

令和 5 年 6 月 20 日現在

機関番号：37129

研究種目：基盤研究(C)（一般）

研究期間：2018～2022

課題番号：18K10496

研究課題名（和文）プラダーウィリー症候群トランジション外来での看護師の役割と看護機能に関する研究

研究課題名（英文）Research on the Role of Nurses and Nursing Functions in the Prader-Willi Syndrome Transition Clinic

研究代表者

飯野 英親（Iino, Hidechika）

福岡看護大学・看護学部・教授

研究者番号：20284276

交付決定額（研究期間全体）：（直接経費） 2,800,000円

研究成果の概要（和文）： 歯科のトランジションに関しては、20歳以降も同じ障害児歯科を受診している事例が半数以上に認められ、成人の一般歯科を受診例も、障害児歯科と自宅との距離が離れているという理由だった。対象者全員が乳歯と永久歯のう蝕の治療経験を有していた。20歳未満の時と同じ障害児歯科を受診している3/5名は、同じ障害児歯科への受診理由に「歯科フタッフが障害をもつ子どもの対応に慣れていて、子どもとの関係性ができているので安心」という理由だった。全例の分析結果から、PWS児の歯科治療として継続的に障害児歯科を受診できる状況の場合、PWSの養育者である母親は成人歯科への移行について積極的に希望していないと推測された。

研究成果の学術的意義や社会的意義

プラダーウィリー症候群の口腔に関する問題は、歯の発育異常を基本に、口腔筋肉の低下、唾液分泌量の不足、それに伴うう蝕形成のリスク、自己制御の難しさに伴う歯科治療の困難性などがあり、成人期に渡って定期的な口腔衛生管理や歯科治療が重要となる。性格は頑固で予定の変更に臨機応変には対応できないため、口腔医療へのトランジションに関しては、本人と母親の希望を基に準備を進めることが重要である。本研究で、成人期のプラダーウィリー症候群の人の口腔医療への受診状況、成人口腔診療へのトランジションに関する課題、母親の希望を具体的に提示した点に学術的な意義がある。

研究成果の概要（英文）： In the context of dental transition, over half of the cases involved individuals with Prader-Willi Syndrome (PWS) continuing to visit the same specialized pediatric dentistry clinics even after reaching 20 years of age. Reasons for seeking general adult dentistry care were primarily attributed to the geographical distance between specialized dentistry clinics for individuals with disabilities and their place of residence.

All participants had previous dental caries treatment, and 3 out of 5 individuals preferred to continue visiting their childhood clinic for the familiarity and comfort provided by staff experienced in handling children with disabilities. Access to continuous dental care at specialized clinics reduces the desire for transitioning to adult dentistry among individuals with PWS, according to the findings.

研究分野：小児看護

キーワード：プラダーウィリー症候群 口腔医療

1. 研究開始当初の背景

プラダー・ウィリー症候群 (PWS: OMIM #176270) は、幼児期以降に過食からくる高度肥満を起こす例があり、人によっては重症の睡眠呼吸障害を合併するほどの肥満となる¹⁾。PWS の食事摂取の傾向は、甘味の強い食べ物・飲み物を含めて全体的に過食傾向にあり、さらに、エナメル質の形成障害、高粘性の唾液、口腔乾燥症などの、う蝕や歯周病の発生を助長するような因子が報告されているため、う蝕と歯周病の感受性が高い疾患と言われる²⁾。学童期から 40 歳台の PWS を対象とした調査では、加齢に伴って歯の摩耗 (Tooth Wear) が生じやすく、成人期に入ると補綴治療の必要がある PWS の人が増加するため⁵⁾、成人の歯科診療に対する診療ニーズは高くなることが予想される³⁾。

研究者らの臨床経験では、トランジションの成否は、主たる養育者である母親が抱くトランジションに対する考え方や想いによって左右されやすいと考えているが、PWS の移行医療に関する報告は、成長ホルモン療法の移行医療に焦点化されたものが散見⁴⁾⁵⁾されるが、歯科診療に関する移行医療への報告はない。

2. 研究の目的

成人期 PWS の人の小児期から現在までの歯科受診状況と主たる養育者である母親の成人対象歯科への受診 (トランジション) に対する想いについて明らかにし、PWS の歯科診療におけるトランジションに関する課題を明らかにすることを目的とする。

3. 研究の方法

(1) 九州地方と山口県に在住している PWS 児を養育してきた母親 9 名。2016 年の九州山口 PWS セミナーへの参加者から最初の対象者を抽出し、その対象者から PWS の人を養育している母親同士の知人を紹介してもらいスノーボールサンプリングによって対象者を選出した。また、一部の対象者は、研究者らの知人である PWS の人を養育している母親を選出した。

(2) 調査内容: PWS の人の小児期から現在までの歯科受診状況、う蝕予防目的のフッ化物塗布の有無、母親が抱く成人対象歯科への受診に対する想いについて、インタビューガイドを利用した半構成的面接法を実施した。事前の電話訪問によってインタビューに対する事前承諾が得られた人のみを対象とし、1 回の面接時間は約 60~90 分程度で実施した。

(3) 分析方法

面接によって得られた母親の回答の分析は、速記によるインタビューアーの記録を文字起こしすることで回答内容の概要をまとめた。回答内容を「歯科への受診頻度」、「フッ化物塗布の実施」、「20 歳までと、20 歳以降に受診していた歯科」、「小児歯科や障害児歯科から、主として成人を対象とした歯科への移行に関する母親の想い」によって分類し、その分類結果は、3 人の小児看護分野を専門とする看護研究者間で協議を重ねて分類することで妥当性を確保した。

4. 研究成果

(1) 対象者の概要

インタビュー回答者である 9 名の母親の平均年齢 \pm SD は 57.1 ± 5.6 歳、また、その母親の子ども (PWS の人) の平均年齢 \pm SD は 31.1 ± 5.3 歳、性別は女性 3 名、男性 6 名だった。

(2) PWS を有する人が、成人までと成人以降になって受診した歯科の内訳

PWS を有する人が成人に達するまでに受診していた歯科は、療育センター等の障害児歯科が 8/9 名 (88.9%)、主に成人を対象とする一般歯科医院の受診が 1/9 名 (11.1%) だった。一方、成人以降になって専ら受診している歯科は、障害児歯科が 5/9 名 (55.6%)、一般歯科医院の受診が 4/9 名 (44.4%) だった。

(3) 歯科への受診状況とフッ化物塗布の実施状況

歯科への受診状況では、数か月おきに定期受診している PWS の人が 6/9 名 (66.7%)、何か口腔症状が出現したら受診するという不定期受診の人が 3/9 名 (33.3%) だった。6 名の定期受診者の内、フッ化物塗布を定期的に行っている PWS の人は 2 名に留まった。

(4) に向けた歯科のトランジションに対する母親の想い

PWS の子どもを養育した母親が抱く歯科のトランジションについてインタビューした結果を表 1 に示す。対象者の PWS の子ども全員が乳歯と永久歯のう蝕の治療経験を有していた。成人以降になって受診している歯科で、20 歳未満の時と同じ障害児歯科を受診している事例 A、C、F、G、H の 5 名内、事例 A、F、G の 3 名が、小児期と同じ障害児歯科を受診する理由として「歯科フタッフが障害をもつ子どもの対応に慣れていて、子どもとの関係性ができているので安心して受診できるから」といった理由だった。同じ障害児歯科を受診している他の事例 C、H の 2 名は「自宅近くの近医に変更したいが、口腔内トラブルが生じたときだけ受診するスタイルなの

で負担は軽く、近医に積極的に変更していないだけ」といった理由だった。

一方、成人までは障害児歯科を受診し、成人以降は一般歯科へトランジションした事例 B、E、I の 3 名は、「自宅と障害児歯科との距離があるため、受診しにくい環境」という地理的制約の理由によって一般歯科へ変更したケースだった。

< 引用文献 >

- 1) 永井敏郎：Prader-Willi 症候群の自然歴. 日本小児科学会雑誌, 103(1), 2-5, 1999
- 2) 太田広宣, 山内幸司, 高市 武 他：Prader-Willi 症候群における口腔衛生管理について. 日本障害者歯科学会雑誌, 23, 315, 2002. (抄録)
- 3) Saeves R, Espelid I, Storhaug K, et al.: Severe tooth wear in Prader-Willi syndrome. A case-control study. BMC Oral Health, 12, 2012.
<https://doi.org/10.1186/1472-6831-12-12>
- 4) Kuppens RJ, Mahabier EF, Bakker NE, et al.: Effect of cessation of GH treatment on cognition during transition phase in Prader-Willi syndrome: results of a 2-year crossover GH trial. Orphanet J Rare Dis, 11(1), 153, 2016.
- 5) Goldstone AP, Holland AJ, Hauffa BP, et al.: Recommendations for the diagnosis and management of Prader-Willi syndrome. J Clin Endocrinol Metab, 93(11), 4183-4197, 2012.

5. 主な発表論文等

〔雑誌論文〕 計2件（うち査読付論文 2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 飯野英親 中村加奈子 青野広子	4. 巻 3
2. 論文標題 成人期ブラダー・ウィリー症候群(PWS)の歯科診療のトランジションに対する母親の想い	5. 発行年 2020年
3. 雑誌名 看護と口腔医療	6. 最初と最後の頁 45 - 51
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 飯野英親 中村加奈子 青野広子	4. 巻 3
2. 論文標題 成人期ブラダー・ウィリー症候群(PWS)の歯科診療のトランジションに対する母親の想い	5. 発行年 2020年
3. 雑誌名 看護と口腔医療	6. 最初と最後の頁 45-51
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 -

〔学会発表〕 計2件（うち招待講演 0件 / うち国際学会 1件）

1. 発表者名 Hiroko HARAYAMA、Hidechika IINO
2. 発表標題 Difficulties characteristic of families with Prader-Willi Syndrome -A literature review-
3. 学会等名 The 6th International Nursing Research Conference of World Academy of Nursing Science (国際学会)
4. 発表年 2020年

1. 発表者名 佐藤信二、飯野英親、青野広子、中村加奈子
2. 発表標題 ブラダーウィリー症候群児の成人診療科への トランジションに対する養育者の思い
3. 学会等名 第17回日本遺伝看護学会 学術集会口演発表
4. 発表年 2018年

〔図書〕 計0件

〔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	中村 加奈子 (Nakamura Kanako) (90584516)	福岡女学院看護大学・看護学部・准教授 (37126)	
研究分担者	青野 広子 (Aono Hiroko) (50733870)	福岡看護大学・看護学部・講師 (37129)	
研究分担者	小笹 由香 (Ozasa Yuka) (40310403)	東京医科歯科大学・医学部附属病院・看護師長 (12602)	
研究分担者	永野 英美 (Nagano Emi) (00946668)	福岡看護大学・看護学部・助手 (37129)	

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
---------	---------