

令和 6 年 5 月 14 日現在

機関番号：17102

研究種目：基盤研究(C) (一般)

研究期間：2021～2023

課題番号：21K10937

研究課題名(和文) 排泄障害をもつ女性患者の女性としての生き方を知る

研究課題名(英文) How do female patients with excretory disorders live as women?

研究代表者

宮田 潤子(秋吉潤子)(MIYATA, Junko)

九州大学・医学研究院・講師

研究者番号：20380412

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)：総排泄腔異常症という排泄障害と生殖器の機能障害を有する女性患者らの声を直接聞き、形にすることでピアサポート効果を促進すること、さらに稀少な本疾患の現状に対する認知度を向上することを主たる目的として取り組んだ。アンケートにより患者目線でのニーズや支援の在り方、患者・家族のピアサポートに期待することとその効果について明らかにした。成人患者にインタビューを行った結果を公表し、ロールモデルを提示する。さらに、成人患者ら3名が自らの体験と想いを講演する機会として市民公開講座をハイブリッド形式にて開催した。視聴者である市民や同疾患関係者に強いメッセージを残すとともに報道機関の協力も得られた。

研究成果の学術的意義や社会的意義

本研究の学術的意義としては、支援体制が不十分な稀少難病の総排泄腔異常症において必要な支援の形を明らかにしたことである。その結果を学会、論文、各種会議、報道機関など様々な手段で周知を行い、そこから得られたニーズに対する支援、特に患者らの体験の共有によるポジティブな相互作用、ロールモデルの共有、情報ステーションの作成等の支援を実行しながら、アクションリサーチを進めた。これは、情報不足やロールモデルが不足する稀少難病における患者・家族・支援者に重要な情報提供の推進に繋がり、社会的に意義のある研究成果であると考えられる。

研究成果の概要(英文)：The main objectives of this project were to promote the effect of peer support by giving concrete form to this disease, and to further raise awareness of the current status of this rare disease, by listening directly to the voices of female patients with cloacal abnormalities, which are defecation disorders and reproductive organ dysfunction. Through a questionnaire survey, we clarified the needs from the patient's perspective, the nature of support, the expectations of peer support for patients and their families, and its effects. We conducted interviews with adult patients, analyzed the results qualitatively and inductively, and submitted them to an English journal. The public lecture was held in a hybrid format as an opportunity for three adult patients to share their experiences and thoughts. It left a strong message for the viewers, the citizens and those involved with the disease, and also received cooperation from the media.

研究分野：小児外科

キーワード：総排泄腔遺残 総排泄腔外反症 排泄障害 アクションリサーチ ピアサポート 当事者参加型研究
性交障害 移行期支援

科研費による研究は、研究者の自覚と責任において実施するものです。そのため、研究の実施や研究成果の公表等については、国の要請等に基づくものではなく、その研究成果に関する見解や責任は、研究者個人に帰属します。

1. 研究開始当初の背景

1970年代頃の小児外科黎明期における新生児・小児外科医療は救命を第一の目的として発展してきた。これにより救命率の低かった疾患の数々は飛躍的に救命率が向上し、多くの子どもたちの命が救われてきた。一方、救命により生き長らえたものの、多くの合併症や障がいを抱えて生きる子どもたちが増えることとなった。現在では、救命は当然のことであり、いかに合併症や後遺障がいを残さずに患者を救うか、が大きな課題である。

先天性食道閉鎖症や鎖肛(直腸肛門奇形)などの先天奇形を持って生まれた子どもたちを「普通」の子どもと同じように生活できるようにすることが我々の使命であるが、残念ながら現代医学による機能回復には限界があり、多くの小児患者が機能障害を抱えながら生き続けることを子どもたちに強いることになっている。

なかでも、泌尿生殖器や肛門に奇形を伴う疾患はさまざまな病型があるが、出生直後に排尿・排便路の確保を目的とした手術(人工肛門、膀胱瘻などの造設術)、その後には、病型や合併疾患の程度にもよるが、体重増加後に肛門形成術、尿道形成術、膣形成術などを一期的あるいは多段階的に施行する。手術の難易度は高く、術後に良好なQOLを得られるとは限らない。多くの患者が術後も尿失禁、神経因性膀胱、反復性尿路感染症、便失禁、高度便秘症などの高度な排尿・排便障害に苦しみ、禁制尿路への変更、間欠的自己導尿、毎日の浣腸・腸洗浄、永久人工肛門造設などを併用しながら多くの時間と労力を排泄管理に費やすことになる。膣の形成不全を合併する病型では、自己膣による膣再建が困難で、小腸や結腸を代用した膣再建が必要となることも少なくない。術後、思春期以降になると、膣狭窄による月経血排出路障害や性交障害に悩まされ、薬剤による月経停止や複数回の膣拡張術や再手術なども必要となる¹⁾。このため、新生児期から思春期を経て、成人期に至っても病気が終わらない²⁾。排泄障害(疾患によっては膣機能障害)を抱えて生きるなかで、女性としての自尊心や自己肯定感に傷を負いながら成人に至ることもある。

我々はこのような排泄障害を伴う疾患の術後を生きる女性患者とその母親らとの交流を継続的に行なってきた。そのなかで、彼女らの生活における困難、人生における苦しみなどに関して、多くを語ってもらえる機会を得てきた。身体的な問題を抱えて生きるなかで、月経・恋愛・性交・結婚・妊娠・出産・就学就職等、女性であれば誰もが経験するライフイベントの一つ一つにおいて苦悩に直面する。しかしながら、性の問題も含むデリケートな話は、他人や医療者に打ち明けにくく、表面化しにくく一人で抱え込んでしまいがちである。ピアサポートや情報も不十分であり、孤独感を抱きながら、先の見えない現実に疲弊する。

このような排泄障害を伴いながら生き続ける女性患者の人生の全体像については明らかになっていない。小児外科医療が発展して約50年が経過した。本邦の小児外科医療の黎明期以降に治療を受けて成人に到達し、女性としてのライフイベントを経験した女性患者症例が多く蓄積されたきた。しかしながら、排泄障害を抱えて生き続ける女性の人生の全体像はいまだ明らかになっていない。

2. 研究の目的

本研究の問いは「排泄障害を抱えた女性患者が女性として女性らしく自信をもって生きていくためには」である。総排泄腔遺残症の患者とその家族および本疾患に関わる医療従事者が求める支援の形を明らかにし、支援の均てん化を図る。

総排泄腔遺残症(以下、本疾患)は、胎生期に尿道・膣・直腸が分離不全を来し、排泄孔を一つしか持たない先天的難治性疾患である。発生頻度は6~10万人に1人とされ、女兒のみに発症する稀少な疾患でもある。生涯にわたって高度排泄障害と膣機能障害を抱えて生きる。本疾患は稀少難病であり、情報不足のなか、患者と家族は手探りしながら日々疾患と闘っている。また、本疾患に苦悩しているのは患者・家族のみならず医療従事者にも大きな負担を強いられる。本疾患においては、治療アルゴリズムが整備されておらず、外科的治療の難易度が高く、合併症のリスクも高い。予後に関する情報も少ない。さらに、トランジションの体制が整備されておらず、小児診療科から成人診療科への移行や連携が進まずに、慣れない成人女性患者の診療に困難感を感じている小児専門医師(小児外科・小児泌尿器科)もいる。

3. 研究の方法

【研究方法】

<第一段階>

- ① 本疾患患者が通院していると想定される全国の日本小児外科学会認定施設、日本小児科学会認定施設、日本泌尿器科学会認定施設(合計約2500施設)に「総排泄腔遺残症に関する市民公開講座」(以下、本講座)のオンライン開催についての案内を郵送する。本講座は本疾患患者・家族の他、医療従事者や一般の方も参加対象者と

する。(現在準備を進めており、2020年度内に完了予定)

- ② 本講座終了後にウェブ上で、任意による無記名アンケートを行う。アンケートでは属性(年齢、性別、居住地区、通院頻度、主な診療科)、本疾患に伴う困難について、介入してほしい診療科・職種について、欲しい情報・支援について質問する。
- ③ アンケート結果を解析して、患者・家族、医療従事者の考える支援について検討を行う。
- ④ この結果を医学および看護学に関する学会、論文等で広く周知を行い、支援体制構築の促進に繋げる情報として提供を行う。

<第二段階>

- ① アンケートの結果をもとに、患者・家族が求めている情報を明らかにする。
- ② その結果より、多くの方々が求めている情報を軸とした手記の出版を計画する。
- ③ 研究にご協力いただける患者・家族にご自身の経験、生活の工夫、病気とともに生きる思いなどを中心に記述していただき、それを編集し、出版する。
⇒当初、上記の予定であったが、患者・家族による原稿作成は収集の段階での反応から、難渋することが予想されたため、講演会で講演してもらい、それをWeb配信し、要旨集を発行することで、広く周知する形に変更した。これにより稀少難病のロールモデルが広まり、ピアサポートに比較的消極的な当事者らにもピアサポートの恩恵が広がる一助になると考えた。

4. 研究成果

患者の声を直接聞き、問題点を明らかにすることで、患者目線でのニーズに即した支援の在り方の検討を目的とし、患者・家族と医療者による交流会での意見と本疾患患者に対するインタビュー研究を行った内容より、本疾患の移行期医療における問題点を抽出した。告知、セクシュアリティ、排泄障害とキャリアアップの難しさ、経済的困難、医療情報の不足等が列挙された。問題解決のためには適切な情報提供や情報交換の機会の提供が特に重要と考えた。さらに、Web 市民公開講座参加者に対するアンケート調査を行った。本疾患の患者・家族が感じる困難と問題解決に対するニーズを明らかにすることを目的とした。本疾患患者家族 28 名、本疾患患者 9 名から回答を得た。患者家族が現在感じている困難は排泄の管理と就学に関することが多く、患者本人の感じる困難は排泄・腔の管理の他、仕事やパートナー・医師との関係性といった人間関係の問題を含んでいた。患者は予後・不妊治療・交流会の情報を、患者家族は交流会・予後・セミナー・学会 での取り組みの情報を特に求めている。また、Web 交流会を 3 回開催した。交流会参加者に患者・家族の体験手記の出版での協力を仰ぐとともに、協働で検討を開始した。2021 年 9 月 25 日開催の交流会では難病患者の直面する経済的問題の支援の一助となるよう、難病を持つ FP 兼起業家による働き方・緩和医療保険の講演を開催した。2022 年 3 月 12 日に Web 市民公開講座を開催し、総排泄腔疾患に関する講演と難病ピアサポートに関する講演を開催した。なお、これらの情報は SNS で情報発信を行った。情報ステーションとして「クロアカ net プロジェクト」サイトを立ち上げ、医療情報や患者支援情報の提供の場を作成した。患者の親の会が発足したため、会の情報周知のサポートとして紹介用リーフレットの作成を行った。次年度、全国 2500 以上の施設に配布予定である。

2021 年 2 月と 2022 年 3 月に総排泄腔関連疾患に関するオンライン市民公開講座を開催し、Web 上で無記名アンケート調査を実施し、その結果を解析・検討した。本研究は九州大学倫理審査委員会の許可を得て行った。2021 年は患者 10 名、家族 34 名、2022 年は患者 5 名、家族 14 名より回答が得られた。ピアサポートを希望する人はそれぞれ 9/31/5/12 (名)であった。希望する理由は「病気や治療の情報収集」「病気のことを気軽に話せる友人がほしい」「孤独感の軽減」「心の支え」の他、「自分自身の経験を役立ててほしい」の回答も多かった。一方、ピアサポートを希望しない理由として「人間関係がストレス」「自分のことを知られたくない」など他者との関係構築への不安に関する回答が患者に多かった。ピアサポートによりどのような変化を期待するか/変化があったか、とたずねたところ「治療やケアに前向きになれる/なれた」「孤独感が薄れる/薄れた」「生き方や生活に前向きになれる/なれた」の回答が多かった。一方、「他人と比較して悲しい気持ちになる/なった」という患者の回答も少数あった。ピアサポートの形は、顔が見える交流を希望する回答が多かったが、現在ピアとの繋がりがない患者では、顔を隠しての交流のみを希望する回答もあった。患者、家族ともに多くの方がピアサポートを希望し、その効果を実感していた。ピアと繋がることが稀少難病であるがゆえの孤独感を軽減し、心の支えとなり、治療や生活に前向きになるだけではなく、類似した境遇にある他患者らへの役に立つことで、「病気」というネガティブなものがいくらかでもポジティブなものになりうる可能性も生まれるものである。一方、ピアと繋がることに慎重な患者もおり、患者・家族の体験を書籍出版するという方法は、このような患者に対するピアサポートの一助となりうるかと考え、研究を引き続き続ける方針とした。

ピアサポートに消極的な当事者でも何等かのピアサポートの効果は求められていると考え、どのような形式でのサポートが可能であるか、と考えた。当事者がアクションを起こさなくてもピアによる恩恵が手元に届くような支援が望ましいと考えた。このこと

から、何等かの出版物や一方的に視聴できるような動画などを届けることがサポートの一つになると考え、当初は書籍出版を検討して進めていたが、患者・家族による原稿作成は収集の段階での反応から、難渋することが予想されたため、計画を変更した。成人期に至った患者3名に自らの経験や思いを講演会で講演してもらい、それを現地+Webによるハイブリッド配信を行うこととした。さらに、講演内容については、要旨集とDVDを作成し、後々の後輩患者らが希望した時に情報提供可能な形をつくった。これにより稀少難病のロールモデルが広まり、ピアサポートに比較的消極的な当事者らにもピアサポートの恩恵が広がる一助になると考えた。さらに、講演会は各種報道機関による報道もお願いし、県議会・市議会議員らの視聴も依頼し、支援の手薄な、移行期以降の成人期に至った稀少難病患者らの現状の周知と今後の支援の糸口となる機会提供にも努めた。稀少難病に関わる問題について、これからの医療を担うであろう世代にも周知するため、福岡市教育委員会の後援のもと、福岡市内全小中学校、福岡県内全高等学校、全国の全特別支援学校にも案内周知した。ハイブリッド配信に際しては九州大学病院アジア遠隔医療開発センター (TEMDEC) の技術協力を得るとともに、聴覚障害者のためのリアルタイム字幕提供は九州大学インクルージョン支援推進室の協力により実現した。さらに、総排泄腔遺残患者ら9名にインタビューを行った結果の解析を行った。総排泄腔遺残 (本疾患) 患者は、排泄や性・生殖の機能障害に対し、生涯に亘って管理を要す。思春期以降、成人期に至っても、本疾患に起因する問題は生活ひいては人生に大きな影響を及ぼすがその実態は明らかではない。特にトランジション後の生活実態、当事者の語りに基づいた研究はない。そこで、本疾患とともに生きてきた患者らが、幼少期～成人期に至るまでにどのような人生を送ってきたのかを探求し記述することを目的とした。青年期から成人期に達した本疾患患者ら9名を対象として半構造化インタビューを行い、本疾患に関する体験や思いについて、質的帰納的に分析した。本疾患患者の体験や思いとして、【病気が特別なものではなく”当たり前”だった幼少期】【AYA 世代になって初めて病気の正体を知った】【学校・社会生活の中で尿・便失禁に怯えながら過ごす】【情報や悩みを共有するためにピアと繋がりたい】【病気のことを人に理解してもらうことが難しい】【病気と付き合いにくく上で家族のサポートを必要とする】【病院・医療者との関係性が病気との付き合いを左右する】【心身の苦痛に耐えて腔を管理する】【性交のためではなく”普通の女性”に近づくために造腔したい】【女性としての”負い目”を感じながら生きる】【”終わらない病気”を引き受けて生きる】【経済的に自立して生きるための道を模索する】【成長発達とともに直面する問題が変化する】の13のカテゴリーが生成された。本疾患患者は、幼少期には病気とともにある自分を”当たり前”と感じて過ごしていた。家族コミュニティから、学校や社会のコミュニティに出ることで、他人との違いを認識し、各々の問題に次々に直面する。問題は成長の過程で変化しながら続き、本疾患が”終わらない病気”であることを象徴している。家族コミュニティから自立した対象者は、より多く深い危機と対峙してきた。異性との問題はその中核を成すものである。”普通の女性”に近づき、女性としての”負い目”を払拭するために苦痛を伴う造腔術や腔の管理に挑むなかで医療者の言葉に苛まれてきたことも浮かびあがった。10代～20代前半の患者らと、30代後半以降の患者らではパートナーとの関係性に関する語りの重みが大きく異なっていた。この要因については、①いまだ家族コミュニティが中心であるため、②疾患の情報が比較的多くあるため恋愛に抑制的となっている、③現在の日本の若者に特徴的な「恋愛ばなれ」を反映している、などが考えられるが、これについては今後の追跡調査を要すると考える。成人期に至っても新たな苦悩の出現に翻弄され、経時的に問題がより深刻になる本疾患患者のQOL=人生の質を検討するには、“終わらない病気”とともにある女性の生活・体験・思いを深く知ることが求められ、30代後半の患者らは今後もロールモデルのいない道の人生を歩んでいくことになり、この点も今後追跡調査を要する点であると考え。このような報告を行うことは情報の少ない稀少難病において後輩患者らや家族らにとって貴重なロールモデルの提供となりうるため非常に有意義な成果であると考え。この結果は現在英文雑誌に投稿中である。

5. 主な発表論文等

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

1. 著者名 林下里見、濱田裕子、宮田潤子、藤田紋佳、森口晴美、伊崎智子、加藤聖子、田口智章	4. 巻 28
2. 論文標題 総排泄腔遺残症患者の体験 継続的・包括的支援体制の構築に向けて	5. 発行年 2021年
3. 雑誌名 木村看護教育振興財団看護研究集録	6. 最初と最後の頁 84-111
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 -

〔学会発表〕 計8件（うち招待講演 1件/うち国際学会 0件）

1. 発表者名 宮田潤子、小幡聡、桐野浩輔、木下義晶、田尻達郎、田口智章
2. 発表標題 総排泄腔遺残症での適切な支援構築に向けた患者と医師のニーズに関するアンケート調査
3. 学会等名 第59回日本小児外科学会学術集会
4. 発表年 2022年

1. 発表者名 宮田潤子
2. 発表標題 総排泄腔遺残症患者に対するピアサポートの促進と その有用性に関する研究
3. 学会等名 第29回ヘルスリサーチフォーラム
4. 発表年 2022年

1. 発表者名 宮田潤子、小幡聡、永田公二、日野祐子、木下義晶、田口智章、田尻達郎
2. 発表標題 総排泄腔遺残・総排泄腔外反症のピアサポートに関する患者・家族へのアンケート調査
3. 学会等名 第60回日本小児外科学会学術集会
4. 発表年 2023年

1. 発表者名 宮田 潤子, 濱田 裕子, 藤田 紋佳, 森口 晴美, 川田 紀美子, 小幡 聡, 桐野 浩輔, 林下 里見, 三原 優希, 植木 慎悟, 木下 義晶, 加藤 聖子, 田尻 達郎, 田口 智章
2. 発表標題 Web会議システムの利用による総排泄腔遺残症/外反症におけるピアサポートの新たな可能性
3. 学会等名 第31回日本小児外科QOL研究会
4. 発表年 2021年

1. 発表者名 三原 優希, 濱田 裕子, 宮田 潤子, 藤田 紋佳, 森口 晴美, 田口 智章, 伊崎 智子
2. 発表標題 総排泄腔遺残症の子どもを持つ母親の体験
3. 学会等名 第68回 日本小児保健協会学術集会
4. 発表年 2021年

1. 発表者名 宮田潤子、小幡 聡、桐野浩輔、入江敬子、大森淳子、伊崎智子、木下義晶、松浦俊治、田口智章
2. 発表標題 患者の語りからみえた総排泄腔遺残症のトランジション医療問題と包括的支援策
3. 学会等名 第58回日本小児外科学会学術集会
4. 発表年 2021年

1. 発表者名 宮田潤子、濱田裕子、林下里見、藤田紋佳、伊崎智子、小幡聡、近藤琢也、福田篤久、川久保尚徳、永田公二、玉城昭彦、馬庭淳之介、高橋良彰、松浦俊治、田口智章、田尻達郎
2. 発表標題 総排泄腔遺残とともに生きる女性の体験とは～当事者の語りによる質的記述的研究～
3. 学会等名 第61回日本小児外科学会学術集会
4. 発表年 2024年

1. 発表者名 宮田潤子
2. 発表標題 「総排泄腔遺残」とともに生きる女性たちのサポートに必要なことは？
3. 学会等名 第59回日本小児腎臓病学会学術集会（招待講演）
4. 発表年 2024年

〔図書〕 計0件

〔産業財産権〕

〔その他〕

<p>クローアカnetプロジェクト https://pedsurg.kyushu-u.ac.jp/cloaca/ クローアカnetプロジェクト 総排泄腔遺残症・総排泄腔外反症（厚労科研田口班） http://pedsurg.kyushu-u.ac.jp/cloaca/ 総排泄腔疾患の会（facebook） https://www.facebook.com/profile.php?id=100069049209315 総排泄腔疾患の会（Instagram） https://www.instagram.com/tsunagaruwawawa/ 総排泄腔疾患の会（X） https://twitter.com/tsunagaruwawawa</p>

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	濱田 裕子 (HAMADA Yuko) (60285541)	第一薬科大学・看護学部・教授 (37107)	
研究分担者	川田 紀美子 (KAWATA Kimiko) (70709592)	香川大学・医学部・教授 (16201)	
研究分担者	藤田 紋佳 (FUJITA Ayaka) (10437791)	第一薬科大学・看護学部・特別研究員 (37107)	

6. 研究組織（つづき）

	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	森口 晴美 (MORIGUCHI Harumi) (40835477)	九州大学・医学研究院・助教 (17102)	
研究分担者	小幡 聡 (OBATA Satoshi) (30710975)	九州大学・大学病院・助教 (17102)	
研究分担者	永田 公二 (NAGATA Kouji) (20419568)	九州大学・大学病院・講師 (17102)	
研究分担者	桐野 浩輔 (KIRINO Kousuke) (00621707)	九州大学・大学病院・助教 (17102)	
研究分担者	植木 慎悟 (UEKI Shingo) (10779218)	九州大学・医学研究院・准教授 (17102)	

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