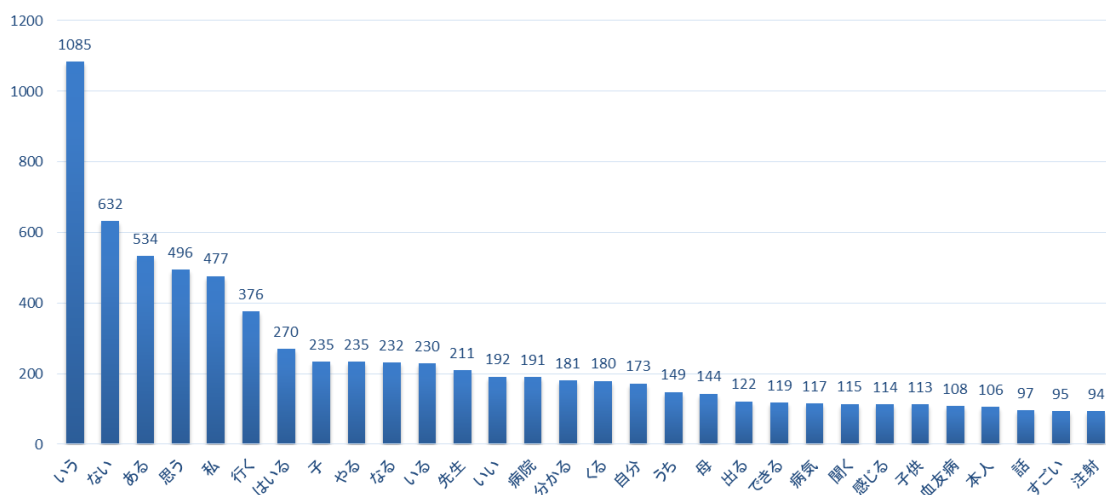


図 1. キーワード出現頻度上位 30 位

### 3.感性分析

ポジティブカテゴリ、ネガティブカテゴリにおけるキーワードと出現頻度は以下のようになった。ポジティブカテゴリでは、「結婚」「大丈夫」が上位に入り、主に児の様子を表すと思われる用語がランクインした。ネガティブカテゴリでは、病気に関連する用語が上位にランクインし、一般的なネガティブキーワードをのぞけば、「痛い」「出血」「死ぬ」「入院」「腫れて」などがランクインしたことが特徴的であった。

| 順位 | キーワード   | 頻度 |
|----|---------|----|
| 1  | 結婚      | 36 |
| 2  | 大丈夫     | 32 |
| 3  | 買う      | 16 |
| 4  | 元気      | 14 |
| 5  | 若い      | 11 |
| 5  | 良い      | 11 |
| 7  | よかった    | 9  |
| 7  | 遊ぶ      | 9  |
| 7  | ありがたい   | 9  |
| 10 | 大丈夫だ    | 7  |
| 11 | 優しい     | 6  |
| 11 | 遊んで     | 6  |
| 11 | 楽しい     | 6  |
| 11 | ありがとう   | 6  |
| 11 | 元気で     | 6  |
| 16 | 良かった    | 5  |
| 16 | きちんと    | 5  |
| 16 | 活発      | 5  |
| 16 | 遊び      | 5  |
| 16 | かなって    | 5  |
| 21 | 明るい     | 4  |
| 21 | きっちり    | 4  |
| 21 | 大丈夫です   | 4  |
| 21 | かわいい    | 4  |
| 21 | 面白い     | 4  |
| 21 | うれしい    | 4  |
| 21 | ありがたかった | 4  |
| 21 | 好きで     | 4  |

表3.ポジティブカテゴリキーワード出現頻度  
出現頻度

| 順位 | キーワード  | 頻度 |
|----|--------|----|
| 1  | あんまり   | 84 |
| 2  | 悪い     | 51 |
| 3  | 痛い     | 48 |
| 4  | 出血     | 42 |
| 5  | だめ     | 28 |
| 6  | しょうがない | 24 |
| 7  | まずい    | 20 |
| 8  | 死ぬ     | 19 |
| 9  | 入院     | 18 |
| 10 | 心配     | 17 |
| 11 | 無理     | 16 |
| 11 | どうしよう  | 16 |
| 13 | 大変だった  | 15 |
| 13 | おかしい   | 15 |
| 13 | 困る     | 15 |
| 16 | 嫌      | 13 |
| 17 | 申し訳ない  | 12 |
| 18 | かって    | 11 |
| 18 | 腫れて    | 11 |
| 18 | すみません  | 11 |
| 18 | 怒る     | 11 |
| 22 | 大変でした  | 10 |

表4.ネガティブカテゴリキーワード

#### 4.係り受け分析

“できる”というキーワードに係っているキーワードと出現頻度は表5のようになった。「仕事」「友達」「彼女」「結婚」など、児の自立に関連するキーワードが抽出されたと考えられる。

| キーワード  | 頻度 |
|--------|----|
| 仕事する   | 8  |
| 友達     | 3  |
| 彼女     | 3  |
| 検査する   | 3  |
| 私      | 3  |
| 結婚する   | 3  |
| 自分     | 3  |
| 自己注射する | 3  |

表5.係り受け分析 “できる” キーワード出現

なお、以下の文節は“できる”というキーワードにどのように他のキーワードが係っているかということの例である。

|  |             |
|--|-------------|
| <p>そうですね。だって結婚は出来ないと思ってたんです、ずっと。今はあまりそうも思わないけど、子ども産めるかどうか分からない、産んでる人はいるみたいなのですが。ただやっぱり「テーマは自立」というか。自立して食べていけるようにならないといけないというのは思ったし、その為には勉強もちゃんとしなきゃいけないというのは思ったけど。</p>   |             |
| <p>次男の方はスムーズに、高校時代から幼なじみだったから、病気のことも分かるし。彼女は知らないわけよね。全然知らない土地だから、分からないわけ、病気のことも分からなかったし。ただ好きで一緒になって、あとでこういうのがばれて、嫌だったから、それでずっと反対してきたわけ。でも、最後、折れるしかない。あと、彼女を説得するしかないから、やったんだけど、自分がやっていくって言うから、それならということで結婚させた。本当に二人まで入れなかったですよ。絶対駄目だって。一番困ったのがこれでしたね。あと、まだTがいるから、みんないい彼女がいてくれると、幸いだけど。人は分からないですね。</p> | <p>子の自立</p> |
| <p>そうですね。ちゃんと仕事をするように、就職すればいいと思いますが、この期に及んで、私が何かにしたって手伝えるものじゃないんで、それは任せていますが。仕事が、就職ができて、もし結婚とか、そういうのもできれば、それなりにいいなと思いますけど、それは無理かもしれないから（笑）。</p>  |             |

表 6.係り受け参照例

## 5. 人間関係の関連分析

〈私〉カテゴリと人間関係を表す各カテゴリの関連を分析した結果を表 7 に示した。なお、棒グラフは選択%を示し、〈私〉カテゴリが含まれた全ての文節の中で、それぞれのカテゴリがどれだけ共出現しているかという%を表す。例えば〈私〉カテゴリが含まれる文節が 464 件あり、その 464 件の文節の中で〈医療従事者〉カテゴリが共出現しているものは 31 件あるため、選択%は  $[31/464 \times 100 = 6.7\%]$  と計算される。

平成 26 年度 厚生労働科学研究費補助金（エイズ対策研究事業）  
 「薬害 HIV 感染被害者・家族等の現状からみた、血友病に係わる今後の課題及び課題克服への支援研究」

| カテゴリ     | 棒グラフ | 選択%   | 回答者 |
|----------|------|-------|-----|
| 医療従事者    |      | 6.7   | 31  |
| 子供       |      | 21.6  | 100 |
| 夫        |      | 12.9  | 60  |
| 子供のパートナー |      | 1.1   | 5   |
| 子供の友達    |      | 2.4   | 11  |
| 親戚       |      | 2.6   | 12  |
| 家族       |      | 2.4   | 11  |
| 血友病の子供   |      | 6.5   | 30  |
| 私        |      | 100.0 | 464 |
| 学校の先生    |      | 1.3   | 6   |
| 病気       |      | 13.8  | 64  |
| 患者会      |      | 1.1   | 5   |
| 血友病      |      | 7.1   | 33  |

表 7. カテゴリ共出現度

人間関係の共出現の様子を可視化した Web 図を以下に示す。点の大きさがカテゴリに入るキーワードの出現数を、カテゴリ間の線の太さは共出現の頻度の高さを表している。

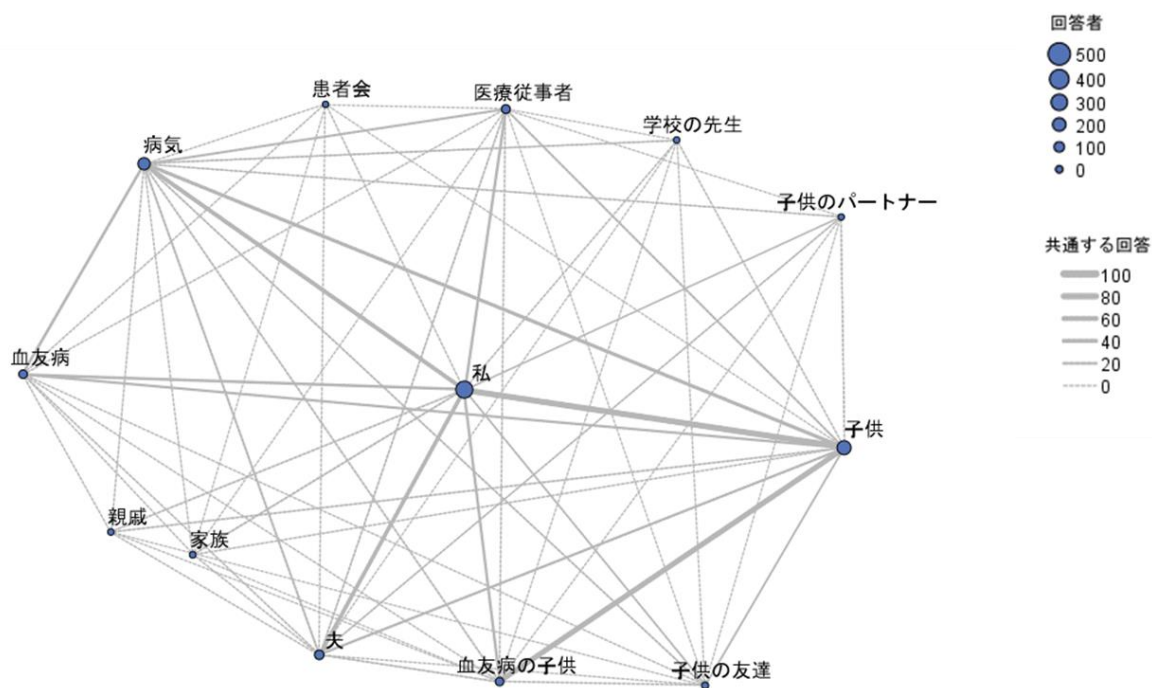


図 2. カテゴリ関連 Web 図

各カテゴリを構成するキーワードは表 8 のように設定した。

| カテゴリ名    | カテゴリを構成するキーワード   |
|----------|--|
| 私        | 私、私のこと、わたしのほう  |
| 子供       | 兄のほう、兄ちゃんのほう、次男、弟のほう、兄弟、長女、兄ちゃんのこと、長男、娘のほう、兄ちゃんの時、息子、娘、妹、姉のところ、弟、息子のこと、三男、兄、姉妹、あっちこっち、次女、姉、兄貴のほう |
| 子供の友達    | 友達、同級生   |
| 血友病の子供   | 本人   |
| 夫        | 夫、うちの人、旦那のほう、主人のほう、主人、父、父親、主人の方  |
| 家族       | 我が家、家庭、家族  |
| 親戚       | 親族、いとこ、親戚、めいっ子   |
| 血友病      | 血友病  |
| 病気       | 鼻血、内出血する、出血する、保因者、症状、血液、患者、病気する  |
| 患者会      | 患者会  |
| 医療従事者    | 小児科の先生、t先生、担当医、m先生、y先生、助産師、先生自体、看護師、医者、先生のところ、m先生のところ  |
| 学校の先生    | 担任、小学校の先生、先生の方、大学の先生、学校の先生   |
| 子供のパートナー | 彼女、嫁   |

表 8. カテゴリ構成キーワード

## 考察

### 1. 出現頻度の分析

キーワードの出現頻度を分析した結果、人間関係を表すキーワードとしては“先生”が最頻出であった。さらにインタビューデータを参照したところ、“先生”というキーワードは医師もしくは学校の先生を示すことが多かった。血友病は一生のあいだ医療ケアが必要な病気であり、さらに専門医も限られているため、担当医との間に長期間に渡って密着した関係を築く必要がある。また、学校の先生は血友病児が日常生活の中で長い時間を過ごす学校という組織の責任者であり、出血や自己注射の際の対応、体育や修学旅行などの学校行事への参加について母親と十分な意思疎通を行う必要のある職種である。このような理由から医師および学校の先生という職種は血友病を持つ母親に強い影響を与えていることが考察され、これらの職種との間に信頼できる関係性を築くことが母親の支援につながると考えられる。

### 2. 感性分析、係り受け分析

感性分析を行った結果、ポジティブカテゴリにおいては“結婚”が最頻出のキーワードであり、また係り受け分析を行った結果、“できる”というポジティブなキーワードに係るキーワードとして“仕事する”、“友達”、“彼女”、“結婚する”といったキーワードが高頻度で現れていた。『そうですね。だって結婚はできないと思ってたんです、ずっと。今はあまり



そうも思わないけど、子どもも産めるかどうか分からない、産んでる人はいるみたいなのですけど。ただやっぱり「テーマは自立」というか。自立して食べていけるようにならないといけないというのは思ったし、その為には勉強もちゃんとしなきゃいけないというのは思ったけど。』という語りから読み取れるように、児の就労、友達や恋人の獲得、結婚は児の自立に繋がることとして捉えられており、母親が望んでいるものと考えられる。このことから、血友病児の就労や人間関係構築、結婚に対して具体的な支援を行うことが、彼らの自立につながり、その結果として母親の支援にも繋がるのではないかと考えられる。また、ネガティブカテゴリにおける頻出語としては“あんまり”、“悪い”というような一般的なキーワードを除けば、“痛い”や“出血”といった血友病に関連するキーワードが高い頻度で現れていた。これらのキーワードについては『あのね、とにかく痛い、痛いって言って。止まるまでは待つてなきゃいけないわけよね。止める術がないから。夜も昼も痛まれてねえ。』や『だってやっぱり、もう出血ですよ。とにかく出血のたびに病院に走るっていう。』などの語りがあり、痛みや出血は血友病児に直接的に身体的苦痛を与えるだけでなく、潜在的な要因として血友病児の活動範囲を制限したり、出血時に緊急対応が必要になったりすることで母親の行動や不安にも影響を与えている様子が見えてくる。母親の支援方法を構築するためには痛みや出血によりどのように日常が阻害されるかということを検討する必要があることが示唆された。

### 3.人間関係の関連分析

〈私〉カテゴリと人間関係を表す各カテゴリの関連を分析したところ、〈子供〉カテゴリとの関連が一番大きいことから、血友病児と母親との間でのいわゆる母子密着の特徴が本分析で可視化されたと考えられる。次いで〈夫〉カテゴリとの間の関連が大きかったことについて検討する。『夫婦で一緒に子育てができたから、そんなに悲痛な思いをしないで育てていかれたから、よかったのかなって、今は思いますね。主人が本当に協力的じゃなかったら、私に恨みがましいことでも言うような人だったら、私もちょっと分からないですけどね。だから、幸せだったなとは思いますがね。』という語りで見られるように、血友病児の子育てをするうえで夫は母親と共にその中心を担う重要な存在である。夫は母親にとって子育てをするうえでの相談相手として支えになりうるだけでなく、通院の際の送り迎えなどを行い、具体的に母親の助けとなることができる。逆に、夫からの支援が不十分であれば、それだけ母親の苦労は増加すると考えられる。母親、夫、子どもの三者関係を検討し、その関係性を支援するという視点をもつことで、母親の支援方法の具体的な構築に繋がると考えられる。

以上の分析により、母親に強い影響を与えることが示唆されるものとして、人間関係では医師や学校の先生、夫との関係が、児に関係することとしてはポジティブカテゴリでは結婚や就職が、ネガティブカテゴリでは出血、病気の痛みなどが挙げられた。テキストマイニングにおいては不要語や類義語の処理、カテゴリの作成などのデータ加工のプロセスが得られ

る結果に大きく影響する。そのため、これらのテーマごとにインタビューを整理し適切なデータセットを構築することで、洗練されたデータ処理を行うことができると考えられる。今回、〈私〉カテゴリと他のカテゴリの共出現の関連性を分析することで、母親を取り巻く人間関係が明らかになったが、より具体的に母親の支援策を検討するためには、母親がどのようなことに困難やストレスを感じているのかを一層明らかにしていく必要がある。焦点を母親本人に置いたインタビューにより得られたデータを、テキストマイニングを用いた係り受け分析や、共出現の相関関係分析を実施することで、母親支援を検討するためのさらなる知見を得ることが可能になると示唆された。

<参考文献>内田治, 川島敦子, 磯崎幸子. (2012). SPSS によるテキストマイニング入門. 東京: オーム社.

この冊子は、平成 26 年度 厚生労働科学研究費補助金（エイズ対策研究事業）

「血友病とその治療に伴う合併症の克服に関する研究」（代表：坂田 洋一）のうち、「薬害 HIV 感染被害者・家族等の現状からみた、血友病に係わる今後の課題及び課題克服への支援研究」（分担研究者：柿沼章子）の研究成果をふまえて制作されました。なお、本調査は（社福）はばたき福祉事業団倫理審査委員会<sup>\*</sup>に諮り、承認を得た上で、研究を実施しました。（※承認年月日：平成 21 年 4 月 12 日、承認番号：1）

本調査に協力くださった皆様、ならびにご執筆にご協力くださった方々に、心より感謝します。

---

平成 26 年度 厚生労働科学研究費補助金（エイズ対策研究事業）

血友病とその治療に伴う合併症の克服に関する研究（代表：坂田 洋一）

「薬害 HIV 感染被害者・家族等の現状からみた、血友病に係わる今後の課題及び課題克服への支援研究」（分担研究者：柿沼章子）

## **「薬害 HIV 感染被害者・家族等の現状からみた、血友病に係わる今後の課題及び課題克服への支援研究」報告書**

発行：2015 年 3 月

代表著者 柿沼章子（社会福祉法人はばたき福祉事業団）

---

この報告書に対する全てのお問い合わせ先

〒162-0814

東京都新宿区新小川町 9 番 20 号

新小川町ビル 5 階

社会福祉法人 はばたき福祉事業団 柿沼 章子

TEL：03-5228-1200 & FAX：03-5227-7126

Mail：info@habataki.gr.jp

