

令和 5 年 6 月 7 日現在

機関番号：14401

研究種目：基盤研究(C) (一般)

研究期間：2017～2022

課題番号：17K04126

研究課題名(和文) 希少疾患当事者の社会的宙づり状態に関する研究

研究課題名(英文) Study on social liminality of rare disease patients

研究代表者

山中 浩司 (Yamanaka, Hiroshi)

大阪大学・大学院人間科学研究科・教授

研究者番号：40230510

交付決定額(研究期間全体)：(直接経費) 3,300,000円

研究成果の概要(和文)：3つのグループの希少疾患患者の語りは主として三つの領域に属する6つのテーマで構成されることを確認した。1)社会制度の領域：「不合理な医療」と「硬直した社会制度」、2)コミュニケーションの領域：「説明の困難・理解の欠如」と「強いられた自力探索と偶然の効用」、3)社会カテゴリーの領域：「カテゴリーの不在」と「スティグマと道徳」というテーマで構成される。これらテーマの背後に、「社会的宙吊り」と呼ぶべき状況が存在すると推定された。また、公費負担のケース、支援のない希少疾患のケース、病名未確定のケースについては、後者になるにしたがい、上記の領域における社会的困難の程度はより深刻になる傾向を認めた。

研究成果の学術的意義や社会的意義

国内では、希少疾患という枠組みを用いた聞き取り調査についてほとんど報告がなく、一般に知られていない疾患をかかえる当事者の社会的困難について情報を発信する価値は高い。欧米における患者の状態との比較も可能となり、文化的な影響を検証することも可能である。しかし、本研究の学術上の貢献は、医療社会学における「病人役割」論と「道徳的スティグマ」との関係を検討できる点にあると考える。希少疾患当事者の分析は、医療行動をとり、当事者が十分に病人役割を受容しても、周囲の社会はそれを許容しないという事態を明らかにする。また、疾患イメージの空白が、当事者に対する道徳的スティグマと結びつく問題を提起する。

研究成果の概要(英文)：From the analysis of the obtained interview data with rare diseases we identified three domains of the social difficulties they faced which include 6 topics. 1) social system: "incomprehensible health care" and "inflexible social system", 2) communication: "difficult explanation and lack of understanding" and "forced self-help and serendipity", 3) social categories: "absence of categories" and "moral condemnation and stigma". Behind these topics we postulate a social condition that can be characterized as social liminality. Among the people with the diseases supported by any governmental policy, the people with the diseases without such supports and the people with the undiagnosed conditions, there is a gradient in their social difficulties in which the latter cases are facing more serious sufferings.

研究分野：医療社会学

キーワード：希少疾患 社会的宙吊り状態 病人役割 病の語り 疾患イメージ

様式 C - 19、F - 19 - 1、Z - 19 (共通)

1. 研究開始当初の背景

希少疾患当事者の置かれた社会的状況や生活の実態については、これまで、『電子入力された臨床調査個人票に基づく特定疾患治療研究医療受給者調査報告書』(主任研究者 稲葉 裕、2005)、『難病のある人の雇用管理の課題と雇用支援のあり方に関する研究』(障害者職業総合センター、2011)などの調査がある。いずれも、国の難病政策に関わる指定難病や患者団体が対象であり、政策からはずれる希少疾患については含まれていない。欧米においては、約 7000 種類あると言われている希少疾患全体(そのうち厚生労働省の指定難病は 304 種類)に共通する問題として、医療・診断へのアクセス困難、社会的理解の不足、就業の困難、社会的支援の不足などさまざまな問題が指摘されており(Limb et al. 2010, Caputo 2014)、当事者団体も、NORD や EURODIS などの巨大な上部団体を形成して活発なロビー活動を繰り広げているのが現状である。日本においてはこうした運動はほとんど存在せず、難病政策に組み入れられていない疾患当事者のほとんどは孤立状態にあると推測される。難病指定されておらず当事者団体もほとんどないような疾患については、社会学的研究はおろか医学研究さえ存在しない状況である。疾患別に調査を実施しては 7000 疾患ある当事者の状況を明らかにするのに、何十年も要する。したがって、希少疾患全体に共通する問題を洗い出し、疾患名にかかわらない社会的支援の体制を構築することは急務といえる。応募者が、本研究前に実施した聞き取り調査においては、希少疾患当事者は、主として医療と就業の領域において、一般慢性疾患当事者とは異なった困難に遭遇しており、その状態は人類学者の言う境界状態ないし宙づり状態(liminality)にあると推定している。当事者の主観的経験における「病い illness」が疑いようがなく、また、医学的にも一定の「疾患 disease」の地位を得るにもかかわらず、社会的には「病気 sickness」としての地位を認められず、そのために、社会的地位や役割の空隙に落ち込む状況である。病気のため通常の活動が困難となり、社会的地位や役割を失うが、しかし、急性疾患の場合のように「病人役割」に移行することもなく、また一般慢性疾患の場合のように「寛解者」(たとえば、がん生存者や糖尿病患者)の役割を取得することも困難となる。このことはまた当事者に対して独特の道徳的スティグマを付与する効果をもち、周囲からの道徳的非難を招くこともある。こうした状況は、一方では、医学が社会に及ぼす影響の限界を示しており、他方では、医学とは独立に社会が承認する「病気 sickness」の領域が存在し、高度に医療化された現代社会でもこの領域が強固であることを示すものとする。これらが本研究を開始する当初の状況である。

国内では、希少疾患という枠組みを用いた聞き取り調査についてこれまでほとんど報告がなく、一般に知られていない疾患をかかえる当事者の社会的困難について情報を発信する価値はきわめて高い。この分野で先行している欧米における患者の状態との比較も可能となり、文化的な影響を検証することも可能である。しかし、本研究の学術上の貢献は、医療社会学における「病人役割」論と「道徳的スティグマ」との関係を検討できる点にあると考える。周知のようにパーソナルの「病人役割」論は、当事者の医療行動の問題と扱われ、当事者がこの役割を受容するかどうかの問題とされてきた。この枠組みは医療者の視点から当事者の行動を分析するものと認識され、1980 年代以降、「病いの語り」研究に代表される慢性疾患当事者の主観的経験に焦点をあてた研究においては、次第に忘却されてきた。しかしながら、2000 年以降、社会的に認知されない疾患当事者の分析が登場するにしたがい、当事者の行動ではなく、社会の認知枠組みの問題として「病人役割」がクローズアップされ、診断の社会的機能についても関心が集まることとなった。希少疾患当事者の分析は、医療行動をとり、当事者が十分に病人役割を受容しても、周囲の社会はそれを許容しないという事態を明らかにする。いわば、「病人役割」を本来の社会的次元に引き戻す機能をもつと考えられる。また、疾患イメージの空白ないし当事者と社会における「病人役割」の齟齬が、当事者に対する道徳的スティグマと結びつく問題を提起すると考える。主要な文献：Limb L, Nutt S & Sen A (2010) Experiences of Rare Diseases: An Insight from Patients and Families, Rare Disease UK; 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; Huyard, C. (2009) How did uncommon disorders.

2. 研究の目的

本研究は、希少疾患当事者においてこうした宙づり状態が発生する状況を、社会カテゴリーとステレオタイプの側面から詳細に検討し、病気の社会的次元の重要性をクローズアップしたいと考える。「病の語り」は、従来、患者の主観的な経験にフォーカスすると考えられてきたが、本研究においては、患者の語りに向けられる社会について考えたい。この意味で、(患者の経験における)「病い illness」でも、(医学的に規定される)「疾患 disease」でもなく、(社会に規定される)「病気 sickness」とは何か焦点をあてたい。

3. 研究の方法

研究計画を開示し協力者を募集している NPO 法人「希少難病ネットつながる」(<https://rdnet.jp/>)において引き続き協力者の募集を行い、追加調査 25 件、フォローアップ調査 5 件を実施した。調査は、1 件当たり 2 時間程度の深層インタビュー方式で、文字起こしを行った上で、インフォーマントの語りに現れる社会カテゴリーとステレオタイプを中心に GTA により分析を行った。なお、当初は、国の難病政策や小児慢性特定疾患などの制度によって経済的にカバーされている（医療費の公費負担が認められている）ケース、カバーされていない希少疾患のケース、病名未確定のケース、それぞれ 30 件を目標として、すでに実施されていた 50 件のインタビュー調査に 40 件を追加し分析を行う予定であったが、提携する支援団体に申し出のあった参加者にはやや偏りがあり、最終的に、公費負担が認められているケース 28 件、そうでない希少疾患 29 件、病名未確定 15 件となった。また、がん患者の語りとの比較から疾患の社会的地位による影響を検証することを予定していたが、利用できる資料と本研究で得られた資料の性質の違いから今回は比較を断念せざるを得なくなった。したがって、本研究では、得られた 75 件の調査データを、インフォーマントの語りに表れる社会カテゴリーとステレオタイプを中心に分析を進めることとした。

4. 研究成果

インタビューデータのオープンコーディングから、インフォーマントの語りが主として三つの領域に属する 6 つのテーマで構成されることを確認した。第一の領域は、様々な社会制度の領域であり、「不合理な医療」と「硬直した社会制度」、第二の領域は、コミュニケーションの領域であり、「説明の困難・理解の欠如」と「強いられた自力探索と偶然の効用」、第三の領域は社会カテゴリーの領域であり、「カテゴリーの不在」と「スティグマと道徳」というテーマが存在する。さらに、これらテーマの背後に、「社会的宙吊り」と呼ぶべき状況が存在すると推定され、医療社会学におけるこの状況のこれまでの分析（慢性疾患、論争のある病など）と比較を行った。また、こうしたテーマは、公費負担が認められているケース、そうでない希少疾患のケース、病名未確定のケース、それぞれにおいて強度の違いはあれ認められるが、後者になるにしたがい、その程度はより深刻になる傾向を認めた。したがって、公的制度による認知、医学的な認知は、疾患の社会的宙吊り状態に対して一定の効果は認められると考えられるが、しかし、他の一般的疾患（がんや糖尿病など）と比較すれば、おそらくその効果には限界があるものと推測される。今後は、なぜ特定の疾患が特殊な社会的状況に置かれるのかについて、関連する疾患群との比較の中で検討していく予定である。

なお、支援団体との連携などについては、最終年度以降のコロナの影響、提携していた支援団体の代表の死亡などの影響を受け、残念ながら今回は着手することはできなかった。

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 2件/うちオープンアクセス 1件）

1. 著者名 Ogasawara Rie, Yamanaka Hiroshi, Kobayashi Jun, Tomokawa Sachi, Sugita Elli, Hirano Takanori, Kigawa Mika, Nishio Akihiro, Akiyama Takeshi, Nam Eun Woo, Gregorio Ernesto R., Estrada Crystal Amiel M., Thongthien Pimpimon, Kanyasan Kethsana, Devkota Bhimsen, Hun Jeudyla, Ma Yinghua, Yamamoto Beverley Anne	4. 巻 64
2. 論文標題 Status of school health programs in Asia: National policy and implementation	5. 発行年 2022年
3. 雑誌名 Pediatrics International	6. 最初と最後の頁 1-12
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1111/ped.15146	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 該当する

1. 著者名 Iwamoto Kazumasa, Yamamoto Beverley, Ohsawa Isao, Honda Daisuke, Horiuchi Takahiko, Tanaka Akira, Fukunaga Atsushi, Maehara Junichi, Yamashita Kouhei, Akita Tomoyuki, Hide Michihiro	4. 巻 70
2. 論文標題 The diagnosis and treatment of hereditary angioedema patients in Japan: A patient reported outcome survey	5. 発行年 2021年
3. 雑誌名 Allergology International	6. 最初と最後の頁 235 ~ 243
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1016/j.alit.2020.09.008	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 樋口麻里	4. 巻 160
2. 論文標題 「二重負担を受容する有配偶女性の意識の規定要因 全国調査SSP2015を用いた資源の影響の検証」	5. 発行年 2019年
3. 雑誌名 北海道大学文学研究院紀要	6. 最初と最後の頁 97-119
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 Beverley Yamamoto, Hiroshi Yamanaka, Yumi Kimura, Gergely Mohacsi and Rie Ogasawara	4. 巻 なし
2. 論文標題 Social design for health: Ontological vulnerability, life course and planetary health	5. 発行年 2019年
3. 雑誌名 Humanistic futures of learning	6. 最初と最後の頁 91-94
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 オープンアクセスとしている（また、その予定である）	国際共著 該当する

〔学会発表〕 計6件（うち招待講演 1件 / うち国際学会 3件）

1. 発表者名 山中浩司、野島那津子、樋口麻里
2. 発表標題 医学と社会的宙づり状態－希少疾患患者の調査から－
3. 学会等名 日本社会学会
4. 発表年 2021年

1. 発表者名 Beverley Anne Yamamoto*, Nisha Shah, Amelia Katirai*, Atsushi Kogetsu, Seongeun Kang, Yayoi Aizawa, Jane Kaye, Kazuto Kato
2. 発表標題 Positioning patients and citizens at the centre of AI in healthcare
3. 学会等名 British Sociological Association, Medical Sociology Conference (国際学会)
4. 発表年 2021年

1. 発表者名 Hiroshi Yamanaka
2. 発表標題 Global Health and Education: A new UNESCO Chair and its prospects
3. 学会等名 International comparison and collaboration in medical sociology: research initiatives, challenges and future prospects, 20 Aug 2019, Cardiff University. (招待講演)
4. 発表年 2019年

1. 発表者名 Hiroshi YAMANAKA
2. 発表標題 Medicalizing or Demedicalizing? : Evaluating the Impact of Diagnosis and Undiagnosis on Individual Patients' Lives.
3. 学会等名 XIX ISA World Congress of Sociology, July 15-21, 2018, Toronto Canada. (国際学会)
4. 発表年 2018年

1. 発表者名 山中浩司
2. 発表標題 病と障害の社会的表象と科学
3. 学会等名 科学社会学会
4. 発表年 2017年

1. 発表者名 On the social liminality of rare disease patients
2. 発表標題 H. Yamanaka, N. Nojima & M. Higuchi
3. 学会等名 British Sociological Association ,Medical Sociology Group 49the Annual Conference (国際学会)
4. 発表年 2017年

〔図書〕 計5件

1. 著者名 佐藤 純一、美馬 達哉、中川 輝彦、黒田 浩一郎	4. 発行年 2022年
2. 出版社 ミネルヴァ書房	5. 総ページ数 328
3. 書名 病と健康をめぐるせめぎあい	

1. 著者名 松本 三和夫	4. 発行年 2021年
2. 出版社 東京大学出版会	5. 総ページ数 258
3. 書名 科学社会学	

1. 著者名 山中 浩司、石蔵 文信、中道 正之、中山 康雄、池田 光穂、斉藤 弥生、野村 晴夫、モハーチ・ゲルゲイ、野島 那津子、平井 啓	4. 発行年 2020年
2. 出版社 大阪大学出版会	5. 総ページ数 242
3. 書名 病む	

1. 著者名 友枝 敏雄、樋口 耕一、平野 孝典	4. 発行年 2021年
2. 出版社 丸善出版	5. 総ページ数 344
3. 書名 いまを生きるための社会学	

1. 著者名 山中 浩司、石蔵 文信、中道 正之、中山 康雄、池田 光穂、斉藤 弥生、野村 晴夫、モハーチ・ゲルゲイ、野島 那津子、平井 啓	4. 発行年 2020年
2. 出版社 大阪大学出版会	5. 総ページ数 242
3. 書名 病む	

〔産業財産権〕

〔その他〕

<p>障害や健康上の理由などで就活に不安を感じる学生のための情報サイト https://ekkyo.org/ 希少難病ネットつながる 研究支援事業 https://rdnet.jp/act/research/</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	ヤマモト ベバリーアン (Yamamoto Beverley Ann) (10432436)	大阪大学・人間科学研究科・教授 (14401)	
研究分担者	岩江 荘介 (Iwae Sousuke) (80569228)	宮崎大学・医学部・准教授 (17601)	
研究分担者	樋口 麻里 (Higuchi Mari) (80755851)	北海道大学・文学研究院・准教授 (10101)	
研究分担者	野島 那津子 (Nojima Natsuko) (00788614)	石巻専修大学・人間学部・准教授 (31308)	

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