

日本における小児臓器移植患者の保護者の健康関連 Quality of Life

菊池良太¹⁾、小野稔²⁾、絹川弘一郎³⁾、水田耕一⁴⁾、伊藤秀一⁵⁾、上別府圭子¹⁾

¹⁾東京大学大学院医学系研究科健康科学・看護学専攻家族看護学分野、²⁾東京大学医学部附属病院心臓外科、³⁾東京大学大学院医学系研究科重症心不全治療開発講座、⁴⁾自治医科大学移植外科、

⁵⁾国立成育医療研究センター腎臓・リウマチ・膠原病科

<要 旨>

本研究は、小児臓器移植患者の保護者の HRQOL を明らかにすること、そして養育負担感、家族機能、ソーシャルサポートと HRQOL との関連を明らかにすることを目的とし、無記名自記式質問紙調査と診療録調査を行った。HRQOL は SF-36v2 を用い、身体的健康・精神的健康・社会的健康の 3 側面を評価した。HRQOL のうち、身体的健康と精神的健康は基準値より高かったが、社会的健康は基準値より低かった。身体的健康には「保護者の通院（臓器提供によるものを除く）」が、精神的健康には「家族機能」と「自宅から主なフォロー施設までの時間」が関連していた。また、社会的健康には「全養育負担感」が関連していた。臨床実践において、保護者の HRQOL の向上のためには、保護者自身の健康状態に焦点を当てた介入や、家族や社会からの理解・支援の促進、地元の医療施設をも含めた緊急時の対応の構築が重要であることが示唆された。

<キーワード> 小児臓器移植、保護者、QOL、養育、家族機能、ソーシャルサポート

【はじめに】

固形臓器移植（以下、臓器移植）は、末期臓器不全状態にある小児患者の生存率と Health-Related Quality of Life (HRQOL) の向上を目的とした治療法の一つである。日本における小児肝臓、腎臓、心臓移植患者の 5 年生存率は、それぞれ 90%以上に向し¹⁾、移植後の長期生存が期待されている。

小児臓器移植患者の家族において、児の療養生活に対し大きな役割を担うのは保護者であることから、保護者の QOL は重要である。これまで、小児臓器移植患者の保護者に関しては、児の移植後にうつや心的外傷後ストレス障害 (PTSD) などの問題²⁻⁴⁾を有するなど、主に精神的問題に焦点が当てられてきた。さらに、児の養育・ケアを行うことは保護者の心的状態や PTSD と関連する^{5, 6)}とされている。しかし、小

児臓器移植患者の保護者の実態を理解し、支援へと繋げるためには、精神的側面だけでなく、身体的・社会的側面をも含めた HRQOL による包括的な評価が求められるが、保護者の HRQOL に焦点を当てた研究^{7, 8)}は乏しい。

慢性疾患や障害を有する児を養育する保護者の HRQOL を検討する上では、養育の負担感や家族機能、ソーシャルサポート (SS) が重要⁹⁾とされる。児の移植後の生活において、保護者は、体調管理のためのケアや通院^{10, 11)}を行いながら、免疫抑制剤による感染症^{10, 12)}や拒絶反応¹²⁾への不安を抱いたり、さらには通院治療費による経済的負担^{13, 14)}も抱えるとされる。したがって、これら養育に伴う負担感は移植患児を養育する保護者の HRQOL に大きく関わると考えられる。

さらに、保護者を取り巻く他の家族員や社会

からの支援も保護者の HRQOL に密接に関わると推察される。小児臓器移植患者の家族は、家族機能を維持し移植後の生活へ適応する^{15, 16)}ことが示唆されていることから、家族は保護者に対するサポート資源となると考えられるが、支援の側面から家族機能を検証した研究はない。このことから、保護者の HRQOL を評価する上で、家族機能は重要な要素となると考える。

また、保護者を取り巻く者からの支援の不足も危惧される。移植後の生活についての無理解による家族員や友人からの支援の減少¹⁷⁾や、社会的な孤立^{14, 18)}が示唆されている。しかし、SS と保護者の HRQOL との関連に関する知見も乏しい。保護者を取り巻く者からの支援と HRQOL との関係を明らかにすることは、保護者の HRQOL のより深い理解や支援の構築に繋がると考える。

したがって本研究の目的は、(1) 小児臓器移植患者の保護者の HRQOL (身体的・精神的・社会的側面) を明らかにすること、(2) 特に養育の負担感、家族機能、SS と HRQOL との関連を明らかにすること、とした。

【方法】

1. 研究デザイン

無記名自記式質問紙調査と診療録調査による横断研究

2. 対象

本研究の対象者の選択基準は、肝臓・腎臓・心臓移植のいずれかを行った、調査時に 20 歳未満の外来患者の保護者(主たる養育者)とした。児一名につき、親一名に参加を依頼した。なお、臓器移植による合併症と原疾患を除いた重大な疾患に罹患している患者や重度の心身障害を有する患者の保護者は除外した。

3. 調査手順

調査は、大学病院 2 施設と小児専門病院 1 施設の計 3 施設にて行った。主治医と移植コーディネーターが包含基準に該当する保護者を選定した。研究者は患者の外来受診時、または院内で開催された患者会にて調査に関する説明と質問紙の配布を行った。質問紙調査への参加は、返送をもって同意とみなした。また、小児患者の診療録調査と、質問紙に回答した保護者がドナーである場合の診療録調査に関しては、同意書を取得した。保護者と小児患者の属性は質問紙と診療録より得た。その詳細は、表 1 に記載した。調査期間は 2013 年 9 月から 2014 年 3 月とした。

4. 質問紙

HRQOL の測定には、過去 1 ヶ月の HRQOL を測定する包括的な HRQOL 尺度である SF-36v2 の日本語版¹⁹⁾を用いた。「身体機能 (PF)」「日常役割機能 (身体) (RP)」「体の痛み (BP)」「全体的健康感 (GH)」「活力 (VT)」「社会生活機能 (SF)」「日常役割機能 (精神) (RE)」「心の健康 (MH)」の 8 下位尺度 36 項目より構成される。スコアは「身体的健康 (PCS)」「精神的健康 (MCS)」「役割/社会的健康 (RCS)」の 3 つに要約して評価し、高得点は高い HRQOL を示す。米国などでの調査ではサマリースコアは PCS と MCS の 2 因子構造であるが、日本などのアジア諸国では RCS を加えた 3 因子構造が確認されている¹⁹⁾。本研究では、各サマリースコアを、それぞれ身体的・精神的・社会的健康の指標とした。

養育負担感の測定には養育負担感尺度²⁰⁾を用いた。本尺度は、重症心身障害児を養育する上での負担感を測定するために開発された。「日

常生活上の大変さ」「養育上の不安」「社会的役割制限」の3下位尺度15項目で構成される。各項目は、1（思わない）～5（いつも思う）点の5件法により評価し、スコアは合計する。高得点であるほど養育による負担感が強いことを示す。本研究では本尺度を「慢性疾患児の養育負担感」尺度とし、開発者の了承の下に本研究での倫理的配慮の観点から2項目を削除した。本研究でのCronbachの α 係数は0.88であった。

さらに、移植特有の事柄に対する養育の負担感が重要と考えたため、先行研究^{12, 13, 21)}より小児臓器移植患者の養育において負担や不安になると考えられる事柄を抽出し、「移植患児の養育負担感」尺度を作成した。内容については、移植医や移植コーディネーターと確認を行った。探索的因子分析の結果、「移植の副作への不安」「服薬の大変さ」「病状理解の大変さ」「他者との情報共有の大変さ」「児の集団生活上の不安」「経済的負担」の6下位尺度16項目で構成された。「移植患児の養育負担感」尺度のCronbachの α 係数は0.88であった。なお、「慢性疾患児の養育負担感」と「移植患児の養育負担感」を合わせた「全養育負担感」のCronbachの α 係数は0.92であった。

家族機能の測定には、家族のサポート能力への満足を測定する家族機能尺度である Family APGAR²²⁾ 日本語版²³⁾を用いた。家族機能の基本要素としての、適応、伴侶性、成長、愛情、協調の計5項目1因子構造にて構成される。0（めったにない）～2（ほとんどいつも）点の3件法により評価し、スコアは合計する。高得点ほど家族のサポート能力が高いことを示す。本研究でのCronbachの α 係数は0.93であった。

SSの測定には、小児気管支喘息患者を養育す

る母親を対象として作成された、ソーシャルサポート尺度²⁴⁾を用いた。「所属的サポート」「情緒的支持」「実質的支持」「尊重的サポート」の4下位尺度18項目で構成され、3件法により評価するが、本研究では開発者の了承の下、「家族」と「家族以外」におけるサポートの存在に対して0（いいえ）～1（はい）点の2件法計36項目より評価した。高得点であるほど、より多くのSSを有していることを示す。本研究での家族内・外SSのCronbachの α 係数はそれぞれ0.96、0.93であり、双方を合わせた「全SS」のCronbachの α 係数は0.95であった。

5. 分析

Cohenの効果量(d)²⁵⁾の算出により、サマリースコアと各下位尺度を、年齢と性別を調整した基準値¹⁹⁾と比較した。保護者と小児患者の属性ごとの各サマリースコアの比較には、対応のない t 検定、一元配置分散分析(ANOVA)を用いた。各サマリースコアと保護者と小児患者の属性との関連にはSpearmanの順位相関係数(r_s)を用いた。また、養育負担感、家族機能、ソーシャルサポートとの各サマリースコアとの関連には、Spearmanの順位相関係数(r_s)を用いた。

小児臓器移植患者の保護者のHRQOLに対する関連要因を探索するため、サマリースコアの得点を従属変数とした重回帰分析を行った。独立変数は、「全養育負担感」得点、「家族機能」得点、「全SS」得点の他、保護者の健康状態を反映すると考えられる「保護者の通院（臓器提供によるものを除く）」、先行研究において保護者のHRQOLに重要とされる「ドナーである」²⁾を選択した。さらに、児の移植後の状態に関連すると考えられる「移植後年数」と、保護者の生活を反映すると考えられることから「自宅から主な

フォロー施設までの時間」を独立変数に加えた。また、「就労:あり」を共偏数として加えた。各モデルにおいて、標準化偏回帰係数 (β) と決定係数 (R^2) を算出した。

なお、分析には IBM SPSS 22.0 J for Macintosh (SPSS Inc, Chicago, USA) を用い、有意水準は両側 5% とした。

6. 倫理的配慮

本研究は、東京大学大学院医学系研究科・医学部倫理委員会、自治医科大学倫理委員会、ならびに国立成育医療研究センター倫理委員会の承認を得て行った。対象者に研究協力を依頼する際は、調査の趣旨、協力の任意性、個人情報の保護、同意撤回の期日と方法について、文書と口頭で説明を行った。なお、小児患者の診療録調査に関しては小児患者と保護者より文書にて同意を得た。質問紙の回答者がドナーである場合には、保護者より保護者の診療録調査に対して別紙で同意を得た。

【結果】

1. 保護者及び小児患者の属性 (表 1)

研究説明を行った 104 名のうち、質問紙の回収と小児患者の診療録調査の同意は 87 名より得られた (参加率 83.7%)。うち、SF-36v2、Family APGAR、及び SS 尺度において半分以上の回答が得られなかった 5 名分を除外し、82 名を分析対象とした (有効回答率 78.8%)。また、ドナーと

表 1. 保護者と小児臓器移植患者の属性とサマリースコアとの関係

N = 82

	n (%) or mean \pm SD	二変量解析					
		PCS		MCS		RCS	
		mean \pm SD or r_s	p	mean \pm SD or r_s	p	mean \pm SD or r_s	p
保護者の属性							
続柄							
母親	75 (91.5)	54.2 \pm 6.8	.99 ^{a)}	49.9 \pm 10.4	.63 ^{a)}	47.8 \pm 11.6	.61 ^{a)}
父親	7 (8.5)	54.1 \pm 6.8		52.0 \pm 16.2		50.1 \pm 9.7	
年齢 (歳)	41.5 \pm 6.0	-0.09	.42 ^{b)}	0.14	.21 ^{b)}	0.07	.52 ^{b)}
婚姻状況							
既婚	73 (90.1)	54.1 \pm 6.7	.64 ^{a)}	51.1 \pm 10.6	.01 ^{a)}	48.3 \pm 11.9	.63 ^{a)}
離婚	8 (9.9)	55.3 \pm 7.9		40.7 \pm 10.6		46.2 \pm 8.4	
就労							
あり	46 (56.1)	53.9 \pm 6.5	.68 ^{a)}	49.9 \pm 12.0	.86 ^{a)}	50.4 \pm 9.8	.03 ^{a)}
なし	36 (43.9)	54.5 \pm 7.0		50.3 \pm 9.8		44.8 \pm 13.0	
通院 (臓器提供によるものを除く)							
あり	18 (22.2)	47.8 \pm 6.7	<.01 ^{a)}	48.5 \pm 11.3	.05 ^{a)}	49.2 \pm 11.2	.59 ^{a)}
なし	63 (77.8)	56.0 \pm 5.6		50.6 \pm 10.9		47.5 \pm 11.8	
患者会・家族会の参加							
あり	49 (60.5)	54.1 \pm 7.1	.93 ^{a)}	49.9 \pm 12.1	.84 ^{a)}	46.9 \pm 12.7	.38 ^{a)}
なし	32 (39.5)	54.2 \pm 6.4		50.4 \pm 9.1		49.3 \pm 9.7	
ドナー							
はい	42 (51.2)	53.2 \pm 6.7	.17 ^{a)}	50.8 \pm 9.5	.54 ^{a)}	50.2 \pm 9.9	.07 ^{a)}
いいえ	40 (48.8)	55.2 \pm 6.7		49.3 \pm 12.2		55.6 \pm 12.8	
臓器提供に関する通院 (ドナーのみ)							
あり	9 (26.5)	53.1 \pm 6.0	.93 ^{a)}	53.5 \pm 11.2	.34 ^{a)}	46.6 \pm 13.1	.34 ^{a)}
なし	25 (73.5)	53.3 \pm 7.1		50.1 \pm 8.2		50.1 \pm 10.0	
小児臓器移植患者の属性							
性別							
女	51 (62.2)	54.8 \pm 5.8	.23 ^{a)}	51.5 \pm 10.4	.13 ^{a)}	47.2 \pm 12.2	.45 ^{a)}
男	31 (37.8)	53.0 \pm 8.0		47.7 \pm 11.4		49.2 \pm 10.5	
調査時年齢 (歳)	10.3 \pm 5.2	-0.01	.92 ^{b)}	-0.16	.16 ^{b)}	0.17	.13 ^{b)}
移植時年齢 (歳)	4.0 \pm 4.6	0.02	.87 ^{b)}	-0.02	.81 ^{b)}	0.15	.19 ^{b)}
移植後年数 (年)	6.4 \pm 4.3	-0.08	.49 ^{b)}	-0.18	.11 ^{b)}	0.12	.27 ^{b)}
社会生活の状況							
就学前	23 (28.0)	53.9 \pm 7.7	.35 ^{a)}	53.7 \pm 9.3	.20 ^{a)}	47.2 \pm 10.7	.56 ^{a)}
小学校	31 (37.8)	54.5 \pm 5.4		49.0 \pm 10.4		46.6 \pm 12.0	
中学校	11 (13.4)	56.5 \pm 3.8		49.6 \pm 14.4		47.6 \pm 15.2	
高校	15 (18.3)	53.2 \pm 8.7		48.8 \pm 10.3		50.7 \pm 9.1	
高校卒業後教育	2 (2.4)	46.2 \pm 3.2		36.7 \pm 13.6		58.5 \pm 10.6	
移植臓器							
肝臓	72 (87.8)	54.2 \pm 6.6	.87 ^{a)}	50.0 \pm 11.2	.98 ^{a)}	48.0 \pm 11.6	.69 ^{a)}
腎臓	6 (7.3)	54.8 \pm 8.1		51.0 \pm 10.4		50.5 \pm 12.1	
心臓	4 (4.9)	52.6 \pm 9.0		50.2 \pm 7.1		43.9 \pm 11.7	
移植種類							
生体移植	76 (92.7)	54.1 \pm 6.7	.68 ^{a)}	49.9 \pm 11.2	.63 ^{a)}	48.3 \pm 11.7	.31 ^{a)}
生体移植以外	6 (7.3)	55.3 \pm 8.2		52.2 \pm 6.3		43.3 \pm 10.1	
移植後合併症							
あり	26 (31.7)	54.5 \pm 7.7	.74 ^{a)}	47.6 \pm 11.1	.17 ^{a)}	46.7 \pm 12.5	.50 ^{a)}
なし	56 (68.3)	54.0 \pm 6.3		51.2 \pm 10.7		48.6 \pm 11.2	
通院頻度 (回/年)	7.2 \pm 3.9	0.09	.41 ^{b)}	0.13	.23 ^{b)}	-0.15	.19 ^{b)}
自宅から主なフォロー施設までの時間 (分)	125.9 \pm 81.2	-0.07	.56 ^{b)}	-0.35	<.01 ^{b)}	-0.06	.60 ^{b)}
フォローアップ施設数							
1施設	61 (74.4)	53.7 \pm 6.9	.26 ^{a)}	51.3 \pm 10.5	.09 ^{a)}	47.8 \pm 10.9	.89 ^{a)}
2施設	21 (25.6)	55.6 \pm 6.1		46.5 \pm 11.4		48.3 \pm 13.5	
内服薬の種類	4.4 \pm 2.1	-0.12	.27 ^{b)}	0.03	.79 ^{b)}	0.05	.66 ^{b)}

欠損値は除く。a) 対応のない検定、b) Spearmanの順位相関係数 (r_s)、c) 一元配置分散分析 (ANOVA)。

略記: MCS, mental component summary; PCS, physical component summary; RCS, role/social component summary; SD, 標準偏差。

回答した 42 名 (51.2%) のうち、診療録が追跡できたのは 34 名であった。

保護者のうち、75 名 (91.5%) が母親であり、調査時年齢は 30~61 歳であった。73 名 (90.1%) が婚姻状況にあった。小児患者は 51 名 (62.2%) が女兒であり、調査時年齢は 1.7~19.4 歳、移植時年齢は 1 ヶ月~17.0 歳であった。移植後 3 ヶ月~18.5 年が経過していた。移植臓器は肝臓が 72 名 (87.8%)、腎臓 6 名 (7.3%)、心臓 4 名 (4.9%) であり、生体移植は 76 人 (92.7%) で

表2. 各尺度のスコアとサマリスコアとの関係

	mean ± SD	d	二変量解析			
			PCS	MCS	RCS	
			r_s	r_s	r_s	
健康関連quality of life: HRQOL						
身体的健康: PCS (51.5 ± 8.6)	54.1 ± 6.7	0.34	-	-	-	
精神的健康: MCS (48.4 ± 9.5)	50.1 ± 10.9	0.17	-	-	-	
社会的健康: RCS (50.2 ± 9.6)	48.0 ± 11.7	0.21	-	-	-	
身体機能: PF (51.5 ± 8.3)	53.3 ± 5.4	0.26	-	-	-	
日常役割機能 (身体): RP (50.8 ± 8.4)	50.9 ± 8.3	0.01	-	-	-	
体の痛み: BP (48.8 ± 9.8)	51.5 ± 11.0	0.26	-	-	-	
全体的健康感: GH (50.5 ± 9.1)	52.1 ± 9.6	0.17	-	-	-	
活力: VT (48.8 ± 9.1)	49.9 ± 11.0	0.11	-	-	-	
社会生活機能: SF (49.5 ± 9.7)	48.8 ± 11.9	0.06	-	-	-	
日常役割機能 (精神): RE (50.3 ± 9.2)	49.6 ± 10.4	0.07	-	-	-	
心の健康: MH (49.1 ± 9.9)	50.3 ± 11.2	0.11	-	-	-	
養育負担感						
慢性疾患児の養育負担感 [13-65]	26.3 ± 9.2	-	-0.05	-0.18	-0.32	**
日常生活上の大変さ (5項目) [5-25]	9.3 ± 3.9	-	-0.03	-0.19	-0.28	*
養育上の不安 (5項目) [5-25]	12.2 ± 4.7	-	0.02	-0.17	-0.26	*
社会的役割制限 (3項目) [3-15]	4.8 ± 2.4	-	-0.06	-0.07	-0.36	**
移植患児の養育負担感 [16-80]	36.2 ± 11.0	-	0.01	-0.12	-0.24	*
移植の副作用への不安 (4項目) [4-20]	10.9 ± 3.8	-	-0.09	-0.04	-0.15	
服薬の大変さ (2項目) [2-10]	3.5 ± 1.9	-	0.02	-0.15	-0.06	
病状理解の大変さ (2項目) [2-10]	4.6 ± 2.1	-	0.04	-0.05	-0.12	
他者との情報共有の不安 (4項目) [4-20]	8.4 ± 3.7	-	0.07	-0.14	-0.19	
児の集団生活上の不安 (2項目) [2-10]	4.6 ± 2.2	-	0.01	-0.17	-0.24	*
経済的負担 (2項目) [2-10]	4.1 ± 2.1	-	-0.09	-0.19	-0.10	
全養育負担感 [29-145]	62.5 ± 18.1	-	-0.03	-0.16	-0.30	*
家族機能 (5項目) [0-10]	7.4 ± 2.9	-	-0.09	0.41	0.25	*
ソーシャルサポート: SS						
家族内SS [0-18]	16.0 ± 4.5	-	0.06	0.31	0.04	
所属的サポート (6項目) [0-6]	5.3 ± 1.5	-	-0.04	0.24	0.00	
情緒的サポート (5項目) [0-5]	4.4 ± 1.5	-	0.02	0.34	0.10	
実質的サポート (3項目) [0-3]	2.6 ± 0.9	-	0.12	0.33	0.04	
尊重的支持 (4項目) [0-4]	3.7 ± 1.0	-	0.00	0.37	0.08	
家族外SS [0-18]	13.0 ± 5.2	-	-0.06	0.22	0.24	*
所属的サポート (6項目) [0-6]	4.8 ± 1.5	-	-0.17	0.24	0.16	
情緒的サポート (5項目) [0-5]	3.8 ± 1.7	-	-0.04	0.16	0.28	*
実質的サポート (3項目) [0-3]	1.4 ± 1.3	-	0.01	0.22	0.19	
尊重的支持 (4項目) [0-4]	3.0 ± 1.3	-	-0.12	0.26	0.29	**
全SS [0-36]	29.0 ± 8.2	-	-0.05	0.32	0.21	

養育負担感尺度: 高値ほど養育負担感が高い, Family APGAR; 高値ほど家族機能が良好である, ソーシャルサポート; 高値ほどサポートが高い。

略記: d, Cohen's d ; r_s , Spearmanの順位相関係数; SD, 標準偏差。

() : 年齢・性別調整後基準値, [] : とり得る得点の範囲, * $p < .05$, ** $p < .01$ 。

あった。移植回数は全員1回で、3名は国外での移植であった。

2. 保護者のHRQOL (表2)

PCSは54.1 ± 6.7と基準値より高く、中程度の効果量 ($d=0.34$) があった。また、MCSも50.1 ± 10.9と基準値より高く、小さな効果量 ($d=0.17$) があった。RCSは48.0 ± 11.7と基準

表3. HRQOLのサマリスコアを従属変数とした重回帰分析

	N = 82					
	PCS		MCS		RCS	
	β	p	β	p	β	p
保護者の通院 (臓器提供によるものを除く)	-0.52	<.01	-0.07	.46	0.10	.35
ドナーである	-0.19	.06	0.06	.57	0.13	.24
就労: あり	0.01	.93	0.09	.32	0.16	.17
移植後年数	-0.15	.22	-0.21	.07	0.01	.93
自宅から主なフォロー施設までの時間	0.08	.48	-0.31	<.01	0.01	.91
全養育負担感	0.00	.99	0.08	.47	-0.31	.02
家族機能	0.09	.50	0.57	<.01	0.13	.40
全ソーシャルサポート	-0.12	.41	-0.12	.43	0.02	.90
R^2	0.31		0.36		0.22	
調整済み R^2	0.24		0.29		0.14	
p	<.01		<.01		.02	

β : 標準化偏回帰係数, R^2 : 決定係数

全養育負担感: 高値ほど負担感が高い, 家族機能: 高値ほど家族機能が良好である, 全ソーシャルサポート: 高値ほどサポートが多い。

略記: MCS, mental component summary; PCS, physical component summary; RCS, role/social component summary。

値より低く、小さな効果量 ($d=0.21$) があった。また、PF、BP、GHは基準値より高く、小さな効果量 ($d=0.17\sim 0.26$) があった。

3. HRQOLと保護者・児の基本属性との関連 (表1)

PCSは、臓器提供によるもの以外の理由で保護者が通院している場合に有意に低かった。MCSは自宅から主なフォロー施設までの時間と有意な負の相関 ($r_s=-0.35$) がみられた。

4. HRQOLと養育負担感、家族機能、SSとの関連 (表2)

PCSとの関連はみられなかった。MCSには、「家族機能」($r_s=0.41$)と主に家族内SSと有意な正の相関 ($r_s=0.24\sim 0.37$) がみられた。RCSは、「慢性疾患児の養育負担感」と「移植患児の養育負担感」「全養育負担感」と有意な負の相関 ($r_s=-0.24\sim -0.36$) がみられた。また、RCSには「家族機能」($r_s=0.25$)と家族外のSSと有意な正の相関 ($r_s=0.24\sim 0.29$) がみられた。

5. HRQOLの関連要因 (表3)

臓器提供によるもの以外の問題で保護者が「通院」($\beta=-0.52$)している場合に、PCSは低かった (調整済み $R^2=0.24$)。「自宅から主なフォロー施設までの時間」が長く ($\beta=-0.31$)、「家族機能」が低い ($\beta=0.57$) 場合に、MCSが低かった (調整済み $R^2=0.29$)。そして、「全養育負担感」が高い ($\beta=-0.31$) 場合に、RCSは低かった (調整済み $R^2=0.14$)。

【考察】

本研究では、小児臓器移植患者の保護者のHRQOLの実態と、HRQOLの関連を検討した。本研

究は、日本の小児臓器移植患者の保護者の HRQOL を身体的・精神的・社会的側面より明らかにした初めての研究である。

1. 保護者の HRQOL の実態

身体的健康と精神的健康は基準値以上であったが、社会的健康は基準値より低かった。小児臓器移植患者のケア提供者やドナーを対象とした先行研究では、身体的・精神的健康は共に基準値以上であり^{7, 8)}、類似した結果となった。しかし、児の移植前後にて縦断的に評価した場合、身体的健康は移植後に低下し、移植前の精神的健康は基準値より低く⁷⁾、精神的ストレスは移植後に改善するとされる²⁸⁾。このことから、本研究においてもこれと似た傾向が生じていた可能性がある。また、保護者は児の命に対して感謝の気持ちを抱いたり¹⁰⁾、ドナーは臓器提供を肯定的に捉える⁸⁾とされることから、このような肯定的な感情が保護者の精神的健康に影響したかもしれない。

社会的健康に関しては、本研究において初めて着目され、障害されていることが明らかになった。保護者は、移植患児の健康を維持するために常に責任があると感じる¹⁰⁾とされる。保護者は児を守るために自身の生活を犠牲にしているかもしれない、これにより社会的健康が損なわれた可能性がある。このことから、保護者の身体的・精神的側面だけでなく、社会的側面にも着目する必要性が示唆される。

2. 保護者の HRQOL の関連要因

身体的健康には、臓器提供によるもの以外の「保護者の通院」が関連していたことから、保護者自身の健康状態が重要であると推察される。通院の理由は明らかにできなかったが、通院している保護者の身体的健康は低かった。また、

「ドナーである」ことは有意ではなかったが ($p=0.061$)、身体的健康関連している可能性がある。本研究のドナーの大半は肝臓提供者であったが、診療録を追跡できたドナー34名のうち、臓器提供に関する受診を継続されていたのは1/4であった。肝臓・腎臓のドナーは、術後長期においても合併症を有する^{27, 28)}場合があることから、より長期的なフォローアップが求められるかもしれない。小児患者の療養生活の構築という観点からも、保護者自身の健康状態に着目する必要がある。

精神的健康には家族機能が関連しており、支援的な家族は保護者の精神的健康を向上させていた。小児臓器移植患者の家族は、移植後の生活へ適応する^{15, 16)}ことが明らかになっていることから、本研究において保護者の精神的健康が良好であったことは、家族が保護者にとって支援的な状態となっていたためである可能性がある。日本の小児生体肝臓・腎臓移植では、保護者がドナーとなることが多く、小児患者に加え、家族の中にもう一人患者が生まれることから、家族にもたらす影響はさらに大きいと考えられる。また、本研究では精神的健康は全般的に維持されていたが、その一方でうつや PTSD²⁻⁶⁾を有する場合もあるとされることから、家族機能を高めるための支援は重要である。

さらに、「自宅から主なフォロー施設までの時間」が精神的健康に関連していたことは、新たな知見であった。本研究の対象者は、主なフォロー施設まで平均2時間かかる所に居住しており、多くは移植後引き続き移植施設にてフォローされていた。保護者は、児の発熱や下痢などの非特異的な症状に対してどの医療機関に受診すべきか悩んだり²¹⁾、児に生じた重大な医学

的問題に対する地元の医療施設の対応に不安を抱く²⁹⁾とされる。本研究においても、自宅から主なフォロー施設まで時間を要するほど、不安が増大した可能性がある。

養育負担感は精神的健康に関連しておらず、仮説は立証されなかった。拒絶反応や感染症などの移植に特異的な問題に対する不安^{10, 21)}も、本研究では精神的健康との関連はみられなかった。これは、保護者が移植後の生活における注意点とその必要性を良く理解し適切に対処できていることや、外来診療における主治医や移植コーディネーターによる保護者の精神面へのケア²¹⁾が行われていたことによる可能性がある。移植患児の養育により生じるストレスは、PTSDなどの精神的問題に関連する^{5, 6)}とされることから、移植後特有の問題にも焦点を当てた継続的な専門的支援は重要である。

養育負担感が保護者の社会的健康に関連していたことは新たな知見であった。移植後、保護者は体調管理や感染の防御、服薬管理などを行うためにヘルスケア提供者としての”新たな役割を担い”¹²⁾、その責任は常に伴う¹⁰⁾とされる。さらに、小児臓器移植患者の保護者は、健康な児の保護者よりも日常生活における活動や時間が障害される^{30, 31)}ことが明らかとなっている。また、二変量解析の結果より、移植特有の養育負担感も保護者の社会的健康に重要であると考えられる。社会的健康が損なわれていたことは、これら養育の負担感によりもたらされた可能性がある。

また、家族機能やSSは社会的健康との関連はみられず、仮説は支持されなかった。しかし、二変量解析の結果では社会的健康は家族機能と家族外のSSとの関連がみられたことから、支援

が充実しているほど、養育の負担感が軽減している可能性がある。SSは家族が移植後の生活に適応する上で重要³²⁾とされることから、家族員や学校の教員などの保護者と児の生活において関わりの深い者、さらには臓器移植に対する社会全体の理解は重要な支援となるであろう。

3. 本研究の限界と今後の研究への示唆

本研究に参加した小児患者は比較的全身状態は良好であると推察される。本研究では、重度の医学的状态にある患者の保護者は除外したが、このような保護者においては、HRQOLの実態は異なることが推察されるため、一般化には注意を要する。また、本研究では、生体肝移植患者が多かった。腎臓・心臓移植患者では、移植前に透析や補助循環装置の治療を行ったり、生体以外の移植も行われる。これら医療的背景の違いがHRQOL等の評価に影響を及ぼした可能性があるため、今後はこれらの背景に着目した研究が望まれる。しかしながら、複数の種類の臓器に渡り養育負担感など共通した要因に焦点を当て、重要な要因を明らかにしたことは、本研究の強みと考える。最後に、本研究に用いた「移植患児の養育負担感」尺度の妥当性は検証されていなかった。小児臓器移植患者を養育する保護者の負担感の評価に向け、原版の養育負担感尺度との関連も含めた、尺度の検証が必要である。

4. 臨床への示唆

外来診療において、移植コーディネーターや主治医、外来看護師は、主に小児患者と保護者に直接関わるため、移植後の生活への支援において重要な役割を担っている。本研究において、身体的健康には保護者自身の健康状態が関連していたことから、児の診察時に保護者の健康状態についても把握し、適切なケアへと繋げるこ

とが重要であると考えられる。また、精神的健康には家族機能が関連していたことから、家族が小児患者の経過や治療方針などを共有でき、支援的な状態となるよう、家族全体を視野に入れた働き掛けが重要であろう。さらに、本研究では、自宅から主なフォロー施設までにかかる時間は保護者の精神的健康に関連を有することが明らかとなった。日本の小児臓器移植施設は拠点化が図られていることから、主なフォロー施設のみでフォローされる患者においては、主なフォロー施設は、急変時の連絡の方法や、小児臓器移植患者への対応が可能な自宅近くの施設の準備を行っておくことが重要であろう。また、地元のフォロー施設においてもフォローされている場合には、施設間での情報共有をより充実させていくことが重要であると考えられる。そして、社会的健康の向上には養育の負担感の軽減が関連していたことから、家族や地域から支援は有効な介入の一つと考えられる。外来診療にて関わる専門職は、他の家族員が児の養育を共有できるように介入し、必要に応じて適切なケア・社会資源に繋げることが望まれる。また、地域の理解も重要であろう。特に、患者・家族会のような、経験を共有できる場の構築¹⁰⁾は有用かもしれない。

【結論】

小児臓器移植患者の保護者の HRQOL は、身体的・精神的健康は良好であったが、社会的健康は低かった。保護者の HRQOL の向上には、保護者自身の健康状態に焦点を当てた介入や、家族や社会からの理解・支援の促進、地元の医療施設をも含めた緊急時の対応の構築が重要であることが示唆された。

【謝辞】

本研究は第 49 回 (2013 年度) 公益財団法人明治安田こころの健康財団の研究助成金 (代表者 菊池良太) を受けて行った。本研究に御協力いただいた対象者とスタッフの皆様に心より謝意を表します。多大なる御力添えをいただきました、東京大学医学部附属病院小児外科 岩中督先生、国立成育医療研究センター臓器・運動器病態外科部 金森豊先生、群馬県立小児医療センター 村上新先生に厚く御礼を申し上げます。また、御指導と激励を賜りました東京大学大学院医学系研究科家族看護学分野 池田真理助教、佐藤伊織助教、教室員の皆様に深謝致します。

【引用文献】

- 1) 福寫教偉. 小児臓器移植の最前線: 日本における小児脳死臓器移植の現状と明らかになった課題. 医学のあゆみ 2013;244(10):881-90.
- 2) Diseth TH, Tangeraas T, Reinfjell T, Bjerre A. Kidney transplantation in childhood: mental health and quality of life of children and caregivers. *Pediatr Nephrol* 2011; 26(10): 1881- 92.
- 3) Rossi A, De Ranieri C, Tabarini P, Di Ciommo V, Di donato R, Biondi G, et al. The department of psychology within a pediatric cardiac transplant unit. *Transplant Proc* 2011; 43(4): 1164- 7.
- 4) Young GS, Mintzer LL, Seacord D, Castaneda M, Mesrkhani V, Stuber ML. Symptoms of posttraumatic stress disorder in parents of transplant recipients: incidence, severity, and related factors. *Pediatrics*

- 2003: 111(6 Pt 1): e725- 31.
- 5) Farley LM, Demaso DR, D' Angelo E, Kinnamon C, Bastardi H, Hill CE, et al. Parenting stress and parental post-traumatic stress disorder in families after pediatric heart transplantation. *J Heart Lung Transplant* 2007: 26(2): 120- 6.
 - 6) Fedewa MM, Oberst MT. Family caregiving in a pediatric renal transplant population. *Pediatric Nursing* 1996: 22(5): 402- 7, 17.
 - 7) Hasegawa A, Oshima S, Takahashi K, Uchida K, Ito K, Sonoda T. Improvement of quality of life in tacrolimus-based pediatric renal transplant recipients and their caregivers, including donors. *Transplantation Proceedings* 2005: 37(4): 1771- 3.
 - 8) Kroencke S, Wilms C, Broering D, Rogiers X, Schulz KH. Psychosocial aspects of pediatric living donor liver transplantation. *Liver Transpl* 2006: 12(11): 1661- 6.
 - 9) Raina P, O'Donnell M, Schwellnus H, Rosenbaum P, King G, Brehaut J, et al. Caregiving process and caregiver burden: conceptual models to guide research and practice. *BMC Pediatr* 2004: 4: 1.
 - 10) Green A, Meaux J, Huett A, Ainley K. Constantly responsible, constantly worried, constantly blessed: parenting after pediatric heart transplant. *Prog Transplant* 2009: 19(2): 122- 7.
 - 11) Rodrigue JR, Macnaughton K, Hoffmann RG, 3RD, Graham-Pole J, Andres JM, Novak DA, et al. Transplantation in children. A longitudinal assessment of mothers' stress, coping, and perceptions of family functioning. *Psychosomatics* 1997: 38(5): 478- 86.
 - 12) Stubblefield C, Murray RL. Making the transition: pediatric lung transplantation. *Journal of Pediatric Health Care* 2000: 14(6): 280- 7.
 - 13) Crowley-Matoka M, Siegler M, Cronin DC, 2ND. Long-term quality of life issues among adult-to-pediatric living liver donors: a qualitative exploration. *Am J Transplant* 2004: 4(5): 744- 50.
 - 14) Spurkland I, Bjorbae T, Hagemo P. Psychosocial functioning in children after transplantation of the heart, and heart and lungs. *Cardiol Young* 2001: 11(3): 277- 84.
 - 15) Alonso EM, Neighbors K, Barton FB, McDiarmid SV, Dunn SP, Mazariegos GV, et al. Health-related quality of life and family function following pediatric liver transplantation. *Liver Transpl* 2008: 14(4): 460- 8.
 - 16) Fredericks EM, Lopez MJ, Magee JC, Shieck V, Opiari-Arrigan L. Psychological functioning, nonadherence and health outcomes after pediatric liver transplantation. *Am J Transplant* 2007: 7(8): 1974- 83.
 - 17) Stubblefield C, Murray RL. Pediatric lung transplantation: families' need for

- understanding. *Qual Health Res* 2001; 11(1): 58- 68.
- 18) Uzark K, Crowley D. Family stress after pediatric heart transplantation. *Prog Cardiovasc Nurs* 1989; 4(1): 23- 7.
- 19) 福原俊一、鈴嶋よしみ. SF-36v2™日本語版マニュアル. 京都: 特定非営利活動法人健康医療評価研究機構, 2004.
- 20) 久野典子, 山口桂子, 森田チエ子. 在宅で重症心身障害児を養育する母親の養育負担感とそれに影響を与える要因. *日本看護研究学会雑誌* 2006;29(5):59-69.
- 21) 水田耕一, 浦橋泰然, 井原欣幸, 江上聡, 眞田幸宏, 脇屋太一ら. 【心のケア】臓器移植を施行した子どもと両親への精神的サポート 移植医の立場から. *小児外科* 2012;44(2):152-5.
- 22) Smilkstein G. The Family APGAR: A Proposal for a Family Function Test and Its Use by Physicians. *J Fam Pract* 1978; 6: 1231- 9.
- 23) 国分麻紀, 上別府圭子. 「家族機能尺度の開発」: 日本語版 Family APGAR. 研究代表者 上別府圭子. 周産期からの虐待予防を実現する家族看護技術の確立と医療連携システムモデルの構築 平成 21 年度～23 年度科学研究費補助金 (基盤研究 (B) 21390589) 研究成果報告書. 2013:34.
- 24) 吉田三紀. 小児気管支喘息児を育てる母親のストレスとソーシャルサポート 臨床心理学的地域援助に向けて. *小児保健研究* 2004;63(2):230-8.
- 25) Cohen J. *Statistical Power Analysis for the Behavioral Sciences*. New York, 2009.
- 26) Lobiondo-Wood G, Williams L, Mcghee C. Liver transplantation in children: maternal and family stress, coping, and adaptation. *J Spec Pediatr Nurs* 2004; 9(2): 59- 66.
- 27) Renz JF, Roberts JP. Long-term complications of living donor liver transplantation. *Liver Transpl* 2000; 6(6 Suppl 2): S73- 6.
- 28) Lentine KL, Patel A. Risks and outcomes of living donation. *Adv Chronic Kidney Dis* 2012; 19(4): 220- 8.
- 29) Williams L, Eilers J, Heermann J, Smith K. The lived experience of parents and guardians providing care for child transplant recipients. *Prog Transplant* 2012; 22(4): 393- 402.
- 30) Ngo KD, Farmer DG, McDiarmid SV, Artavia K, Ament ME, Vargas J, et al. Pediatric health-related quality of life after intestinal transplantation. *Pediatr Transplant* 2011; 15(8): 849- 54.
- 31) Bucuvalas JC, Britto M, Krug S, Ryckman FC, Atherton H, Alonso MP, et al. Health-related quality of life in pediatric liver transplant recipients: A single-center study. *Liver Transplantation* 2003; 9(1): 62- 71.
- 32) Lobiondo-Wood G, Bernier-Henn M, Williams L. Impact of the child's liver transplant on the family: maternal perspective. *Pediatr Nurs* 1992; 18(5): 461- 6.