

令和 6 年 6 月 30 日現在

機関番号：32303

研究種目：挑戦的研究（萌芽）

研究期間：2018～2023

課題番号：18K18661

研究課題名（和文）顔貌の特異性が先天性疾患児と養育者に与える長期的影響の解明と心理学的支援開発

研究課題名（英文）Investigation of long-term effects on children with congenital disorders and their carers and development of psychological support

研究代表者

松本 学（Matsumoto, Manabu）

共愛学園前橋国際大学・国際社会学部・教授

研究者番号：20507959

交付決定額（研究期間全体）：（直接経費） 4,900,000円

研究成果の概要（和文）：先天性疾患における顔貌の特異性が養育者・患児に与える影響を発達早期段階から縦断的に調査するとともに、得られた知見による臨床発達心理学的支援開発を目的とした。地域産院と東北大学病院唇顎口蓋裂センターとのネットワーク構築をめざし、産科医が出生前診断において口唇裂口蓋裂の発見と対応について意識調査を実施した。また、支援プログラム開発をめざし英国St Thomas Hospitalの口唇裂口蓋裂治療チームを訪問し、多職種連携による医療的・心理学的支援の実態を視察し、東北大学病院での支援に反映した。調査の知見については国際口蓋裂学会及び日本口蓋裂学会等で発表した。

研究成果の学術的意義や社会的意義

英国St Thomas Hospitalの口唇裂口蓋裂治療チームでの多職種連携による医療的・心理学的支援を視察して、その知見を元に予防的・発達の視点での支援の考え方を見出し、また口唇裂口蓋裂の出生前診断と対応についての産科医の意識調査を実施し、東北大での患児・家族の支援に反映させたことは今後のこの領域の支援の充実につながる重要なものであった。新型コロナウイルス流行のため、調査の限界はあったが、オンラインでの活動は今後の心理臨床や支援の可能性を開いた。研究全体を通し、患児・家族が治療はもちろん、安心して生活できるための支援を発展させる端緒となった。

研究成果の概要（英文）：The aim was to investigate longitudinally the impact of facial peculiarities in congenital diseases on caregivers and affected children from the early stages of development, and to develop clinical developmental psychological support based on the findings obtained. Aiming to establish a network between regional maternity hospitals and the Cleft Lip and Palate Centre at Tohoku University Hospital, obstetricians were surveyed on their awareness of the detection and handling of cleft lip and palate during prenatal diagnosis. In addition, we visited the cleft lip and palate treatment team at St Thomas Hospital in the UK with the aim of developing a support programme, observed the actual medical and psychological support provided through multi-professional collaboration, and reflected this in the support provided at Tohoku University Hospital. The findings of the survey were presented at the International Cleft Palate Society and the Japanese Cleft Palate Society.

研究分野：臨床発達心理学

キーワード：唇顎口蓋裂 アピアランス 先天性疾患 心理社会的支援 可視的差異

1. 研究開始当初の背景

我々はこれまでに出生前診断・告知を受けた患児の母親についての調査・支援(松本ら, 2015;2016;2017)を実際に行ってきた。一方、心理学的支援の文献レビューを行う中で、英国での支援が近年著しく進歩しており、治療専門機関において、顔貌の特異性を主な課題として支援が行われていること、またそれが英国の保険制度 National Health Service に明確に位置づけられていることを知った(Changing Faces, 2017)。翻ってわが国の専門学会では、その関心の大半は医学的治療にあり、心理学的支援について、ましてや顔貌の特異性についての支援はほとんど触れられていない。実際に顔貌の特異性をもたらす代表的な先天性疾患である CL/CP においても、心理学的支援はボランティアによるものを除き、ほとんど皆無とあって良い状況である。

一方、英国で先進的に行われている心理学的支援についても、支援のための基礎的知見が十分にあるわけではない。とりわけ患児の成長・発達に伴う心理的变化や社会的な不適応などがどのように連鎖しているのかについての検討はほぼ皆無であると言ってよい(Kapp-Simon & Gaither, 2016)。むしろ英国の場合は患者・家族から挙げられた声に社会全体が反応する形で、現在までの支援が構築されてきている(Changing Faces, 2017)。

そこで、応募者は、心理士として所属する東北大学病院唇顎口蓋裂センターにおいて、改めて出生前～1歳半頃までの治療が集中する時期に於ける患児と養育者の心理学的縦断調査を精緻に実施して、その知見からエビデンスに基づく心理学的支援の開発・実施を行いたいと考えようになった。

2. 研究の目的

本研究は、先天性疾患の顔貌の特異性が養育者や患児に与える心理学的影響について出生前診断の時点から縦断的に調査するとともに、得られた知見に基づく心理学的支援を開発することを目指す実践的研究である。

先天性疾患の患児は、従来、疾患そのものやそれに伴う治療・通院、特別な育児を迫られることにより、患児本人や養育者に大きなストレスが生じると考えられてきた(Rumsey & Harcourt, 2004)。一方、先天性疾患の中には疾患にともない、顔貌の特異性を生じるものがある。こうした顔貌の特異性は、先天性疾患に伴うストレスや困難に加え、発達早期の患児に本来備わっている身体的魅力を減じるために養育者の患児に対する忌避的感情や、逆に患児への罪障感や憐憫的感情を誘発し、その結果として養育者の患児への関わりが徐々に回避的になったり、逆に過保護・過干渉になったりすることが指摘されている。さらにこうした養育者への負の影響は、患児の自己肯定感、自尊感情、自己評価や他者との関係性へのネガティブな影響等の二次的な発達の困難を生じさせると考えられる(Coy et al., 2002)。従来、顔貌の特異性が養育者や患児に与える心理学的影響については、先天性疾患の一つである唇顎口蓋裂(Cleft Lip and/or Palate, 以下 CL/CP)を中心に研究が行われてきた。CL/CP は、顎顔面部で最も発生率の高い先天性疾患(約 600 人に 1 人、茅野他, 2004)であり、顎顔面部の機能不全を生じるだけでなく、疾患やその治療によって口や鼻を中心とした顔貌に特異性を生じる。そしてこの特異性によって両親・家族のショックをはじめとする心理的影響が生じることが多く報告されている(Rumsey & Harcourt, 2004)。実際、英国では 1990 年代の社会的運動を契機として、顔貌の特異性によって生じる心理学的影響についてのケアの必要性が唱えられてきた。その結果、現在は National Health Service(以下 NHS)において複数の基幹病院に心理士が配置され、先天性疾患を含む様々な原因で顔貌の特異性を有する患児とその家族への心理学的支援が実施されている(Changing Faces, 2017)。しかし、こうした実践が行われている一方で、従来の研究において、顔貌の特異性によって生じる心理学的影響については、十分な基礎的知見が蓄積されておらず、このため現在に至るまで知見に基づく支援も開発されるには至っていない。わが国でもこれまでに顔貌の特異性を有する先天性疾患向けの心理学的支援の必要性は認識され始めているものの、心理学領域の知見はほとんど「見当たらず、ましてや顔貌の特異性の影響に焦点化した調査はほとんど皆無とあって良い。」

そこで、本研究では、顔貌の特異性が養育者や患児に与える心理学的影響について、その代表的な疾患である CL/CP の患児とその養育者を対象とし、出生前診断から口唇裂・口蓋裂の手術が終了する生後 1 歳半までの縦断的調査を実施した。なお、CL/CP は裂によって大きく 3 つのタイプがある(図 1)。このうち口唇裂および口唇裂と、口蓋裂が併発する口唇・口蓋裂は、疾患自体、及び治療によって傷跡や顔面部の変形といった顔貌の特異性が生じ、この完全な修正は医学的に困難である。一方、口蓋裂の場合は、顎内部の裂であるため、顔貌の特異性がみられない。このため、本研究においては、口唇裂及び口唇・口蓋裂を顔貌の特異性群、口蓋裂を非特異性群とし、この 2 群について、特異性の程度、魅力度、患児家族の患児

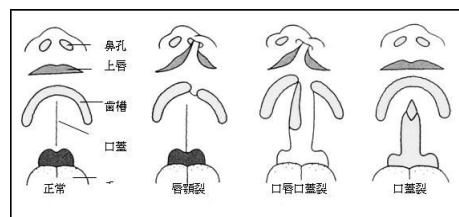


図.1 口唇裂口蓋裂の裂型(高戸,2009 を一部改変)

に対する感情、出生後の養育者と患児との相互作用等について養育者への半構造化面接、様々な指標を用いたアンケート、相互作用場面の観察などを組み合わせた調査を行った。また、得られた知見をもとに出生前から1歳半までの患児と養育者を対象とした心理学的支援の開発を目指した。

3. 研究の方法

東北地方の CL/CP 治療専門機関である東北大学病院唇顎口蓋裂センター(以下、センター)において心理士(応募者)を中心に形成外科・産科協働チームを構成することを視野に、CL/CP 児が産科でどのように見出され、妊婦やその家族がどうケアされ、いつ、どのようにセンターに紹介されているかを調べるために、宮城県内産科における実態調査を行った。)また支援プログラム開発のために、英国 NHS で集約的に行われている心理社会的支援を視察して必要な知見と技法等の取得をはかった。)得られた知見を元に顔貌の特異性に関する心理学的支援プログラム開発を行った。得られた知見については、国際口蓋裂学会や日本口蓋裂学会等の専門学会にて発表した。今後、所属大学の大学紀要や口蓋裂学会雑誌等に投稿する予定である。

4. 研究成果

(1) 産科と専門治療機関(唇顎口蓋裂センター)との連携について(松本・今井・菅原, 2020)

唇裂の出生前診断から専門医紹介までの対応は母親・家族や出生後の患児の心理社会的発達に重要であると指摘されているが、実際には専門医紹介まで長時間が経過したり、十分な情報が提供されなかったりすることが報告されており、解決に向けてその実態把握が急務であった。そこで我々は宮城県の産科医における唇裂の出生前診断の経験と対応についての実態調査を行った。

方法: 2018年5月に仙台市で開催された宮城産婦人科学会集談会に参加した産科医101名に質問紙調査を実施し、29名(男性17名、女性12名、平均年齢54歳)の産科医から回答を得た(回答率28.7%)。

結果: 回答した産科医29名中、19名(65.5%)が出生前診断の経験があった。診断時期は12名が妊娠中期に、7名が妊娠末期であった。診断を行った全員が告知を行い、14名(73.6%)が告知に際し配偶者同席を求めている。告知時の配慮として、妊婦の身体的ケア(2名)、妊婦の心理的ケア(18名)、正確な治療情報提供(13名)、患児の育児情報提供(10名)があげられたが、全ての配慮を提供した医師は1名、3項目以上提供した医師は7名であった。診断後の対応では、14名がすぐ専門医に紹介と回答した一方、4名が告知し出生後に形成外科に紹介と回答した。診断後の対応と告知時期の関係を見ると、妊娠中期の診断では12名中11名の産科医が告知後すぐに専門医を紹介した一方、妊娠末期の診断では7名中3名が産後に専門医を紹介していた。

考察: 多くの産科医が唇顎口蓋裂の出生前診断に関与している一方、診断のあり方や対応では結果が分かれた。これは、出生前診断とその後の治療において、産科医の対応に統一した基準がないことを意味する。しかし特に告知後の配慮内容や専門医紹介の時期については、妊婦や家族、ひいては生まれてくる患児への影響も考えられるため、今後、センターと産科とで、より精緻な研究を行うなどして、さらなる検討を行っていきたい。

(2) 縦断的な調査による知見

当初は顔貌の特異性が養育者・患児に与える影響についての縦断的調査を計画していたが、新型コロナウイルス感染症流行のため、2020年3月より長期にわたり、またその後も断続的に大学病院での対面の調査が実施不可能となり、継続的な調査による知見は得られなかった。

(3) 心理学的支援の開発

支援プログラム開発をめざし英国 St Thomas Hospital の口唇裂口蓋裂治療チームを訪問し、多職者連携による医療的・心理学的支援の実態を視察し、東北大学病院での支援に反映した。調査の知見については国際口蓋裂学会及び日本口蓋裂学会等で発表した。そのうえで、今後の唇顎口蓋裂治療における心理社会的支援の考え方について以下の方針を持つことを得た。

まず、ゴールは、患児・家族がVD(可視的差異)+機能の問題と折り合いをつけ、自信を持って社会の中で成長することであり、唇裂口蓋裂のある子どもとその家族が、疾患(傷や変形、言語の問題等)を有しつつ、治療・通院をしながら、肯定的な自己概念を形成し、円滑な対人関係を結びながら社会の中で生きていくことを支えることを目標とするとした。

そのため、心理社会的問題に予防的、発達の介入することを目指す。すなわち、患児・家族の心理社会的問題が生じる前に(予防的)患児の発達状況を踏まえながら(発達の)心理社会

的問題が発生する前に、できるだけ早い段階で介入することを目指すわけである。
この内、予防的支援は、以下の表にある通り、心理社会的問題の発生を未然に防ぐことを狙う。

表1. 唇顎口蓋裂治療における予防的な心理社会的支援

<ol style="list-style-type: none">1. 患児がポジティブに口唇口蓋裂を理解する準備としての親教育<ul style="list-style-type: none">● 両親・家族の病気理解支援(形成主治医と連携)● ツールとしての写真・動画撮影推奨と家族による早期の説明を推奨● 患児の生活(園・学校・児童館等)を整える環境調整・連携支援● 園/学校を安全な場所にする連携・情報提供2. 患児の成長基盤としての安定的親子関係を図るペアレント・トレーニング 家族の育児・治療忌避/過度の保護的な養育から患児を守ることに繋がる
--

また、発達の支援は、表2のとおり、患児のその時できることを踏まえて家族を巻き込んだ支援を行う。

表2. 唇顎口蓋裂治療における発達の心理社会的支援

<ol style="list-style-type: none">1. 家族と連携しながら患児の自己形成、疾患理解を進める(就学前後～)<ul style="list-style-type: none">● 疾患やVDへのネガティブな理解を避け、患児が了解可能で、家族も含め納得できる形で疾患を捉えられるように支援する2. 対人関係の発達レベルに合わせた生活環境の支援を構築する(幼児期～)。<ul style="list-style-type: none">● 園・学校へ他児からの指摘・からかいが生じる可能性を伝える。● 教員・保護者の見守りや注意が患児への重要な支援となることを伝える3. 顎裂骨移植等、就学前後の手術についてのプリパレーションを行う
--

なお、今後の課題として、上記のような心理社会的支援は、現在の公認心理師不在の唇顎口蓋裂治療においては、チームを構成するその他の医療専門職(医師、歯科医師、看護師、言語聴覚士等)によってエクストラの業務として対応可能な範囲でなされており、実践に大きな制約がある。このため、さらなる支援実践のためには、この領域の治療において、英国のように心理師が常勤的に雇用されることが望まれる。また、今回は新型コロナウイルス感染症流行のため、実証的研究を行うことが非常に難しい状況に追い込まれた。今後は感染症流行など不測の事態にも対応できるような体制を整えながら、エビデンスに基づいた支援を行うことが中長期的課題である。

一方で、今回の感染症流行はオンラインでの心理臨床や調査の可能性を感じさせるものであったかもしれない。今後、この点についても検討を行っていきたい。

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 松本学・杉山千尋	4. 巻 27
2. 論文標題 口唇裂・口蓋裂患児・家族への心理社会的支援	5. 発行年 2022年
3. 雑誌名 小児歯科臨床	6. 最初と最後の頁 39 - 47
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 2件 / うち国際学会 1件）

1. 発表者名 Manabu Matsumoto, Yoshimichi Imai, Kenji Muraki, Junichi Sugawara
2. 発表標題 How Japanese obstetricians do refer after the Prenatal Diagnosis of Cleft Lip? A preliminary survey in Miyagi prefecture
3. 学会等名 14th International Cleft Congress（国際学会）
4. 発表年 2022年

1. 発表者名 村木 健二 , 原 幸司 , 松本 学 , 今井 啓道
2. 発表標題 地方中核病院における多職種連携の試み 院内・院外施設との連携への挑戦
3. 学会等名 第47回日本口蓋裂学会総会・学術集会
4. 発表年 2022年

1. 発表者名 松本学・今井啓道・菅原準一
2. 発表標題 唇裂児の出生前診断に対する産科医の経験と対応：東北地方における実態調査
3. 学会等名 第44回 日本口蓋裂学会総会・学術集会
4. 発表年 2020年

1. 発表者名 松本学
2. 発表標題 唇顎口蓋裂児とその家族の心理評価にむけて 東北大唇顎口蓋裂センターの実践から
3. 学会等名 第64回日本音声言語医学会（招待講演）
4. 発表年 2019年

1. 発表者名 松本学
2. 発表標題 顔を育てる：外見の心理臨床試論
3. 学会等名 第28回日本形成外科学会基礎学術集会（招待講演）
4. 発表年 2019年

1. 発表者名 松本学・今井啓道・佐藤顕光・五十嵐薫・館正弘
2. 発表標題 唇顎口蓋裂児の顔貌の特異性が母親に与える影響 生後半年時点での回想的調査から見えること
3. 学会等名 第43回日本口蓋裂学会総会・学術集会
4. 発表年 2019年

1. 発表者名 松本学・今井啓道・佐藤顕光・五十嵐薫・館正弘
2. 発表標題 被虐待経験を有する母親への心理社会的支援～養育者のアドヒアランスのために
3. 学会等名 第42回日本口蓋裂学会総会・学術集会
4. 発表年 2018年

1. 発表者名 今井啓道・松本学
2. 発表標題 東北大学病院における唇顎口蓋裂児とその家族に向けての心理社会的支援の試み
3. 学会等名 第36回日本頭蓋顎顔面外科学会
4. 発表年 2018年

〔図書〕 計2件

1. 著者名 後藤さゆり, 平岡さつき, 藤井佳世	4. 発行年 2022年
2. 出版社 実教出版	5. 総ページ数 103
3. 書名 スタディスキルズ教育実習 (チームワーク力をつけるには? 担当)	

1. 著者名 川島大輔・松本学・徳田治子・保坂裕子	4. 発行年 2020年
2. 出版社 ナカニシヤ出版	5. 総ページ数 148
3. 書名 多様な人生のかたちに向ける発達心理学	

〔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	齋藤 昌利 (Saito Masatoshi) (00451584)	東北大学・医学系研究科・教授 (11301)	

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	菅原 準一 (Sugawara Junichi) (60280880)	東北大学・医学系研究科・教授 (11301)	
研究分担者	今井 啓道 (Imai Yoshimichi) (80323012)	東北大学・医学系研究科・准教授 (11301)	
研究分担者	三浦 千絵子 (Miura Chieko) (80509240)	東北大学・大学病院・助教 (11301)	
研究分担者	遠藤 利彦 (Endo Toshihiko) (90242106)	東京大学・大学院教育学研究科（教育学部）・教授 (12601)	
研究分担者	本島 優子 (Motoshima Yuko) (10711294)	山形大学・地域教育文化学部・准教授 (11501)	

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