

科学研究費助成事業 研究成果報告書

平成 27 年 6 月 19 日現在

機関番号：84503

研究種目：挑戦的萌芽研究

研究期間：2012～2014

課題番号：24659771

研究課題名(和文) 網膜色素変性患者の疾患の受けとめ方の変化の過程と再生医療への認識に関する研究

研究課題名(英文) Survey to Retinitis Pigmentosa patients: the perceptions of the disease and the recognition of the regenerative medicine

研究代表者

森永 千佳子 (Morinaga, Chikako)

公益財団法人先端医療振興財団・その他部局等・研究員

研究者番号：70620243

交付決定額(研究期間全体)：(直接経費) 3,000,000円

研究成果の概要(和文)：本研究は、現在のところ治療法が確立されておらず、治療研究の進歩の過渡期にある網膜色素変性(RP)の患者の状況に即した支援の検討を目的としている。RPの患者対象の個別半構造化面接と RPの医療や患者支援に関わる専門家・医療者へのヒアリングを実施した。得られた情報を元に、より広くRPの患者の実態を知るために質問調査項目の設定とWEB調査実施のための検討を重ね、WEB調査システムを構築し、RPの患者対象にWEBによる質問調査を行った。患者の視点に配慮した支援体制と情報提供のあり方の検討の土台となるデータが得られたことは、RPを取り巻く医療の発展において、患者・医療者双方に有用である。

研究成果の概要(英文)：The aim of this study is to support for Retinitis Pigmentosa Patients. We advanced this study in four stages.

1) Individual semi-structured interviews with Retinitis Pigmentosa patients. 2) Interviews with experts and medical staff involved in the medical and patient support of Retinitis Pigmentosa. The stage 3 and 4 was conducted based on the information obtained in stage 1 and 2, in order to build a WEB survey system. 3) In order to know more widely the actual situation of the Retinitis Pigmentosa patients, We repeated verification for the configuration of WEB survey questionnaire item. 4) We conducted the WEB survey of Retinitis Pigmentosa Patients subject.

It was obtained that becomes the foundation to consider to support system and a way of providing information in consideration of the patient's point of view. These Patient-oriented data provided useful evidence for both the Retinitis Pigmentosa patients and experts and medical staff involved in the medical and patients support .

研究分野：眼科

キーワード：眼科 網膜色素変性 WEB調査 患者調査 再生医療

1. 研究開始当初の背景

網膜色素変性は、進行性・難治性・遺伝性の視覚障害で、治療研究が進歩している過渡期にある。当該疾患は難治性疾患克服研究事業の対象疾患とされており、遺伝性で、多くは成人発症するが、症状の進行が緩徐で、失明に至らないことが多いという特徴がある。近年、薬剤による治療や、人工網膜や遺伝子治療、iPS 細胞研究の発展による網膜再生など、治療法研究が盛んに行われている。特に網膜再生研究の目覚ましい進歩に期待が高まる中、臨床への応用には地道な研究の積み重ねを伴う相当の時間を要するのが現状である。

治療研究の進歩は患者の疾患の意味づけに影響を及ぼすと考えられるが、治療研究の進捗に関する情報の影響に対する患者の視点からの研究はない。臨床現場で出会う当該疾患の患者の多くは、診断・告知の時に悩み、悩んだ挙句やっと前向きに動き出し、「再生医療」の情報と出会う。そして「再生」という言葉から期待される『実質的な「再生(晴眼に戻る)」』ではなく、『「細胞移植治療」である』という、現段階の状況に関する正しい情報(臨床応用には時間を要し、目標は晴眼ではなく低視力への回復に留まるといった現状)を、患者が知った段階で、二度目のショックを受ける。

また、視覚障害の「受容」に関する先行研究では、対象として「失明」を扱った研究がみられる(宮崎 2002)が、当該疾患は、症状進行が緩徐で、失明に至らないケースも多いという特徴から、必ずしも「失明」を対象とした研究結果が当てはまるとは言えない。そして、患者の心理社会的適応に着目した研究は散見されるが、その多様性や心理面の変化のプロセスに関して示されたものは見られない。

また、再生医療の情報の扱われ方に関する研究として、国内外ともに意識調査が行われている(Shineha R, et al. 2010、樋口ら 2006)が、iPS 細胞による治療に関しては、専門家によるステートメント(Csete M. 2010、Zarzczy A, et al.

2009)が散見されるのみである。網膜再生研究が進歩し期待が高まる一方、患者の視点からの研究は見られないため、本研究では初の試みとして、探索的研究から量的研究に繋げ、支援体制構築を目指すための土台となる情報を得ようとするものである。

2. 研究の目的

網膜色素変性患者の状況に即した支援の構築の土台となるような患者の声を集める事を目的とし、疾患特性に基づくニーズに合った情報提供と支援体制の構築の土台となるデータを集めることを目指した。

上記研究全体の目的を達成すべく、下記の各4段階に分けて研究を進めたので、それぞれの目的を記す。

患者対象の半構造化面接

網膜色素変性の患者の、発症後の疾患に対する意識を調査し、網膜再生医療に対する患者の認識が疾患に対する態度・行動・意味づけに及ぼす影響を知る。

医療者・対人援助職者対象のヒアリング

網膜色素変性の患者に接している各専門職の視点から、網膜色素変性患者を取り巻く環境と問題点について調査し、有用な質問調査にするために現場に必要とされる情報を知る。

WEB 調査質問項目作成と調査システムの構築

で得られた情報を踏まえ、疾患特性に即した質問調査項目を設定を、見えない・見えにくい対象者にもできる限り負担の少ないアクセスと回答が可能な調査システムを構築する。

患者対象のWEBによる質問調査

疾患特性の傾向を明らかにするために、WEBの活用によって、対象者を広げ、量的調査を実施する。

3. 研究の方法

研究段階に沿って上記の4つの段階の方法を記す。

患者対象の半構造化面接

期間:平成 24 年 4 月から平成 25 年 6 月

対象者:網膜色素変性患者 14 名

方法:聞き手(認定遺伝カウンセラー)1 名による半構造化面接とライフラインの描写
データ:インタビューの録音音声データを逐語録に起こしたものの、インタビュー時のメモ及び、筆記内容(ライフライン)、カテゴリー抽出のワークシート

医療者・対人援助職者対象のヒアリング

期間:平成 25 年 6 月から 7 月

対象者:医療者・対人援助職者 5 名

(網膜変性外来担当医師 1 名、視能訓練士 2 名、心理カウンセラー 1 名、社会福祉士 1 名)

方法:聞き手(認定遺伝カウンセラー)によるヒアリングを実施

データ:ヒアリング時のメモと、一部、録音音声により、文書データ作成

WEB 調査質問項目作成と調査システムの構築

期間:平成 25 年 4 月から平成 26 年 9 月

方法:

段階の情報をもとに、複数名の研究者によるディスカッションを繰り返し、さらに、対象者(網膜色素変性患者)への予備調査を実施した。

< 患者対象の予備調査 >

・第一次予備調査:平成 26 年 4 月

WEB 調査構想について網膜色素変性患者 1 名ヒアリング

・第二次予備調査:平成 26 年 6 月

選定した質問調査項目について、網膜色素変性患者 5 名に対し各々対面式でヒアリング。

・第三次予備調査:平成 26 年 6 月-7 月

試行 WEB 調査形式実施とグループヒアリング×2 グループ(各 4 名)実施

上記の患者対象の予備調査で得られた情報を逐次反映させながら、検討・改変を重ね、質問票を完成させ、WEB 調査のシステムを構築した。

患者対象の WEB による質問調査

期間:

平成 26 年 9 月 16 日から同年 12 月 20 日

対象者:

網膜色素変性と診断された患者で、アクセス時の説明に同意し、回答画面に進んだ者。

対象者の限定を担保するため、網膜色素変性と診断されているかの質問により、自己申告の回答者のアクセス制限を設けた。さらに、質問項目中に網膜色素変性患者特有の質問項目を設けた(ワードトレーサー)。

アクセス方法:

WEB による質問調査とし、パソコン、タブレット端末、携帯電話、スマートフォンのいずれでもアクセスを可能にした。

リクルートの方法:

< 方法 1 >

網膜色素変性患者の情報収集に寄与しているメーリングリスト等の管理者と、患者当事者団体の代表者に依頼し、各メーリングリストへの送付と患者当事者団体の有するホームページ等への掲載を依頼した。その際、患者関係者同士の情報拡散を積極的に実施してもらえるよう依頼した。また、期間途中でリマインドの案内を依頼した。

< 方法 2 >

網膜色素変性患者を対象に支援する立場の専門職に患者への調査協力の案内を依頼した。その際、患者関係者同士の情報拡散を積極的に実施してもらえるよう依頼した。

< 方法 3 >

インターネット検索キーワードを設定し、検索エンジンのアドワーズ機能を利用し、アクセスの拡大を図った。

アンケート調査項目の概要

- 属性と眼科受診について 7 問
- 病気の説明に関する、経験・感じ方 3 問
- 説明の有無と内容の満足度 5 問
- 見えにくさへの対応と考え・気持ち 5 問
- 見えにくさの状況と眼科の検査 6 問
- 心理的ストレスの指標(K6) 6 問

- 再生医療に対する考え 2問
 - あなた自身について(属性) 8問
- 問い合わせの対応

実施期間中、サポートアドレスを設け、各問い合わせにメールにて対応した。

WEB による質問調査システムの構築過程と、その実施結果については、「4 .研究成果」の項に詳細を記す。

4 . 研究成果

治療研究の進歩の過程において、臨床応用の実現可能性に期待が高まる今日、治療に関する情報が患者の疾患に対する意味づけに及ぼす影響は大きいと考えられる。そのため、患者の疾患に関する経験を明らかにし、治療法に関する情報がどのように提供されるべきか、患者の視点に配慮した支援体制と情報提供のあり方が検討される土台となる Patient-oriented data が得られることは、網膜再生医療の発展において、患者 医療者双方にとって有用である。

本研究は、網膜色素変性患者の状況に即した支援の検討を目的としている。下記に平成 24 年度から 26 年度にかけて実施した、網膜色素変性の患者対象の WEB 調査システム構築の過程と、質問調査票による回答結果の属性の一部を報告する。

【WEB による質問調査システム構築過程】

患者対象の個別面接では、有効な治療法がない当該疾患の患者の疾患への意味づけとその変化の過程に着目し、今後の治療法研究の発展と来るべき臨床応用に備え、これまでの網膜色素変性患者の情報提供場面での経験とそれらに対する気持ちや考え、情報収集の在り方を調査した。

また、網膜色素変性の医療や患者支援に関わる専門家・医療者を対象に、網膜色素変性患者を取り巻く現場で起こっていること・患者の支援として必要と思っていること・今回の試みである WEB 調査によりどのようなことが明らかになると有用であるか、の視点から、ヒアリングを実

施した。

上記を踏まえて、より広く、医療現場につながらない患者にも届く方法と言う点に着目した。研究計画当初、WEB または郵送調査を用いた量的調査を実施するとしていたが、医療とつながらない患者にも自らの情報収集の過程でアクセスできる WEB を介した質問調査の方法が、患者の疾患体験としての声を集める目的に適していると判断した。

質問項目の抽出に際し、網膜色素変性を取り巻く医療・カウンセリング現場、また WEB 調査実施に対して見識のある共同研究者複数名で質問調査項目の検討を重ね、項目を決定した。検討の過程では、治療法がなく、症状が落ち着いていれば眼科では経過観察となる場合が多い疾患特性の理解の上、患者の疾患体験としての声を集める目的に対して、医療の視点だけではなく、患者が経験している世界に近い調査項目の設定のために検討を重ねた。

WEB による質問調査実施に当たり、調査システムの開発の段階で、網膜色素変性専門外来受診患者と患者支援団体などの協力を得て、複数回の予備調査を実施した。予備調査では患者の声として、質問項目の答えやすさ答えにくさについて、WEB 調査のシステムの使い勝手についてヒアリングを繰り返し、それらを反映させて、研究者同士での検討を重ねた。

【WEB による質問調査実施結果】

回答数 :

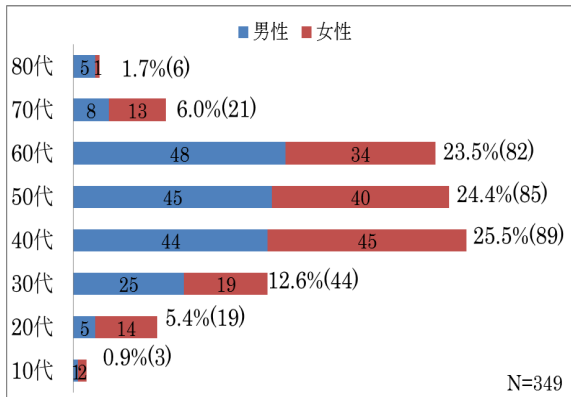
355 件(内、重複回答とみられる 6 件を除外し、有効回答数 N=349 として解析)

回答者の属性 :

- 年齢と性別 :

有効回答数 N=349 のうち、男性 181 名(51.9%)、女性 168 名(48.1%)であった。

また回答者の年齢は、最年少が 14 歳、最年長は 83 歳であった。40 代 ~ 60 代の回答者が全体の 73.4% を占めた。年代別の内訳を下記のグラフに示す。



< 年齢と性別 >

- 診断後の経過年数 :

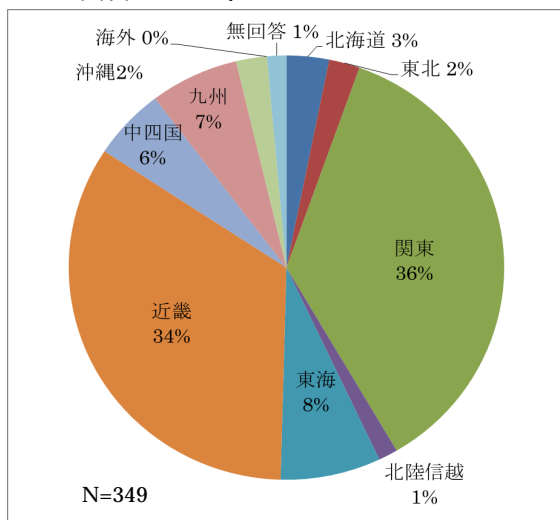
診断年齢不明の7名を除いた計342名において、診断されて一年未満の者の回答数は20名(5.8%)、診断後の経過年数が最も長かったのは58年であった。

診断後経過年数の内訳は、「診断後1-10年」の者が95名(27.8%)で最も多く、「診断後11-20年」の者が74名(21.6%)、「診断後21-30年」の者が75名(21.9%)、「診断後30年以上」の者が78名(22.8%)であった。

最も多かった「診断後1-10年」の者については、「診断後1-2年」の者が22名(6.4%)、「診断後3-5年」の者が28名(8.2%)、「診断後6-10年」の者が45名(13.2%)であった。

- 住地域の分布 :

北海道、東北、関東、北陸信越、東海、近畿、中四国、九州、沖縄、海外に分類すると、海外が0名であり、その他の日本全国すべての地域からの回答があった。



< 住居地域の分布 >

関東と近畿の二つの地域の回答が全体の70%程度を占めた。これら上位2地域に関して、1位の関東36%(126名)のうち東京都は39名で全体の11.2%を占め、2位の近畿33.8%(118名)のうち、大阪府が46名で全体の13.2%を占めた。

その他の質問項目に関する、回答データの量的データについてはSPSSを用いた統計的解析を、自由記載の質的データについては内容分析を引き続き実施し、論文発表・学会発表等していく予定である。

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0件)

〔学会発表〕(計0件)

〔図書〕(計0件)

〔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：
出願年月日：
取得年月日：
国内外の別：

〔その他〕
ホームページ等 なし

6. 研究組織

(1) 研究代表者

森永千佳子 (MORINAGA, Chikako)

公益財団法人先端医療振興財団 研究員

研究者番号: 70620243

(2)研究分担者

平見恭彦 (HIRAMI, Yasuhiko)

公益財団法人先端医療振興財団 先端医療
センター病院 眼科・医長

研究者番号: 00462721

浦尾充子 (URAO, Michiko)

京都大学 医学(系)研究科・非常勤講師

研究者番号: 10447972

日高庸晴 (HIDAKA, Yasuharu)

宝塚大学 看護学部・教授

研究者番号: 40513586

(3)連携研究者

高橋政代 (TAKAHASHI, Masayo)

国立研究開発法人理化学研究所 多細胞シ
ステム形成研究センター 網膜再生医療研究
開発プロジェクト・プロジェクトリーダー

研究者番号: 80252443