

科学研究費助成事業 研究成果報告書

平成 29 年 5 月 29 日現在

機関番号：14401

研究種目：挑戦的萌芽研究

研究期間：2014～2016

課題番号：26590090

研究課題名(和文) 稀少疾患当事者の生活実態についての聞き取り調査

研究課題名(英文) Interview survey of rare disease patients on their illness experience and life problems

研究代表者

山中 浩司 (Yamanaka, Hiroshi)

大阪大学・人間科学研究科・教授

研究者番号：40230510

交付決定額(研究期間全体)：(直接経費) 2,700,000円

研究成果の概要(和文)：研究期間中、稀少疾患当事者53件(医療費公費負担対象疾患(インタビュー実施時)25件、2)その他稀少疾患20件、3)未診断8件)に対して56回のインタビュー調査を実施した。うち、40件については、2017年3月に、病の経験と社会的認知に関する11項目について中間報告書(162頁)をまとめ、関係者に送付し、概要を協力団体のウェブサイトに掲載した。40件の聞き取りデータ(のべ76時間)から、稀少疾患患者における「社会的宙づり状態liminality」を明らかにし、成果の一部については、国内外の学会で報告を行った。また、こうした状態の中核をなす就労問題について、関係者から意見聴取も行った。

研究成果の概要(英文)：We have interviewed on 53 rare disease or rare symptom cases with patients and their family members (25 cases were covered by national policy for intractable diseases, 20 cases were not covered when interviewed, 8 cases were not yet diagnosed). Based on 40 cases among them we have drawn up an interim report on 11 core issues rare disease patients face in their illness experiences. The report was sent to the participants and the general summary was published on the website of our partner support group (RDnet). The analysis of the data revealed the patients' "social liminality" in various situation such as workplace, school, public policy or family life. We reported this finding at national and overseas academic conferences. As to the issue of work and employment of the patients which constitutes the core issue of their social liminality we invited several stakeholders on this problem and exchange with them the information and opinions.

研究分野：医療社会学

キーワード：稀少疾患 病の語り 宙づり状態 インタビュー調査

1. 研究開始当初の背景

本研究は、元来希少疾患支援団体 SORD の代表者からの依頼により開始されたものであるが、当時、希少疾患を支援する団体は欧米においては、NORD や EURODIS など巨大な組織が形成され、患者の状況についてもこうした団体や個別の研究者によってさまざまな報告 (EURODIS 2009, Caputo 2014) が出ていた。しかしながら我が国については、元来公害病の患者対策として作られた難病政策に関連する特定の疾患の患者団体とその連合体のみが存在し、希少疾患全体についての研究や調査はきわめて少なく、とりわけ難病対策の対象から外れている患者や家族が置かれた状況についてはほとんど知られていなかった。また、欧米においても、希少疾患患者の支援のための調査事業は多くありながら、患者の個別の事情については、少数の疾患毎の調査がある程度で、社会的な調査研究は稀少であったのが実態である。希少疾患患者のケースは、根治療法がなく、症状が慢性的である点や生活への影響が甚大である点で、「病の語り」研究の主要な対象である慢性疾患患者の特性と、未診断期間が長く医療者や一般社会における認知度が低いという点で、診断の社会学で頻繁にとりあげられるいわゆる「contested illness」患者の特性をもち、病人役割の取得に困難を生じるケースが多い (Barker 2002, Madden & Sim 2006)。医学的な疾病化が十分に行われながら、社会的には疾患としての認知が不十分な希少疾患のケースは、「(医学的) 疾患」と「(社会的) 病気」が異なりうることを示唆し、医療社会学が長らく放置してきた「(社会的に認知される) 病気 sickness」の次元を改めて取り上げる必要性 (Hofmann 2002) を示唆するものである。

2. 研究の目的

本研究は、元来協力関係にあった支援団体 SORD が活動を停止したため、その後は、独立の学術的研究として継続し、主として、社会的にほとんど認知されていない疾患を患うことに起因する当事者の社会的困難が何であるかを明らかにすることを目的としている。困難を想定する社会的シチュエーションとして、職場、学校、行政、家庭、同病者を想定している。

3. 研究の方法

調査対象者：希少疾患 (1 万人当たり患者数おおむね 5 人未満程度) またはその疑いのある患者と家族について、支援団体を通じて協力の申し出を受ける。医療費公費負担対象疾患、その他の希少疾患、希少な症状を呈するが確定していない、それぞれ各 16 ケース程度 (ただし、制度の変更や診断が長期化する場合もあり、あくまでも目安)。当初は、難病政策における医療費公費負担対象である特定疾患と、研究奨励分野疾患を区分していたが、研究期間中に制度が変更となったため、当事者にとって医療費の公費負担がある場

合にのみ「公費負担対象疾患」とし、それ以外については「その他希少疾患」とした。調査は、半構造化インタビュー調査を基本とし、必要に応じてフォローアップ調査も行う。インタビューは、主として、1. 医療、2. 日常生活、3. 学校、4. 職場、5. 経済、6. 同病者、7. 家族、8. 公的サポート、9. 遺伝の問題について、対象者の経験を聞き取る。

インタビューは原則としてすべて録音し、機密遵守についての契約を交わした業者において文字起こしを行いテキストデータとして GTA にもとづく分析を行う。

4. 研究成果

研究期間中に調査を終了した対象は、53 件 (56 回) で、内訳は、医療費公費負担対象疾患 (インタビュー実施時) 25 件、2) その他希少疾患 20 件、3) 未診断 8 件であった。うち、40 件については、2017 年 3 月に、病の経験と社会的認知に関係する 11 項目 (1. 病気の発見と診断、2. 医療、3. 生活、4. 学校、5. 経済、6. 就業・職場、7. 仲間、8. 家族、9. 公的サポート、10. 遺伝、11. 病気と社会) について中間報告書 (162 頁) をまとめ、関係者に送付し、概要を協力団体 (RDneT) のウェブサイトに掲載した。40 件の聞き取りデータ (のべ 76 時間) から、希少疾患患者における「社会的宙づり状態 liminality」を明らかにし、成果の一部については、国内外の学会で報告を行った。また、こうした状態の中核をなす就労問題について、関係者から意見聴取も行った。

以下中間報告書に概要をまとめた主要な項目について概略を説明する。

[病気の診断と発見]

受診を開始してから確定診断にいたるまでの期間は、1 年以内が 40%、1-5 年が 27%、5 年以上が 33% であり、これはイギリスの希少疾患支援団体の調査報告 (Limb, Nutt & Sen, 2010) とほぼ同じ状況であり、確定診断にたどり着く道程が長いことが明らかである。また、確定診断を受けたケースにおいても、ほとんどのケースでは 10 分程度の簡単な説明だけで、場合によっては、英文の論文を手渡されるだけというようなこともあり、医療者側の知識や情報の不足、対応方針のなさを露呈している。予後情報や他の患者の情報がほとんどないことが影響していると思われるが、将来の予測がつかない慢性疾患の告知としてはきわめて問題含みであると考えられる。また、明らかに医学的に見て異常な状態であるが、確定診断にいたらないケースも多く、こうしたケースでは、診断の不在が「病気」の不在証明のように作用し、当事者は、精神科へ回されたり、詐病を疑われるという事態に陥る。

[医療]

6 割程度のケースでは治療ないし対症療法的な対応が行われているが、当事者が疾患についての医療情報を取得するのは主としてインターネットや同病の当事者であることや、

かかっている医療機関について信頼感が強い当事者が少数である点から、医療機関の対応や体制が十分ではないことが理解される。

[経済]

医療費が公費負担となっているケースとそうでないケースでは、経済的負担に大きな格差が存在し、特に、疾患がまれであるために保険診療においてさえ問題を抱えるケースでは状況はきわめて深刻であった。

[就業・職場]

職場における病気の理解については大半のケースで困難が指摘され、当事者に対する道徳的非難を引き起こすケースもまれではない。(社会的)病気が急性疾患をモデルとしている点や、社会的認知が顕著な疾患(ガン、糖尿病など)との安易な比較が背景にあると考えられる。

[仲間]

同じ病気がないし類似の病気の当事者とのつながりは、1)情報取得経路、2)精神的・情緒的支え、3)社会的活動の共有といった重要な機能を持ち、希少疾患患者にとっては確保すべき重要なつながりの1つであるが、残念ながらこうしたつながりを仲介する役割を医療機関も公的機関もほとんど担っておらず、インターネットなどの情報リテラシーがなければ当事者には厳しい環境である。

[家族・遺伝]

希少疾患の多くは遺伝的素因との関連が深く、必然的に親子関係に影響が及ぶ。今回の調査では、遺伝的素因をめぐる親子間の責任や因果に関する意識は親から子どもへの罪責感を確認されたが、子どもから親への問責意識は認められず非対称の関係であると推定される。家族間のサポートについては、配偶者の役割が小さいことも特徴的な事態と考えられ、このことは疾患の社会的認知と関連すると推定する。遺伝的素因についての医療機関の対応についても、ほとんどの当事者が遺伝カウンセリングを受けていない状況や、医療者側からの不適切な遺伝病についての説明やアドバイスもあり、問題が多い領域と考えられる。

[公的サポート]

医療費公費負担や障害者医療などの公的サポートについては、制度へのアクセス(手続き)疾患名が前提の制度、制度の変更・解釈についての不安などについて不満が強く、特に診断が確定しない当事者からは、疾患名ありきの制度設計について強い不満が聞かれた。既存の相談センターなどのサポート体制も疾患名リストを前提に動いているように見え、今回の調査では当事者にとって機能しているケースはほとんどなかった。

引用文献

EURORDIS. (2009) The Voice of 12,000 Patients. Experiences and Expectations of Rare Disease Patients on Diagnosis and Care in Europe (Available at: <http://www.eurordis.org/>)

Caputo A. (2014) Exploring quality of life in

Italian patients with rare disease: a computer-aided content analysis of illness stories, *Psychology, Health & Medicine*, 19 (2): 211-221.

Barker K., Self-Help Literature and the making of an illness identity: The case of Fibromyalgia Syndrome (FMS), *Social Problems*, Vol. 49, No. 3 (August 2002), pp. 279-300.

Madden, S. & Si, J. (2006) Creating meaning in fibromyalgia syndrome, *Social Science & Medicine* 63:2962-2973.

Hofmann, B. (2002) On the Triad Disease, Illness and Sickness, *Journal of Medicine and Philosophy*, 27(6): 651-673.

Limb L, Nutt S & Sen A (2010) Experiences of Rare Diseases: An Insight from Patients and Families, Rare Disease UK. (Available at: <http://www.raredisease.org.uk/our-work/>)

5. 主な発表論文等

(研究代表者、研究分担者及び連携研究者には下線)

[雑誌論文](計 1件)

岩江荘介(2014)「国際的動向：欧米と中国の動き(研究、医療、制度、患者意識など)」『こころの科学』増刊号：58-63

[学会発表](計 3件)

山中浩司・野島那津子・樋口麻里(2015)「希少疾患と社会的困難」日本保健医療社会学会、2015.5.16、首都大学東京

H.Yamanaka & N. Nojima, Disease, illness and Sickness: Three dimensions of illness experiences in the cases of rare disease patients, BSA Medical Sociology Group Annual Conference, 2015.9.10, York University (UK).

H.Yamanaka, N. Nojima & M. Higuchi, Signifiant without signifie: Diagnostic language and illness experience in rare disease patients, 3rd ISA Forum, Jul. 10-14. Vienna (Austria)

[図書](計 1件)

伊藤公雄・山中浩司編(2016)『とまどう男たち 生き方編』大阪大学出版会

[産業財産権]

出願状況(計 0件)

名称：
発明者：
権利者：
種類：
番号：
出願年月日：
国内外の別：

取得状況(計 0件)

名称：
発明者：
権利者：
種類：
番号：
取得年月日：
国内外の別：

〔その他〕

ホームページ等
協力団体ホームページ内の研究支援事業
<https://rdnet.jp/act/research/>

6. 研究組織

(1) 研究代表者

山中 浩司 (YAMANAKA, Hiroshi)
大阪大学・人間科学研究科・教授
研究者番号：40230510

(2) 研究分担者

岩江 荘介 (IWAE, Sosuke)
宮崎大学・医学部・准教授
研究者番号：80569228

(3) 連携研究者

()

研究者番号：

(4) 研究協力者

香取 久之 (KATORI, Hisayuki)
特定非営利活動法人 希少難病ネットつ
ながる 理事長

野島 那津子 (NOJIMA, Natsuko)
日本学術振興会特別研究員 (東京大学)

樋口 麻里 (HIGUCHI, Mari)
大阪大学・人間科学研究科・助教