

先天代謝異常症児と家族の生活の医療社会面 および健康関連QOLの実態

—質問紙調査より—

ヤマグチ ケイコ ワキミズ リエ エモリ ヨウコ クボタ ミツル
山口 慶子*1 涌水 理恵*2 江守 陽子*3 窪田 満*4

目的 先天代謝異常症児と家族の生活の医療社会面と健康関連QOLの実態を明らかにし、今後関わっていく患児と家族への理解を深め、必要な支援の方向性の示唆を得ることである。

方法 先天代謝異常症患者登録制度Japan Registration System for Metabolic & Inherited Diseases (以下、JaSMIn) 登録者のうち、調査時点において日本国内在住の7歳以上20歳以下の患児本人ときょうだい、および主たる養育者とその配偶者を対象とした無記名自己記入式質問紙調査を行った。調査期間は平成27年8～11月であった。質問項目は、対象者の生活の医療社会面(患児や家族の生活における疾患や治療に関すること)および健康関連QOLとした。健康関連QOLの測定は、患児およびきょうだいには子どもの健康関連QOLを測定する尺度KINDLを、主たる養育者および配偶者にはWHOQOL26を用いた。

結果 203家族より質問紙の返送が得られ、有効回答は201家族であった(有効回答率37.8%)。主たる養育者が回答した先天代謝異常症児の平均年齢は10.2歳であり、年齢分布は未就学児が3割、小学生が3割、中高生が3割、18～20歳が1割であった。診断分類別に最も多かったのはアミノ酸代謝異常で3割、次いでライソゾーム病が2割、有機酸代謝異常が1割であった。約半数の患児が食事療法を受けており、酵素補充療法・栄養素補充を行っているのはそれぞれ15%程度であった。主たる養育者の平均年齢は、42.2歳であり、約半数が専業主婦で、8割が子育て世代の30～40代だった。主たる養育者の7割以上が同病の会に参加しており、QOL尺度の平均得点は3.1点であった。配偶者の平均年齢は、42.9歳であり、8割が30～40代と働き盛りの世代の父親であった。主たる養育者同様に、9割の配偶者が児の療育に関する不安を抱いており、QOL尺度の平均得点は3.4点であった。患児本人が回答した平均年齢は、12.0歳で性別は男女半々であった。年齢分布は、小学生が約半数、中高生が4割、2名は18歳であった。患児のQOL尺度の平均得点は69.2点であった。きょうだいの平均年齢は、12.7歳で性別は3割が男児であった。6割のきょうだいが患児より年上であった。きょうだいのQOL尺度の平均得点は70.9点であった。

結論 本研究により、患児と主たる養育者のQOLは、既知集団と比べて低い傾向にあり、配偶者と患児のきょうだいのQOLは高い傾向にあるという実態が明らかになった。また、専門医以外の医療者への疾患・治療に関する知識普及が急務であり、ピアサポートを受けていない患児と家族をどのように支援していくか検討する必要があることが示唆された。

キーワード 先天代謝異常症、家族、QOL、医療社会面、ピアサポート

* 1 筑波大学大学院人間総合科学研究科看護科学専攻大学院生 * 2 筑波大学医学医療系小児保健看護学准教授

* 3 同母性看護学・産科学教授 * 4 国立成育医療研究センター総合診療部総合診療部長

I はじめに

先天代謝異常症は、稀少な遺伝性疾患であり、代謝異常により嘔吐や呼吸障害、意識障害を代表とする様々な健康上の問題を引き起こす¹⁾。平成25年度時点で、先天代謝異常症患者は全国で約19,000人と報告されており、厚生労働省の難治性疾患克服研究事業において治療ガイドラインの作成等、疾患の治療に関する研究が進められてきた²⁾³⁾。新生児マススクリーニング検査（以下、NBS）によって発見され、症状を呈す前に治療を開始できた患児は、一見すると健康な子どもと変わらないような在宅生活を送っている。

先天代謝異常児と家族に関する先行研究は、NBSが親の心理社会面に与える影響や、地域保健師のNBSの認知度と家族支援についての研究など、疾患の診断にまつわる支援に焦点が当てられてきた⁴⁾⁵⁾。患児と家族は、診断にまつわる困難を乗り越えた後も、一生涯疾患と付き合い合っていく必要がある。特に、幼少期の急変リスクの不安や情報不足、理解されにくい稀少疾患であることなど、家族の療育負担やQOLは特徴的なものであると考えられる。また、患児の疾患や治療は養育者だけでなく、生活を共にする患児のきょうだいの生活やQOLとも相互に影響し合っていると考えられる。しかし、診断後の児と家族の、疾患や治療に関連した生活の側面やQOLに関する実態調査はこれまでなされてきておらず、疾患や治療にまつわる診断名ごとの経過や症例報告にとどまってお⁶⁾⁷⁾、国内の現状が報告されたことはない。本研究では、患児や家族の生活における疾患や治療に関する側面をまとめて、「生活の医療社会面」と呼ぶ。

そこで、本研究は先天代謝異常症児と家族の生活の医療社会面およびQOLの実態を明らかにすることを目的とした。これらの実態把握により、医療者が今後関わっていく患児と家族への理解を深め、必要な支援の方向性の示唆を得ることが期待できる。

II 方法

本研究は、無記名自己記入式質問紙を用いた横断調査である。調査期間は平成27年8～11月である。

(1) 対象者の選定基準

研究対象者は、先天代謝異常症患者登録制度 Japan Registration System for Metabolic & Inherited Diseases（以下、JaSMIn）に登録しており、調査時点で日本国内にて在宅生活を送る患児本人ときょうだい、および主たる養育者とその配偶者とした。患児本人ときょうだいの年齢は7歳以上20歳以下とした。主たる養育者と配偶者の年齢には制限を設けず、20歳以下の患児を養育している者であれば本研究の対象とした。ひとつの家族における回答者は、質問紙に回答し得る7歳以上の患児本人1名と、同居する最年長のきょうだい1名、主たる養育者と配偶者とし、1世帯当たり最大で4名までとした。患児またはきょうだいが複数名いる場合には、協力の意思のある患児およびきょうだいに回答してもらった。JaSMInに登録されている診断未確定者は、遺伝子解析等による確定診断がついていないが何らかの先天代謝異常症が疑われる者であると考えられるため、本研究では診断未確定者も対象者に含めた。調査時点のJaSMIn登録件数は746件であり、本研究の対象者の選定基準を満たしたのは532件であった。

(2) 質問紙の種類と内容

質問紙は、主たる養育者、配偶者、患児、きょうだいごとに質問紙の種類を定めた。

1) 主たる養育者

質問紙は、主たる養育者本人と患児の属性、生活の医療社会面に関する質問項目、QOL尺度で構成した。患児の属性は、年齢、性別、先天代謝異常症の診断時期、診断名、診断時の症状、治療内容、他の疾患の有無の7項目とした。患児の生活の医療社会面は、入院回数・期間・理由、通院頻度、病識の有無、利用している医

療福祉制度、社会生活状況（学校等への通学状況）の7項目とした。

主たる養育者の属性は、年齢、性別、疾患・治療の有無、就業形態の4項目とした。主たる養育者の生活の医療社会面は、患児の疾患や養育に関する生活上の困りごと・不安、相談者・協力者の有無、患児との親子関係の認識、家族関係の認識、家庭経済状況、療育負担感、育児ストレス、家族エンパワメントの10項目とした。

患児との親子関係の認識、家族関係の認識は「よい（5点）」～「よくない（1点）」の5リカート式とした。家庭経済状況は、「ゆとりがある（5点）」～「苦しい（1点）」の5リカート式とした。療育負担感は、負担の程度を「全く負担でない（1点）」～「かなり負担である（5点）」の5リカート式とした。

育児ストレスは、Abidinらが開発し⁸⁾、兼松らが作成したPSI育児ストレスインデックスショートフォーム（以下、PSI-SF）を用いて評価した⁹⁾。PSI-SFは「子どもの側面」「親の側面」の2つの下位尺度から構成された全19項目の5リカート式の尺度である。得点が高いほど回答者の育児ストレスが高く、日本語版の信頼性・妥当性ともに確認されている¹⁰⁾。

家族エンパワメントは、Korenらが開発し¹¹⁾、浦水らが作成したFamily Empowerment Scale日本語版（以下、FES）を用いて評価した¹²⁾。「家族」「サービスシステム」「社会／政治」の3下位尺度から構成された全34項目の5リカート式の尺度である。得点が高いほど家族エンパワメントが高く、高い信頼性・妥当性が確認されている¹²⁾。

QOLは田崎らが開発したWorld Health Organization Quality of Life 26日本語版（以下、WHOQOL）を用いて評価した¹³⁾。WHOQOLは「身体的領域」「心理的領域」「社会的関係」「環境」の下位尺度および他2項目で評価する「全体」から成っており、全26項目の5リカート式の尺度である。合計得点が高いほどQOLが高いことを示し、高い内的整合性が確認されている¹³⁾。

2) 配偶者

配偶者の属性とQOLは、主たる養育者と同様の内容とした。生活の医療社会面は、患児の疾患や養育に関する生活上の困りごと・不安、相談者・協力者の有無、患児との親子関係の認識、家族関係の認識、家庭経済状況、療育負担感の8項目とした。

3) 先天代謝異常症患児およびきょうだい

患児およびきょうだいの属性は、年齢、性別、きょうだいの人数、出生順位、治療中の疾患の有無の5項目とした。QOLはRavens-Sieberer & Monika Bullingerが開発し¹⁴⁾¹⁵⁾、柴田らが日本語版を作成した子どものQOL尺度Kinder Lebensqualität Fragebogen（以下、KINDL）のKid-KINDL（小学生用）およびKiddo-KINDL（中学生高校生用）を用いた¹⁶⁾。KINDLは「身体的健康」「情緒的Well-being」「自尊感情」「家族」「友達」「学校生活」の6下位尺度から構成され、疾患がある患児の「病気」を評価する尺度「KINDL病気」が付属している。日本語版KINDLは、合計得点が高いほどQOLが高いことを示し、信頼性・妥当性が確認されている¹⁶⁾。

生活上に困りごとが生じた際のサポート対処については、KINDLと同様の回答方式の「いつも（5点）」「たいてい（4点）」「ときどき（3点）」「ほとんどない（2点）」「ぜんぜんない（1点）」の5リカート式で回答を得た。質問項目はKINDLに合わせ「私には困っていることがある」「私には困ったときに助けてくれる人がいる」「私には困ったときに話せる人がいる」「私は困ったときに親に話せる」の4項目とした。

(3) 分析方法

分析方法は、実態調査の結果を示すため記述統計を行い、各値の平均得点±標準偏差（以下、SD）と中央値、人数、割合を算出して表にまとめた。患児およびきょうだいの生活上に困りごとが生じた際のサポート対処の自作4項目については、合計点として扱うことの妥当性を確認するため、内的一貫性の指標としてCronbach's

表1 主たる養育者が回答した患児の属性 (n=201)

(単位 名, () 内%)

調査時の年齢：平均値±標準偏差(中央値)	10.2±5.4歳(10歳)
診断時の年齢：	2.1±3.2歳(0歳)
年齢分布	
0～6歳	60(29.9)
7～12	65(32.3)
13～17	55(27.4)
18～20	21(10.4)
性別	
男性	125(62.2)
女性	76(37.8)
診断分類	
アミノ酸代謝異常	69(34.3)
ライソゾーム病	45(22.4)
有機酸代謝異常	25(12.4)
糖質代謝異常	21(10.4)
ミトコンドリア代謝異常	14(7.0)
金属代謝異常	10(5.0)
ペルオキシソーム病	9(4.5)
脂肪酸代謝異常	7(3.5)
診断未確定	1(0.5)
診断時の年齢分布	
0歳	103(51.2)
7歳まで(累積)	183(91.0)
8歳以降	13(6.5)
診断のきっかけ	
NBS検査 ¹⁾	45(22.4)
症状出現(NBS検査以外)	156(77.6)
治療方法(複数回答)	
食事療法	94(46.8)
酵素補充療法	34(16.9)
栄養素補充	32(15.9)
その他の治療	70(34.8)
その他の治療内訳(複数回答)	
投薬	46(65.7)
コーンスターチ療法	3(4.3)
ケミカルシヤベロン療法	1(1.4)
無回答	20(28.6)

注 1) 新生児マス・スクリーニング検査

のα係数を算出した。有意水準は5%とした。

(4) 倫理的配慮

本研究は、国立成育医療研究センター倫理審査委員会(平成27年3月12日、承認番号2014-04-008)および筑波大学医の倫理委員会(平成27年6月5日、承認番号946号)の承認を得て実施した。JaSMIn登録者の各自宅宛に無記名自記式の質問紙と研究の趣旨と目的、倫理的配慮について記載した説明用紙を同封し、調査結果の報告書の返送を希望する場合のみ氏名と住所を記載してもらった。記載された氏名と住所について、調査結果の報告書の送付以外の目的に使用しないこと、個人情報保護のため厳重に保管すること、研究期間終了後は速やかに処分することを明記した。質問紙の返送をもって調査協力への同意とみなした。使用した尺度については、原作者に使用の許可を得た。

表2 患児の生活の医療社会面 (n=201)

(単位 名, () 内%)

平均値±標準偏差	11.8±15.0回	中央値	6回
年間通院回数分布			
1～12回	158(78.6)		
13～24回	21(10.5)		
25回以上	19(9.5)		
無回答	3(1.5)		
入院経験			
有り	188(93.5)		
無し	13(6.5)		
先天代謝異常症以外の疾患			
有り	50(24.9)		
無し	148(73.6)		
無回答	3(1.5)		
障害			
有り	105(52.2)		
無し	96(47.8)		
障害の種類			
身体障害のみ	9(4.5)		
知的障害のみ	23(11.4)		
重複障害	64(31.8)		
医療社会福祉制度の利用状況(複数回答)			
小児慢性特定疾病医療費助成	155(77.1)		
特別児童扶養手当	76(37.8)		
療育手帳	72(35.8)		
身体障害者手帳	72(35.8)		
その他	32(15.9)		
なし	5(2.5)		
在宅以外の生活の場			
有り	184(91.5)		
無し	11(5.5)		
無回答	6(3.0)		
周囲の人々の患児の病気認識			
知っている	178(88.6)		
知らない	8(4.0)		
わからない	15(7.5)		
周囲の人々の患児についての理解			
よく理解してくれる	47(23.4)		
理解してくれる	112(55.7)		
あまり理解してくれない	19(9.5)		
無回答	23(11.4)		
患児の対人関係についての主たる養育者の認識			
良好	70(34.8)		
やや良好	26(12.9)		
ふつう	64(31.8)		
あまり良好でない	13(6.5)		
良好でない	12(6.0)		
無回答	16(8.0)		
患児本人の病気認識			
認識している	114(56.7)		
認識していない	37(18.4)		
わからない	47(23.4)		
無回答	3(1.5)		
きょうだいの患児の病気認識			
(きょうだいのいる患児：n=150)			
認識している	127(84.7)		
認識していない	15(10.0)		
わからない	8(5.3)		

Ⅲ 結 果

203家族より質問紙の返送が得られた。うち2家族分は、調査時点で患児が入院中であったため分析から除外し、質問紙の9割以上の有効回答は201家族分であった(有効回答率37.8%)。

回答者の内訳は、主たる養育者201名、配偶者122名、患児56名、きょうだい38名であった。

表3 主たる養育者と配偶者の属性

(単位 名, () 内%)

		主たる養育者 n = 201	配偶者 n = 122
年齢分布	平均値±標準偏差(中央値)	42.2±6.5歳(43歳)	42.9±7.0歳(43歳)
	20代	10(5.0)	3(2.5)
	30代	54(26.9)	34(27.9)
	40代	112(55.7)	63(51.6)
患児との続柄	父親	25(12.4)	22(18.0)
	母親	17(8.5)	110(90.2)
現在治療中の疾患	有り	184(91.5)	12(9.8)
	無し	36(17.9)	15(12.3)
就業形態	無し	165(82.1)	107(87.7)
	専業主婦	92(45.8)	4(3.3)
	家事手伝い	2(1.0)	-(-)
	自営業	14(7.0)	15(12.3)
	パートタイム雇用	37(18.4)	7(5.7)
	正社員	45(22.4)	95(77.9)
	その他	8(4.0)	-(-)
無回答	3(1.5)	1(0.8)	

表4 主たる養育者の生活の医療社会面 (n=201)

(単位 名, () 内%)

	n (%)
同病の会への参加状況 (患者会, 親の会)	
参加している	152(75.6)
参加していない	27(13.4)
同病の会の存在を知らない	14(7.0)
同病の会が存在しない	5(2.5)
無回答	3(1.5)
同居家族以外からの患児の療育に関するサポート	
受けている	140(69.7)
受けていない	57(28.4)
無回答	4(2.0)
患児の疾患・療育に関する情報源 (複数回答)	
代謝の専門医	160(79.6)
同病の会	129(64.2)
インターネット	100(49.8)
近所のかかりつけ医	17(8.5)
訪問看護師	15(7.5)
代謝外来の看護師	9(4.5)
地域保健師	7(3.5)
その他	19(9.5)
情報源なし	10(5.0)
患児の疾患に関する生活上の困りごとの有無	
有り	173(86.1)
無し	24(11.9)
無回答	4(2.0)
患児の疾患に関する生活上の困りごと (複数回答)	
外出・外泊時の児の食事に気を遣うこと	107(53.2)
病気や治療に関する情報が少ないこと	102(50.7)
毎日の食事療法が大変であること	82(40.8)
児の成長発達が遅れていること	74(36.8)
病気についての周囲の理解が少ないこと	57(28.4)
児が感染症にかかりやすいこと	47(23.4)
どのような症状のときどう対応したらよいかわからないこと	45(22.4)
病気をよく理解していない医療者に対応されること	44(21.9)
児が入退院を繰り返してしまうこと	31(15.4)
困りごとをすぐに相談できる相手がいないこと	24(11.9)
病気のことで社会的な偏見や差別があること	24(11.9)
その他の困りごと	68(33.8)

(1) 主たる養育者が回答した患児の属性, 医療社会面の実態

患児の平均年齢±標準偏差(以下, SD)は10.2±5.4歳であり, 中央値は10歳であった。年齢分布は0~6歳, 7~12歳, 13~17歳がいずれもおおよそ3割であり, 18~20歳が10.4%であった。患児の性別は, 62.2%が男児であった。患児の診断名を, JaSMInの診断分類に従って8群に分類すると, アミノ酸代謝異常が34.3%, ライソゾーム病が22.4%, 有機酸代謝異常が12.4%であった(表1)。患児の51.8%

表5 主たる養育者と配偶者の生活の医療社会面

	主たる養育者 n = 201		配偶者 n = 122	
	n	%	n	%
生活上の困りごとの相談相手				
有り	171	85.1	79	64.8
無し	26	12.9	32	26.2
無回答	4	2.0	11	9.0
育児の協力者				
有り	166	82.6	88	72.1
無し	29	14.4	24	19.7
無回答	6	3.0	10	8.2
療育負担感の程度				
かなり負担である	16	8.0	6	4.9
負担である	68	33.8	40	32.8
どちらとも言えない	47	23.4	29	23.8
負担でない	36	17.9	22	18.0
全く負担でない	14	7.0	15	12.3
無回答	20	10.0	10	8.2
療育に関する不安の有無				
有り	189	94.0	115	94.3
無し	9	4.5	6	4.9
無回答	3	1.5	1	0.8
療育に関する不安内容 (複数回答)				
今後どのような症状が出るか不安	150	74.6	91	74.6
20歳以降の医療費負担が不安	129	64.2	78	63.9
医療者でもこの病気のことを知らない人が多く急な受診が不安	114	56.7	66	54.1
体調を崩した時に症状が出ないか不安	100	49.8	66	54.1
学校や外出時に症状が出ないか不安	83	41.3	64	52.5
成長発達の遅れが不安	82	40.8	47	38.5
その他の不安	63	31.3	55	45.1
家庭経済状況				
ゆとりがある	16	8.0	6	4.9
ややゆとりがある	27	13.4	16	13.1
ふつう	106	52.7	64	52.5
やや苦しい	27	13.4	16	13.1
苦しい	22	10.9	13	10.7
無回答	3	1.5	7	5.7
患児との親子関係の良好度				
よい	120	59.7	56	45.9
ややよい	22	10.9	16	13.1
ふつう	47	23.4	42	34.4
ややよくない	7	3.5	-	-
よくない	1	0.5	-	-
無回答	4	2.0	8	6.6
家族関係の良好度				
よい	93	46.3	52	42.6
ややよい	38	18.9	16	13.1
ふつう	58	28.9	42	34.4
ややよくない	7	3.5	3	2.5
よくない	2	1.0	-	-
無回答	3	1.5	9	7.4

が0歳時に、就学年齢である7歳までに92.0%が診断を受けていた。調査時点では、造血幹細胞移植後の児1名を除き、他すべての児が治療を受けていた(表1)。年間の平均通院回数±SDは11.8±15.0回であった。患児の93.5%に入院経験があり、先天代謝異常症以外の疾患のある児が24.9%であった。52.2%の児に障害があり、77.1%が小児慢性特定疾病医療費助成制度を利用していた(表2)。

(2) 主たる養育者の属性、生活の医療社会面、QOLの実態

平均年齢±SDは、42.2±6.5歳であり、中央値は43歳であった。主たる養育者の91.5%が母親で、45.8%が専業主婦、17.9%に現在治療中

表6 主たる養育者の育児ストレスと家族エンパワメントの得点

	平均得点±標準偏差(中央値)
育児ストレス (PSI-SF得点 ¹⁾ : n = 191)	
合計	43.9±10.8(42.0)
子どもの側面	21.4± 5.9(21.0)
親の側面	23.5± 6.5(23.0)
家族エンパワメント (FES得点 ²⁾ : n = 166)	
合計	101.5±18.0(101.0)
家族	39.0± 7.3(39.0)
サービシステム	37.8± 7.5(38.0)
社会/政治	24.6± 6.2(24.0)

注 1) PSI-SF: 育児ストレスインデックスショートフォーム
2) FES: Family Empowerment Scale日本語版

表7 患児本人が回答した属性 (n=56)

(単位: 名, () 内%)

年齢	平均得点±標準偏差	12.0±3.1歳	中央値	12歳
年齢分布				
7~12歳	31	(55.4)		
13~17	23	(41.1)		
18~20	2	(3.6)		
性別				
男性	28	(50.0)		
女性	28	(50.0)		
きょうだいの人数	平均得点±標準偏差	1.0±0.7人	中央値	1人
きょうだいの人数分布				
0人	11	(19.6)		
1	27	(48.2)		
2	17	(30.4)		
3	1	(1.8)		
出生順位	平均得点±標準偏差	1.5±1.0番目	中央値	2番目
出生順位分布				
1番目	27	(48.2)		
2番目	21	(37.5)		
3番目	8	(14.3)		

の疾患があった(表3)。75.6%が親の会または患者会などの同病の会に参加していた。児の疾患・療育に関する情報源については、主に代謝専門の主治医や同病の会、インターネットを情報源とみなしていた。86.1%が先天代謝異常症に関する生活上の困りごとを抱えていた。困りごとの内容は、食事療法にまつわることが上位に挙げられていた(表4)。また、94.0%が患児の療育に関する不安を抱えており、今後の症状出現の可能性に関する不安が最も多かった。70.6%が患児との親子関係を、65.2%が家族関係を良好と認識していた(表5)。育児ストレス尺度(PSI-SF)の平均得点±SDは43.9±10.8点で、家族エンパワメント尺度FESの平均得点±SDは101.5±18.0点であった(表6)。WHOQOL26の平均得点±SDは3.1±0.5点であり、中央値は3.1点であった(表10)。

(3) 配偶者の属性、生活の医療社会面、QOLの実態

平均年齢±SDは、42.9±7.0歳であり、中央値は43歳であった。配偶者の90.2%が父親で、77.9%が正社員として働いており、12.3%に現在治療中の疾患があった(表3)。療育負担感の平均得点±SDは3.0±1.2点、中央値は3点であった。94.3%が児の療育に関する不安を抱えており、不安内容の上位は主たる養育者と同様であった。59.0%が患児との親子関係を、55.7%が家族関係を良好と認識していた(表5)。WHOQOL26の平均得点±SDは3.4±0.5点であり、中央値は3.4点であった(表10)。

(4) 先天代謝異常症児本人が回答した属性と生活上に困りごとが生じた際のサポート対処およびQOLの実態

平均年齢±SDは、12.0±3.1歳で中央値は12歳であった。年齢分布は55.4%が小学生、41.0%が中高生、3.6%が18歳であった。性別は男女半々であった。80.4%の患児には1名以上のきょうだいがいた(表7)。生活上に困りごとが生じた際のサポート対処のCronbach'sのα係数は0.80で、平均得点±SDは70.0±24.2

表8 きょうだいの属性 (n=38)

(単位 名, () 内%)

年齢	平均得点±標準偏差	12.7±3.3歳	中央値	11.5歳
年齢分布				
7～12歳			20	52.6
13～17			16	42.1
18～20			2	5.3
性別				
男性			12	31.6
女性			24	63.2
無回答			2	5.3
きょうだいの人数	平均得点±標準偏差	1.6±0.8人	中央値	1人
きょうだいの人数分布				
1人			20	52.6
2人			14	36.8
3人			3	7.9
4人			1	2.6
出生順位	平均得点±標準偏差	1.5±0.6番目	中央値	1番目
出生順位分布				
1番目			22	57.9
2番目			14	36.8
3番目			2	5.3
兄より年上			24	63.2
兄より年下			12	31.6
無回答			2	5.3
現在治療中の疾患				
無し			31	81.6
有り			7	18.4

点であった(表9)。KINDL尺度の平均得点±SDは69.2±14.4点で、中央値は70.0点であった(表11)。

(5) きょうだいの属性と生活上に困りごとが生じた際のサポート対処およびQOLの実態

平均年齢±SDは、12.7±3.3歳で中央値は11.5歳であった。31.6%が男児で、63.2%が患児より年上であった。18.4% (7名) のきょうだいに疾患があった。きょうだいの現在治療中の疾患は自由記載にて回答を得ており、先天代謝異常症が3名、その他3名、無回答1名であった(表8)。きょうだいの生活上に困りごとが生じた際のサポート対処のCronbach'sのα係数は0.77で、平均得点±SDは79.9±16.6点であった(表9)。KINDL尺度の平均得点±SDは70.9±12.5点で、中央値は71.9点であった(表11)。

IV 考 察

各家族員の生活の医療社会面およびQOLの

表9 患児ときょうだいの生活上に困りごとが生じた際のサポート対処

	患児 (n=53)	きょうだい (n=37)
Cronbach'sのα係数	0.80	0.77
平均得点±標準偏差 (中央値) (点)	70.0±24.2 (75.0)	79.9±16.6 (78.1)
範囲	0-100	37.5-100
取りうる値	0-100	

表10 主たる養育者と配偶者のQOL得点

WHOQOL26	平均得点±標準偏差 (中央値)	
	主たる養育者 (n=185)	配偶者 (n=103)
全体	3.2±0.7(3.0)	3.2±0.7(3.0)
身体的領域	2.9±0.5(2.7)	3.5±0.6(3.6)
心理的領域	3.1±0.5(3.2)	3.4±0.6(3.3)
社会的関係	3.4±0.6(3.3)	3.3±0.5(3.3)
環境	3.3±0.6(3.3)	3.3±0.6(3.4)
合計得点	3.1±0.5(3.1)	3.4±0.5(3.4)

注 WHOQOL26: 日本語版WHOQOL26

表11 患児ときょうだいのQOLおよびKINDL「病気」得点

KINDL	平均得点±標準偏差 (中央値)	
	患児 (n=53)	きょうだい (n=37)
合計	69.2±14.4(70.0)	70.9±12.5(71.9)
身体的健康	75.9±19.0(81.3)	77.0±19.3(81.3)
精神的健康	81.5±14.2(81.3)	81.1±13.3(81.3)
自尊感情	51.8±26.0(50.0)	56.9±23.7(62.5)
家族	71.6±20.7(75.0)	73.7±16.6(75.0)
友だち	69.6±20.7(71.9)	77.0±16.1(75.0)
学校	65.7±19.3(68.8)	60.5±19.4(62.5)
病気	75.0±15.1(75.0)	77.5±8.1(83.3) ²⁾

注 1) KINDL: 日本語版Kinder Lebensqualität Fragebogen
2) n=7

実態について考察し、先天代謝異常症児と家族と関わる医療者をはじめとした人々へ向けた支援の示唆をまとめて、本研究の限界と今後の課題を示した。

(1) 先天代謝異常症児

今回分析対象となった先天代謝異常症児の平均年齢は、患者登録データベースJaSMInに登録されている20歳以下の児の年齢9.1±5.5歳(中央値9歳)との差は1.1歳であり、年齢・性別分布も類似傾向にあったことから、おおよそJaSMIn登録者を代表した結果であると考えられた。今回の調査の結果、約2割の患児がNBSによって発見されており、約半数の患児が

0歳時に診断を受けていた。小児慢性疾患患児の平均診断年齢は3.9歳との報告もあり¹⁷⁾、NBSの普及によって早期診断が進められている現状がうかがえた。一方で、約半数は診断時年齢が1歳を超えていたことから、NBSの結果に頼るだけでなく、先天代謝異常症を見逃すことのないよう、日常診療におけるいねいな観察や専門医との連携が重要であると考えられた。先行研究において、先天代謝異常症は小児慢性疾患の中でも1回の通院にかかる往復交通費が10,900~25,000円と、他の疾患と比べて非常に高額であることが報告されており¹⁷⁾、本研究の結果からも年間平均約12回の通院をしていることから、通院の経済的負担が大きい集団であると考えられた。しかし、家庭経済状況については、両親ともに半数以上が「ふつう」~「ゆとりがある」と回答しており、7割以上が小児慢性特定疾病医療費助成制度（以下、小慢助成）を利用していたことから、患児の入院・外来にまつわる医療費助成によって家計が救われている部分があると考えられた。一般に、小児慢性疾患患児の養育者は経済的支援を求めているとされており¹⁸⁾⁻²⁰⁾、基本的には20歳を越えるまでの間は小慢助成を利用し、以降は指定難病医療費助成（以下、指定難病助成）を利用することで家族の経済的負担が最も軽減される²¹⁾。乳幼児医療費助成制度や義務教育就学児医療費助成制度など、子どもの医療費負担を軽減する制度を設ける自治体もあるが²²⁾、小慢助成や指定難病助成には当面の医療費の助成だけでなく、疾患の治療方法の確立や普及、自立支援や研究事業といった長期的に医療を支える重要な側面があり²³⁾、患児と家族にとって最善の制度利用を提案する必要がある。

(2) 主たる養育者

主たる養育者の7割以上が実際に同病の会に参加していた。萬羽らは、アミノ酸代謝異常症をもつ家族の会の参加者を対象とした調査の結果、家族が会に求めることは食事療法に関する情報であり、会について主に情報交換の場として捉えていること、会が家族の心の支えと

なっていることなどを報告している²⁴⁾。主たる養育者の約6割が、同病の会を患児の疾患・療育に関する情報源として捉えていたことから、本研究の結果は、稀少疾患である当該児の養育者のピアサポートニーズ（同じような立場の仲間からのサポートニーズ）の高さを裏付ける結果となった。同病の会を知らない家族に対してニーズに応じて会を紹介するとともに、同病の会が存在しない場合のピアサポートの在り方についても検討する必要があると考えられた。

児の疾患・療育に関する情報源について、多くの主たる養育者が代謝専門の主治医を情報源とみなしている一方で、代謝外来の看護師や地域保健師を情報源と捉えている者は5%にも満たなかった。DeLucaらは、先天代謝異常症スクリーニング陽性児をもつ養育者を対象にインターネット利用とその影響について調査し、養育者の89%が児の疾患に関する情報を得る目的でインターネットを利用しており、医療者は疾患等に関する確かな情報が掲載されているウェブサイトを教え導くという重要な役割を担っていると述べている²⁵⁾。今回の調査でも、現状半数以上がインターネットを情報源として活用しており、疾患や治療に関する正確な情報が得られるウェブサイトを紹介することも、今後の支援において重要であると考えられた。さらに、主たる養育者の半数以上が「医療者でもこの病気のことを知らない人が多く急な受診が不安」であり、「病気をよく理解していない医療者に対応されること」に困っていると回答していたことを踏まえ、主治医である代謝の専門医以外の医療者への先天代謝異常症に関する知識普及が急務であると考えられた。

主たる養育者の育児ストレスは、1歳半の健康児を養育する母親の育児ストレス42.4±8.6点²⁶⁾や、小児慢性疾患であるアトピー性皮膚炎の2~6歳の患児の母親の育児ストレス41.3±10.2点と比べて²⁷⁾、高い傾向にあった。先行研究より、母親が身体的・精神的にどこか不調である場合は、育児ストレスの「子ども」と「親」の両側面においてストレスが高くなることが報告されている²⁶⁾。食事療法を受ける患児

や障害のある患児が、それぞれ約半数いることから、子どもの育てにくさや手がかかることを反映し、「子ども」の側面の育児ストレスが高く評価されたと考えられた。また、主たる養育者のうち、現在治療中の疾患がある者は2割以下であり、受診につながっていない慢性的な身体的・精神的不調が「親」の側面の育児ストレスを高めている可能性が考えられた。立松らは、健康児の母親と比べ、類似の食事療法を受ける食物アレルギー児の母親の育児ストレスが高い傾向にあったことを報告している²⁸⁾。日々の食事療法による疾患管理の苦労が主たる養育者に集中しやすいため、他疾患患児の母親と比べて育児ストレスが高かったと考えられた。

当該児家族の家族エンパワメントについては、国内外ともにこれまで調査はなされておらず、同一疾患の比較はできなかった。家族エンパワメントの「サービスシステム」や「社会・政治」は、特に国や地域によって大きく異なるため、他集団の調査結果との比較は慎重に行う必要がある。国内の報告がある重症心身障害児の家族エンパワメントの平均得点 113.6 ± 14.0 点²⁹⁾と比較すると、当該児家族の家族エンパワメント得点は低い傾向にあった。重症心身障害児は必要とする医療的ケアの多さや訪問看護・ヘルパー等が充分とは言えないまでも活用がなされており^{30)~32)}、稀少疾患である当該児と比べると医療・福祉に関するサポート体制が充実している。一方、当該児は食事療法などの治療が家庭内の機能で完結しやすい特徴があるため、サービス活用に至りにくいことが推察される。また、稀少疾患であるために「児を取り巻く医療社会面へ働きかける力」を持ちにくいことも考えられる。こうした現状を反映し、重症心身障害児家族と比べて家族エンパワメント得点が低かったと考えられた。

類似の食事療法を受ける食物アレルギー児の母親のQOL平均得点 3.4 ± 0.4 点と比べ³³⁾、低い傾向にあった。食物アレルギー患児の食事療法は、ひとつあるいは複数のアレルゲンを食事内容から完全に排除するものであるが³⁴⁾、先天代謝異常症児の食事療法は、様々な食物に含まれ

る必須アミノ酸などの生命維持に欠かすことのできない物質の血中濃度をコントロールするスタイルの食事療法である³⁵⁾。そのため、治療食の献立がより複雑で、日々の食事療法を担う主たる養育者の負担がより大きく、より低いQOLにつながっているのではないかと推察された。

(3) 配偶者

配偶者は、9割以上が有職の男性であり、主に30~40代で構成された働き盛り世代の父親であった。主たる養育者と比較して、配偶者が認識する療育負担感や児の療育に関する不安は低い傾向にあった。主たる養育者の約半数が専業主婦であったことから、患児の療育については家族の中で役割分担がなされており、就業のため児と関わる割合の小さい配偶者の方が、比較的療育負担感が軽度で、関連する不安も低かったと考えられた。小児慢性疾患の子どもを育てる父親に関する研究は、患児の入院に焦点を当てたものが多く^{36)~38)}、在宅生活を送る患児の父親についての知見は乏しい現状にある³⁹⁾。今後は、小児慢性疾患患児の主たる養育者だけでなく家族全体を支援対象として捉えて調査研究にあたり、必要な支援を検討していくことが望ましいと考えられる。また、一般成人男性のQOL平均得点 3.2 ± 0.4 点や¹³⁾、乳幼児をもつ共働きの夫婦における父親のQOL平均得点 3.2 ± 0.4 点と比較すると⁴⁰⁾、当該児の配偶者のQOLは高い傾向にあった。さらに、内田らは家族の絆が強いほど父親の健康状態が良好であることを報告しており⁴¹⁾、今回の調査で配偶者の半数以上が患児との親子関係、家族関係を良好と認識していたことが、高いQOLと関係していると考えられた。

(4) 先天代謝異常症児本人

今回の調査対象となった児は7~20歳であり、患者登録データベースJaSMInの7~20歳の登録者の平均年齢は 12.4 ± 3.8 歳、中央値12歳であり、年齢分布は7~12歳が54.4%、13~17歳が33.3%、18~20歳が12.3%と今回の患児集団

とおおむね同等であった。登録者の性別は男性が61.5%、女性が38.5%であり、今回の患児集団とおおむね同等であった。出生順位は約半数が1番上であり、家族の中で第一子という位置づけの存在であった。約8割の児にきょうだいがおり、半数が家族の中の子どもが児ときょうだいひとりずつであるという家族構成の特性がうかがえた。4つの自作質問項目で構成される生活上に困りごとが生じた際のサポート対処は平均70.0点であり、今回の対象児は生活の中で困っていることがあるときに助けしてくれる人がおり、親に相談できるといった体制が整っている患児集団であることがうかがえた。

患児のQOLを、一般的な小学3年生のQOL平均得点76.9点と比べると⁴²⁾、低い傾向にあった。特に、下位尺度「友だち」と「学校」の得点が低かった。先行研究において、食事療法を行う児の養育者は、患児が大きくなるにつれて健康児と同じものを食べたがったり、きょうだいの食べ物を欲しがり、その対処に悩むことが報告されている³⁷⁾。これらをふまえると、食事療法によって健康児と同じものが食べられないことが、「友だち」と「学校」というQOLの二つの下位尺度得点の低さの背景にある可能性が推察された。加えて、坂本らは小学5年生を対象とした調査において給食の時間を楽しいと感じることがQOLの良さに関連することを報告しており、特に食事療法を受ける当該児にとって給食の時間はQOLに大きく影響する可能性があると考えられた⁴³⁾。

(5) きょうだい

平均年齢は約13歳であり、きょうだいの数は2人以下が約9割を占め、今回のきょうだい集団の特性として、家族の中にきょうだいにとっての同胞が先天代謝異常症児のみであることがうかがえた。きょうだいの81.6%は、調査時点で治療中の疾患はなく健康児とみなすことができた。7人のきょうだいにのみ疾患があり、うち3人は先天代謝異常症であった。生活上に困りごとが生じた際のサポート対処の得点は児よりも高値を示す傾向にあった。井上らは、慢性

疾患患児が入退院を繰り返す場合、その療養を通して家族間の深まりがみられると同時に、きょうだいが「嫉妬感・被害者意識をもつこと」を明らかにしている⁴⁴⁾。しかし、きょうだいのQOL得点は、患児の結果と比べて高く、生活上に困りごとが生じた際のサポート対処の得点も患児より高い傾向にあった。このことは、きょうだいには疾患にまつわる特別なニーズがなく、同一家庭内で共に生活する患児がQOLの比較対象となり、きょうだい自身のQOLを高く認識していた可能性があると考えられた。

(6) 本研究の限界

本研究は、主たる養育者、配偶者、先天代謝異常症児、きょうだいそれぞれが自身のQOLを評価するデザインとした。しかし、本研究では患者登録制度JaSMInの登録者のみを対象としており、サンプル数の少なさから結果の一般化は慎重に行う必要がある。また、患児本人の質問紙において、養育者の意図せぬ疾患告知のきっかけとならないよう配慮し「先天代謝異常症」という言葉を記載しなかったため、本人から得られた情報が限られていたことも限界のひとつである。さらに、調査期間に就学児の夏期休業を含んでいたため、その時期に回答した場合、QOLの「友だち」や「学校」に関する項目に回答しにくかった患児やきょうだいがいた可能性もあると考えられた。

(7) 今後の課題

今回の調査で、稀少疾患である先天代謝異常症の主たる養育者の21.9%が医療者の知識不足に困った経験を持ち、56.7%がそのことに不安を抱いている実態が明らかになった。代謝の専門医以外の医療者の知識普及や、急な受診の際の専門医との連携のあり方について、当該家族の意見に耳を傾け、検討していくことが課題である。また、先天代謝異常症児を養育する家族のQOLの関連要因を探索し、QOL向上のための具体策を検討していく必要がある。

謝辞

本研究は、国立研究開発法人日本医療研究開発機構（AMED）の難治性疾患実用化研究事業「新生児タンデムマススクリーニング対象疾患の診療ガイドラインの改訂、質を高めるための研究（研究代表者 深尾敏幸、研究分担者：窪田満）」の研究費の一部によって行われた。

本研究に快くご協力いただきました、先天代謝異常症のお子さんならびにご家族のみなさまに、心より深く感謝を申し上げます。

文 献

- 1) 遠藤文夫, 山口清次, 大浦敏博, 他. I 総論第1章 先天代謝異常症とは, 先天代謝異常ハンドブック. 東京: 中山書店, 2013: 2-4.
- 2) 平成25年度先天性代謝異常等検査実施状況. 日本マススクリーニング学会ホームページ. (http://www.jsms.gr.jp/download/13_1_20141203_h25.pdf) 2017.3.31.
- 3) 先天代謝異常学会ガイドライン. 日本先天代謝異常学会. (<http://jsimd.net/guideline.html>) 2017.3.31.
- 4) 松本裕子, 但馬剛, 阪本直美, 他. 保健師における新生児マス・スクリーニングの認知度と陽性例への支援について. 日本マス・スクリーニング学会誌 2014; 24(1): 57-66.
- 5) 迫田麻莉, 四元淳子, 山本佳世乃, 他. 新生児スクリーニング陽性・偽陽性という結果が親の心理社会面に与える影響に関する文献的検討. 日本遺伝カウンセリング学会誌 2011; 32(4): 157-67.
- 6) 高橋知男, 山田健治, 虫本雄一, 他. 新生児マススクリーニングで発見された軽症型プロピオン酸血症 有機酸とアシルカルニチンの推移. 日本マススクリーニング学会誌 2013; 23(1): 49-53.
- 7) 重松陽介, 笠川洋子, 家森由香, 他. 日本の新生児マススクリーニングで初めて発見されたプロピオン酸血症患児の療育に関する検討. 福井医科大学研究雑誌 2000; 1(2): 275-82.
- 8) Abidin, R. R. Parenting stress index manual 1st ed. Virginia: Padiatric Psychology Press. 1983.
- 9) 兼松百合子, 荒木暁子, 奈良間美保. PSI育児ストレスインデックス手引き. 東京: 一般社団法人雇用問題研究会, 2014.
- 10) 荒木暁子, 兼松百合子, 横沢せい子, 他. 育児ストレスショートフォームの開発に関する研究. 小児保健研究, 2005; 64(3): 408-16.
- 11) Koren P. E, DeChillo N, Friesen Barbara. J. Measuring empowerment in families whose children have emotional disabilities: A brief questionnaire. Rehabilitation Psychology 1992; 37: 305-21.
- 12) 涌水理恵, 藤岡寛, 古谷佳由理, 他. 障害児を養育する家族のエンパワメント尺度Family Empowerment Scale (FES) 日本語版の開発. 厚生」の指標 2010; 57(13): 33-41.
- 13) 田崎美弥子, 中根允文. WHOQOL26手引改訂版. 東京: 金子書房, 2011.
- 14) Ravens-Sieberer U, Gortler E, Bullinger M. KINDL®Manual revised version. 2000.
- 15) Ravens-Sieberer U, Gortler E, Bullinger M. Subjective health and health behavior of children and adolescents—a survey of Humburg students within the scope of school medical examination. Gesundheitswesen 2000; 62(3): 148-55.
- 16) 柴田玲子, 松嵩くみ子, 根本芳子. 子どもの健康関連QOLの測定—KINDL®QOLの実用化に向けて—. 聖心女子大学論叢 2014; 122: 27-52.
- 17) 原田研介, 野崎貞彦, 大和田操, 他. 小児慢性疾患の実態に関する調査研究平成6年度厚生省心身障害研究親子のこころの諸問題に関する研究報告書 1994; 71-2.
- 18) 羽場敏文, 山崎明子, 中島みゆき. 一保健所管内における小児慢性特定疾患児の実態調査 医療と生活の側面から. 小児保健研究 1998; 57(5): 667-72.
- 19) 鈴木千衣, 小原美江, 及川郁子, 他. 外来通院する慢性疾患児の治療及び日常生活の現状と外来看護に対する家族の認識. 福島県立医科大学看護学部紀要 2003; 5: 57-68.
- 20) 真壁あさみ, 橘玲子, 運上司子, 他. 長期健康問題を持つ子どもの親の相談に関するニーズについて アンケート調査の結果から. 新潟青陵学会誌 2012; 4(3): 111-8.
- 21) 日本難病疾病団体協議会. 難病対策, 小児慢性特定疾病に関する情報. (<http://nanbyo.jp/jyoho/>) 2017.3.31.
- 22) 東京都福祉保健局. 平成27年1月改正後の難病医療費助成(難病助成)・小児慢性特定疾病医療費助成(小慢)とマル障・マル親・マル乳・マル子と

- の併用(3併)について. (<http://www.fukushiho ken.metro.tokyo.jp/iryoo/josei/nannbyousyou mannhei younitsuite.files/nannbyousyoumann-hei you.pdf>) 2017.3.31.
- 23) 小児慢性特定疾病情報センター. 小児慢性特定疾病の医療費助成について. (<http://www.shouman.jp/assist/>) 2017.3.31.
- 24) 萬羽知子, 堀寛恵, 滝沢道太郎, 他. 「アミノ酸代謝異常児を持つ家族の会」について. 埼玉小児医療センター医学誌 1996; 13(2): 81-3.
- 25) DeLuca JM, Kearney MH, Norton SA, et al. Internet use by parents of infants with positive newborn screens. *J.Inherited Metab Dis* 2012; 35(5): 879-84.
- 26) 大橋幸美, 浅野みどり, 門間晶子, 他. 1歳6ヵ月の子どもの行動特徴と母親の育児ストレス・QOL・家族機能との関連. 家族看護学研究 2007; 18(1): 2-12.
- 27) 大矢幸弘. 小児アレルギー疾患におけるQOL調査のValidation. *アレルギー・免疫* 2006; 13(5): 668-75.
- 28) 立松生陽, 市江和子. 食物アレルギー児の母親における育児ストレスと家族対処についての研究. *日本看護研究学会雑誌* 2007; 30(2): 119-28.
- 29) Wakimizu R, Yamaguchi K, Fujioka H, et al. Assessment of Quality of Life, Family Function and Family Empowerment for Families who provide Home Care for a Child with Severe Motor and Intellectual Disabilities in Japan. *Health* 2016; 8(4): 304-17.
- 30) 北住紀美子, 土野につ子, 阪田みゆき, 他. 重度心身障害児の在宅療養におけるレスパイトケアのあり方に関する研究. *日本看護学会論文集. 地域看護* 2014; 44: 27-30.
- 31) 藤岡寛, 涌水理恵, 山口慶子, 他. 在宅で重症心身障がい児を養育する家族の生活実態に関する文献検討. *小児保健研究* 2014; 73(4): 599-607.
- 32) 水戸敬, 高嶋幸男, 末光茂. 重症心身障害児(者)通園事業施行施設への運営体制・状況に関するアンケート調査結果. *日本重症心身障害学会誌* 2013; 38(3): 413-9.
- 33) 秋鹿都子, 山本八千代, 竹谷健, 他. 食物アレルギーを有する子どもを養育する母親のQuality of lifeに関する検討. *日本小児アレルギー学会誌* 2013; 29(2): 169-80.
- 34) 日本小児アレルギー学会食物アレルギー委員会. 食物アレルギー診療ガイドライン2012ダイジェスト版. 第9章治療 食事療法の基本 (<http://www.jspaci.jp/jpgfa2012/chap09.html>) 2017.3.31.
- 35) 位田忍, 酒井規夫, 新宅治夫, 他. 実践! 先天代謝異常症栄養食事指導ケースブック. 東京: 診断と治療, 2014; 14-5.
- 36) 種吉啓子, 中村慶子. 慢性疾患を持つ子どもの入院に伴う父親の思い. *日本小児看護学会* 2003; 12(1): 23-30.
- 37) 梅田弘子, 中村由美子, 杉本晃子, 他. 入院している子どもをもつ家族の特徴 家族機能とソーシャルサポートに焦点をあてて. *日本ヒューマンケアリング科学会誌* 2009; 2(1): 41-8.
- 38) 長尾さつき, 長野文子, 長谷川祐子, 他. 緊急入院した乳幼児に付き添う父親の思い アンケート結果より父親に対する援助を考える. *日本看護学会論文集 小児看護* 2011; 41: 84-6.
- 39) 飯村直子. 小児気管支喘息を持つ学童の父親の思いと行動. *日本赤十字看護大学紀要* 2000; 14: 50-63.
- 40) 岩崎孝子. 乳幼児をもつ共働き夫婦のQOLとスピルオーバーの関係. *国立看護大学校研究紀要* 2007; 6(1): 35-42.
- 41) 内田真依子, 園田悦代, 西藤成雄. 父親が評価する家族機能と子どもの健康問題について 小児科外来クリニックにおけるアンケート調査から. *外来小児科* 2010; 13(2): 109-17.
- 42) 山本理絵. 小学生の心身の健康状態に関する調査研究-不登校意識との関連を中心に-. *人間発達学研究* 2010; 1: 37-52.
- 43) 坂本達昭, 細田耕平. 小学校5年生児童における給食の食べ残しおよび給食の楽しさとQOLの関連性. *栄養学雑誌* 2015; 73(4): 142-9.
- 44) 井上玲子, 津田ひとみ, 佐藤政代. 入退院をくり返す小児慢性疾患患児をもつ家族の療養生活の現状. *東海大学健康科学部紀要* 2007, 13: 29-30.