

令和 4 年 6 月 13 日現在

機関番号：32643

研究種目：基盤研究(C) (一般)

研究期間：2018～2021

課題番号：18K11905

研究課題名(和文)性分化疾患女性のセクシャル・アイデンティティ再構築にむけた看護支援モデルの提案

研究課題名(英文)Proposal of a nursing support model for reconstructing the sexual identity in women with disorders of sex development

研究代表者

石見 和世 (Iwami, Kazuyo)

帝京大学・医療技術学部・准教授

研究者番号：90784843

交付決定額(研究期間全体)：(直接経費) 3,200,000円

研究成果の概要(和文)：性分化疾患を伴う原発性無月経女性への看護支援モデルの提案に向けて、患者の性自認を含めた心理的な揺れが適応へと向かうプロセスと構造を質的帰納的に明らかにした。性分化疾患を伴う原発性無月経女性が、体質に囚われることなく生きていく過程は「女性である確信を取り戻すプロセス」であり、ジェンダー・アイデンティティ再構築のためには適切で専門的な看護支援が必要である。また、家族(特に親)への病気に関する教育と心理的な支援にも早期から取り組むことが重要であり、看護師を含めた医療従事者の果たす役割について示唆を得た。

研究成果の学術的意義や社会的意義

性分化疾患を伴う原発性無月経の女性は、女性としてのライフステージにおいて様々な葛藤や混乱を抱くが、それらを乗り越えていくプロセスと構造を明らかにすることは患者自身の適応を促進することが期待できると共に、医療従事者の支援ガイドラインの基礎となり得る。

研究成果の概要(英文)：We considered proposing a nursing support model for patients with primary amenorrhea associated with disorders of sex development (DSD). we qualitatively and inductively clarified the process and structure of psychological fluctuations, including the patient's gender identity, toward adaptation. Among women, the process of becoming free from obsession over their condition after receiving a diagnosis of primary amenorrhea associated with DSD, is characterized by "regaining confidence in being a woman." Early education and support for families (particularly parents) are also required. Therefore appropriate and professional nursing support is needed for the reconstruction of gender identity.

研究分野：小児看護学

キーワード：性分化疾患 性自認 ジェンダー・アイデンティティ 原発性無月経 病気説明 女性

1. 研究開始当初の背景

性分化疾患(Disorders of sex development : DSD)は、染色体、性腺、あるいは解剖学的な性が非典型的な状態と定義され、出生時の非典型的な外性器を中核症状とする¹⁾。広義には第二次性徴の発来異常も含まれ、性染色体や不妊症などから本人と家族は心身面で長期にわたり QOL の課題が生じる。

日本では、非典型的な外性器を有する新生児・乳児期における「性分化疾患初期対応の手引き」²⁾、学童期は「性分化疾患対応の手引き(小児期)」³⁾が作成され、診断・治療の医学的側面に加えて、親への心理的ケアへの指針が示されている。その一方で思春期以降の患者へのフォローアップは、ガイドラインや手引きがないうえに、チーム医療体制も整っていないため患者対応が立ち遅れている⁴⁾。

2. 研究の目的

DSD を伴う原発性無月経女性への看護支援モデルの提案に向け患者側の体験解明を行う。

- (1) DSD を伴う原発性無月経女性が適応形成に向かうプロセスを明らかにする。
- (2) DSD を伴う原発性無月経女性が受けた病気説明(情報の全面開示)の実態を明らかにする。

3. 研究の方法

25~50 歳代の病名告知を受けている DSD を伴う原発性無月経女性を対象とし、セルフグループのリーダーまたは専門機関の医師を通じて参加者の募集をかけた。研究参加者に半構造化面接を同一研究者が実施した。インタビュー項目は、病気を気にしだした時点から気持ちに折り合いを付けていったプロセスについて、体験や感情および相互関係などを自由に語ってもらい逐語録を作成した。

(1) 適応形成に向かうプロセスについては、修正版グラウンデッド・セオリー・アプローチ(M-GTA)を用いて継続的比較分析を行った。

(2) 患者が受けた病気説明(情報の全面開示)の実態調査については、逐語録から研究テーマである、確定診断および説明された時期、説明を受けた時の理解や受け止めについて語られた部分を丁寧に読み心理的状況を分類した。

データ信頼性と妥当性の確保のため、分析過程において一部の研究参加者と研究仲介の医師から内容確認を受けた。倫理的配慮として、教育機関の倫理審査委員会で承認を受け、医療機関 2 施設の審査も受け実施した。

4. 研究成果

(1) 研究参加者 20 名の平均年齢は 33.6 歳(±9.09)であった。疾患は、完全型アンドロゲン不応症 10 名、46,XY DSD 5 名、部分型アンドロゲン不応症 1 名、卵精巢性 DSD 1 名、混合性性腺異形成 1 名、フレイジャー症候群 1 名、46,XX DSD (子宮卵巣術後) 1 名であった。性腺摘除術は 15 名が受けており、XY 染色体を 19/20 名が有していたが、性自認は全員が女性であった。雇用形態は、パートタイム労働者 2 名を除き正社員として就業していた。自分の体質が気になりだした時期は、小学 5,6 年生から中学生までが 15 名(75.0%)と多くを占めていた。初めての受診は、幼少期に診断を受けた 9 名(45.0%)以外は、初潮未発来の理由が 9 名(45.0%)で受診動機となっていた(表 1)。

表 1 研究参加者の概要 (n=20)

概要	n (%) or mean ± SD
年代	33.6 ± 9.09 (range 25-51)
20代	9(45.0)
30代	5(25.0)
40代	5(25.0)
50代	1(5.0)
疾患	
完全型アンドロゲン不応症	10(50.0)
46,XY DSD	5(25.0)
部分型アンドロゲン不応症	1(5.0)
卵精巢性 DSD	1(5.0)
混合性性腺異形成	1(5.0)
フレイジャー症候群	1(5.0)
46,XX DSD	1(5.0)
性自認(女性)	20(100.0)
性腺摘除術	15(75.0)
既婚者	4(20.0)
雇用形態	
正社員	18(90.0)
パートタイム労働者	2(10.0)
体が気になりだした時期	
小学生5,6年	5(25.0)
中学生	10(50.0)
高校生	3(15.0)
大学生	1(5.0)
記憶なし	1(5.0)
受診の動機	
幼少期に診断	9(45.0)
初潮未発来	9(45.0)
その他(恋愛)	2(10.0)

(2)M-GTAによる分析の結果、21概念が生成された。そのうち20概念から6カテゴリー【】と1サブカテゴリー《》，カテゴリーと同等の説明力を持つ1概念 が生成された。

原発性無月経女性が、体質を知ってから、その体質に囚われることなく生きていこうとするプロセスは「女性である確信を取り戻すプロセス」であった。思春期以降に【にじり寄る疑念】が生じてくるが、家族や医療者の何も教えてくれない態度から自ら尋ねることを恐れ、平静を装いながらも【孤独さと混迷】に陥っていく。奮起し【サポートリソースによる自分解明】へ向かい、《有能なリソース探求》へと動き出す。ここで「良質な出会い」のサポートを得ることと、社会生活において【社会共生へのコントロール】を図っていくことで、現実の自己身体との共生を続けながら【異質感からの解放】がなされ心身の折り合いへと向かっていく。

DSDを伴う原発性無月経女性の適応形成に向かうプロセスにおいて、コアカテゴリーは【サポートリソースによる自分解明】であった。《有能なリソース探求》において「良質な出会い」と「良質な出会いがない」ことが適応形成に向かうプロセスの分岐点となっていた。「良質な出会い」とはDSD診療の経験や知識のあるチーム医療を行っている医療機関やピアサポートグループを指す。正確で詳細な医学知識の提供、またピアサポートグループの存在は、DSDをもつ人々にとって孤立感の克服と心理的な支援に貢献することは複数の報告と一致する見解であった。また、女性である自認の揺らぎから「確信」がゆるぎないものになるためにも、周囲からの支持的な支援と女性である承認を長期的に繰り返し受けることで、体質(病気)に囚われずに生きていく適応形成へと向かうプロセスを後押しすることが明らかとなった。また、家族(特に親)への病気に関する教育と心理的な支援にも早期から取り組むことが重要であることの示唆も得た。よって、ジェンダー・アイデンティティ再構築のためには適切で専門的な支援が求められ、看護師の果たす役割として位置づけられた。

(3)研究対象者の語りから病気説明された時期については、「適切だった」と答えた適切群は10名(50.0%)と、「遅かった」と答えた遅い群は10名(50.0%)の2群に分かれた。なお早すぎたタイミングと答えた人はいなかった。

確定診断は、就学前に8名がなされていた一方で、患者本人への説明年齢は、最小15歳、最高48歳、平均23.6歳(±8.01)であった。説明された時の感情や認識は、「ショック・驚き・不安」を感じたと13名(65.5%)が回答していたが、その回答者の6名(46.2%)は「納得や安堵」の感情を同時に抱いていた。全体的に説明時に肯定的感情を抱いた人は13名(65.5%)であった。また、説明時に「性自認の混乱」をきたした人は13名(65.5%)おり、病気の説明を行うことで性自認の混乱を招いていた(表2)。

表2 病気説明の時期や感情の概要 (n=20)

概要	n (%) or mean ± SD
確定診断の時期(年齢)	(range 幼少期-30)
園児以下(6)	8(40.0)
小学生(7-12)	0(0.0)
中学生(13-15)	1(5.0)
高校生以上(16)	11(55.0)
FD年齢	23.6 ± 8.01 (range 15-48)
15-<20	8(40.0)
20-<25	7(35.0)
25-<30	1(5.0)
30	4(20.0)
FD時期の満足度	
適切	10(50.0)
遅	10(50.0)
説明時の同伴者(親)(無し)	13(65.0)
FD時の感情・認識	
ショック・驚き・不安	13(65.0)
そのうち「納得・安堵感」	6(46.2)
肯定的感情 (腑に落ちた・ホッとした・線が繋がったなど)	13(65.0)
FDで性自認の混乱(有り)	13(65.0)

DSDを伴う原発性無月経女性は、第二次性徴の身体的変化が全てもしくは一部生じないことから、自分の体に対して何らかの不安や疑念を抱いている。また思春期は、アイデンティティの形成過程にあり自分と向き合い自己理解を深めていく発達的特徴を有する。そのため、自分の体のことを正しく知りたいという欲求は自然と高まる。そのような感情をもつ対象に、速やかに確定診断を行い事実を隠すことなく伝えることは、説明直後はショックを受けても結果的には説明の実施時期の適正性を実感することが明らかとなった。

DSDは性の問題というアイデンティティの根幹にかかわる事柄を取り扱うため⁴⁾、医師は言葉

やタイミングを慎重に検討していると推察できる。言い換えれば、慎重になりすぎる故に、患者への説明遅延が生じている可能性がある。また、親の希望を優先して説明の実施時期が遅延していた。これには、親の不安や、病気の正しい理解の不足等が関係している⁵⁾。親への支援を行うことが、将来的な子どもの病気の理解や受け入れにもつながっていく。

(4) 臨床への応用について以下に示す。

彼女らは、早い時期から自身の体質へ疑問や違和感を抱くため、家族（特に親）への病気に関する教育と心理的な支援にも早期から取り組むことが必要である。

医療従事者は、彼女らへ正確な診断と全面開示に向けた情報や知識の提供が求められるが、性の問題というアイデンティティの根幹にかかわる事柄を扱うことを十分に認識し、配慮ある対応と計画的かつ継続した心理的な支援に取り組むことが求められる。

彼女らの多くは、性自認は女性であるので、診断後も女性であることはゆるぎないことを医療従事者は繰り返し伝える必要がある。

病院における性自認等に関係する相談専門窓口の設置や、社会全体の偏見をなくし多様な性のありかたについて理解を深めるための啓蒙活動を病院主体で広く実施することが望まれる。

希望時はピアとのコンタクトを紹介するとともに、医療従事者はピアサポートグループとの連携を行う。

(5) 結論として以下の知見が得られた。

DSDを伴う原発性無月経女性が、体質を知ってから、その体質に囚われることなく生きていこうとするプロセスは「女性である確信を取り戻すプロセス」であった。医療従事者は、彼女たちへ女性であることはゆるぎないことを明確に繰り返し伝えていくことが重要である。

このプロセスのコアカテゴリーは【サポートリソースによる自分解明】であった。《有能なりソース探求》において「良質な出会い」と「良質な出会いがない」ことが適応形成に向かうプロセスの分岐点であった。

DSDを伴う原発性無月経女性は、FD直後は「ショック・驚き・不安」を感じ、性自認の混乱をきたしていた。このことより、FD時だけではなく、継続的かつ計画的に知識面や心理面への支援を患者および親へ行う必要性が示唆された。

DSD診療の経験や知識のあるチーム医療を行っている医療機関やピアサポートグループといった「良質な出会い」が、女性である確信を導き適応形成に向かうプロセスを後押しすることが明らかとなった。そのため医療従事者は、DSDに関する知識や経験を備え、長期的なビジョンをもって対象の発達段階に応じた心理社会的な支援を行う移行期医療（transition）に取り組むことが効果的であり、看護師の役割としても示された。また、ピアサポートグループと連携した支援がより効果的であることが示唆された。

< 引用文献 >

- 1) Hughes IA, Houk C, Ahmed SF, et al. Consensus statement on management of intersex disorders. Arch Dis Child. 2006, 91(3), p. 554-563.
- 2) 日本小児内分泌学会性分化委員会．”性分化疾患初期対応の手引き”．2011，http://jspe.umin.jp/medical/files/seibunkamanual_2011.1.pdf，(参照 2021-12-07)．
- 3) 日本小児内分泌学会性分化委員会．”性分化疾患対応の手引き（小児期）Ver.7”．2014，http://jspe.umin.jp/files/dsd_ver7.pdf，(参照 2022-01-20)．
- 4) 位田忍、川井正信、松井太、石見和世、江口奈美（編）．みんなで考える性分化疾患 本人と養育者と医療者のために．診断と治療社，2019．
- 5) Bennecke, E., Werner-Rosen, K., Thyen, U., Kleinemeier, E., Lux, A., Jurgensen, M., et al. (2015). Subjective need for psychological support (PsySupp) in parents of children and adolescents with disorders of sex development (dsd). Eur J Pediatr. 174(10), 1287-97.

5. 主な発表論文等

〔雑誌論文〕 計4件（うち査読付論文 3件/うち国際共著 0件/うちオープンアクセス 1件）

1. 著者名 Kazuyo Iwami , Tomoko Sumiyoshi , Shinobu Ida	4. 巻 13
2. 論文標題 Psychological changes and process of adaptation in women with primary amenorrhea associated with disorders of sex development	5. 発行年 2021年
3. 雑誌名 Global Journal of Health Science	6. 最初と最後の頁 1-13
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） 10.5539/gjhs.v13n11p1	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている（また、その予定である）	国際共著 -
1. 著者名 Kazuyo Iwami , Tomoko Sumiyoshi	4. 巻 31
2. 論文標題 Ethical issues regarding full disclosure to women with primary amenorrhea associated with disorders of sex development in Japan	5. 発行年 2021年
3. 雑誌名 Eubios Journal of Asian and International Bioethics	6. 最初と最後の頁 260-266
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） なし	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -
1. 著者名 松井太、石見和世、位田忍、松本富美	4. 巻 12
2. 論文標題 性分化疾患を持つ子供の自立支援	5. 発行年 2020年
3. 雑誌名 泌尿器科	6. 最初と最後の頁 179 - 183
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） なし	査読の有無 無
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -
1. 著者名 石見和世 菅田純子 位田忍	4. 巻 77
2. 論文標題 1施設における先天性副腎過形成女児への病気説明の実態調査	5. 発行年 2018年
3. 雑誌名 小児保健研究	6. 最初と最後の頁 347 ~ 354
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） なし	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

〔学会発表〕 計8件（うち招待講演 0件 / うち国際学会 1件）

1. 発表者名 石見和世、住吉智子
2. 発表標題 性分化疾患に伴う原発性無月経女性の性自認再構築プロセスへの看護支援
3. 学会等名 第41回日本看護科学学会学術集会
4. 発表年 2021年

1. 発表者名 石見和世、住吉智子
2. 発表標題 性分化疾患に伴う原発性無月経女性が医療受診で受けた体験
3. 学会等名 第66回小児保健学会
4. 発表年 2019年

1. 発表者名 石見和世、石井玲、佐藤真理、長谷川行洋
2. 発表標題 7例のアンドロゲン受容体遺伝子（AR）変異症例における疾患説明に関する調査
3. 学会等名 第53回日本小児内分泌学会学術集会
4. 発表年 2019年

1. 発表者名 Kazuyo Iwami , Tomoko Sumiyoshi
2. 発表標題 The Psychological, Social Adaptation of Women with Primary Amenorrhea Accompanying DSD in Japan
3. 学会等名 The 6th International Research Conference of World Academy of Nursing Science（国際学会）
4. 発表年 2020年

1. 発表者名 石見和世
2. 発表標題 「小児看護専門看護師が果たす役割」 性分化疾患の患者・家族への看護アプローチ
3. 学会等名 日本心理臨床学会第37回大会
4. 発表年 2018年

1. 発表者名 石見和世、川井正信、菅田純子、伊藤衣里、恵谷ゆり、松井太、松本富美、位田忍
2. 発表標題 思春期時期に診断された46,XY DSD女児とその親への治療意思決定支援：小児看護専門看護師の視点から
3. 学会等名 第52回日本小児内分泌学会学術集会
4. 発表年 2018年

1. 発表者名 位田忍、庄司保子、恵谷ゆり、石見和世、菅田純子、伊藤衣里、松井太、松本富美、川井正信
2. 発表標題 性分化疾患 (Disorder of Sex Development:DSD) 移行外来の現状と課題の検討
3. 学会等名 第52回日本小児内分泌学会学術集会
4. 発表年 2018年

1. 発表者名 石見和世、住吉智子
2. 発表標題 性分化疾患に伴う原発性無月経女性が医療受診で受けた体験
3. 学会等名 第66回日本小児保健協会学術集会
4. 発表年 2019年

〔図書〕 計1件

1. 著者名 位田忍 川井正信 松井太 石見和世 江口奈美	4. 発行年 2019年
2. 出版社 診断と治療社	5. 総ページ数 111
3. 書名 みんなで考える性分化疾患 - 本人と養育者と医療者のために -	

〔産業財産権〕

〔その他〕

-

6. 研究組織

	氏名 (ローマ字氏名) (研究者番号)	所属研究機関・部局・職 (機関番号)	備考
研究分担者	住吉 智子 (Sumiyoshi Tomoko) (50293238)	新潟大学・医歯学系・教授 (13101)	
研究分担者	位田 忍 (Ida Shinobu) (80177500)	地方独立行政法人大阪府立病院機構大阪母子医療センター (研究所)・その他部局等・臨床検査科・主任部長 (84408)	
研究分担者	永島 すえみ (Nagashima Suemi) (70310729)	沖縄県立看護大学・保健看護学研究科・特任教授 (28002)	

7. 科研費を使用して開催した国際研究集会

〔国際研究集会〕 計0件

8. 本研究に関連して実施した国際共同研究の実施状況

共同研究相手国	相手方研究機関
---------	---------