

研 究

軟骨無形成症をもつ子どもの社会生活と
治療経過について親が抱く認識西村 直子¹⁾, 花木 啓一²⁾

〔論文要旨〕

本研究では、軟骨無形成症をもつ子どもの心理社会的適応と、身近にいる親が抱く子どもの心理社会的側面や治療についての認識がどのように関連するのかについて検討した。また、子どもの性別などの属性や親の身長満足度の視点からの検討も行った。対象は、患者家族会の9~18歳の軟骨無形成症の小児(者)とその親であり、64組から有効回答を得た。結果、「子どもが身長にコンプレックスを感じている」と親が強く認識しているほど、子どもの心理社会指標である身長ストレスとストレス反応は高く、ストレス認知のコントロール性と自己概念は低かった。さらに、親が子どもの学校生活に問題がないと強く認識しているほど、子どもの自己概念が高く、治療中であることへの親の不安が強いほど、子どもの自己概念は低かった。親の身長満足度と子どもの心理社会指標には関連がなかった。また、親が一番不安に思うこととして、小学生、中学生、高校生すべてで、患児の学校生活と将来のことが多くの割合を占めており、受診の際に説明してほしいことは最新の医学情報であると回答していた。以上より、学校生活について、子どもが抱く劣等感について、治療中であることなどへの親の不安要素が子どもの身長ストレスの適応プロセスに関連していることをふまえて、軟骨無形成症をもつ子ども自身の思いを把握し支援していくことが不可欠である。

Key words : 軟骨無形成症, 子ども, 親としての認識, 心理社会指標, 低身長

I. はじめに

軟骨無形成症児(者)は、低身長であること、手足が短いことなどの身体的な特徴から日常的な不便が生じるため、日々ストレスに対応する必要がある。低身長であることで生じる子どもへの影響として、身長の低い子どもや大人は学校で人よりできないことがあり、知的に低いという社会的ステレオタイプ(stature-related stereotypes)が報告されている¹⁾。一般的に子どもは、体格の大きさと年齢を判断される傾向にあり、身長の低い子どもは実年齢よりも幼く見られる傾向にある²⁾。

概念モデルに基づいた質問紙群を用いた調査で、軟

骨無形成症児(者)の低身長に関連した心理社会的適応プロセスについて明らかにされている³⁾。しかしながら、低身長の子どもの心理社会的適応については、親が回答したものが多く、親と子どもの両者に質問をした調査が見当たらないと指摘されている⁴⁾。さらに、慢性身体疾患をもつ子どもの適応モデルにおいて、子どもの適応に関連する社会経済的要因として、家族の適応を挙げている⁵⁾。また、親が「身長が低い」ということをどうとらえるか、自分の身長に対してどのように感じているかが、子どもへの接し方に影響し、子ども自身の身長に対する見方にも影響する可能性があることが報告されている⁶⁾。したがって、軟骨無形成症をもつ子どもの心理社会的適応プロセスには親とし

Parents' Perceptions about the Social Lives of and Medical Treatments for Their Children with Achondroplasia

Naoko NISHIMURA, Keiichi HANAKI

1) 大手前大学国際看護学部(看護師)

2) 鳥取大学医学部保健学科(医師)

[3123]

受付 19. 3. 4

採用 20. 2. 9

ての認識が関連していることが推測される。これまでに、成長ホルモン療法を受ける子どもの親を対象とした調査は散見されるものの^{7,8)}、軟骨無形成症児（者）の心理社会的適応プロセスと親としての認識との関連について検証した調査は見当たらない。

本研究の目的は、子どもの心理社会指標と、身近にいる親が抱く子どもの心理社会的側面や治療についての認識がどのように関連するのかを明確にすることである。さらに、子どもの性別などの属性や親の身長満足度の視点からの検討を行うことで、軟骨無形成症をもつ子どもの心理社会的適応プロセスを支援するために、親を含めた包括的な介入への示唆が得られると考えた。

II. 研究方法

1. 調査対象および調査方法

調査対象は、患者家族会の9～18歳の軟骨無形成症の小児（者）130人とその親とした。患者会の承諾が得られた後、親には、子どもの基本的情報について、また、子どもの心理社会的側面と治療への認識について、子どもには身長ストレスの心理社会的適応プロセスについての心理社会指標8分野から構成される無記名自記式の質問紙に回答を依頼した。調査期間は2011年8～12月であった。質問紙は家族会を通じて対象者全員に郵送され、その際に同封した切手を貼付した返信用封筒での返送により回収した。親と子どもの両者から返送があった73組（男児30人、女児43人とそれぞれの親、回収率56%）のうち、有効回答を得られたのは64組であった。

本研究では、既報で回収した調査票を用いた³⁾。既報では回収した調査票の中で子どもに回答を依頼した子どもの心理社会指標を用い、その心理社会指標間の関連性について報告した。今回の報告では、親に回答を依頼した親としての認識についてと、子どもの心理社会指標とがどのように関連するのかについて解析を行った。

2. 調査内容

i. 親

親としての認識を、「親が抱く子どもの心理社会的側面についてと治療への期待や不安についての認識」と定義した。親としての認識を測定するため Arisaka らが使用した質問紙を用いた⁸⁾。一つの質問項目に二

表1 親が抱く子どもの心理社会的側面や治療への認識についての質問紙

5件法で回答	
1	お子様は（いじめなどなく）ほかの子どもたちと同じように毎日を過ごしている
2	お子様自身は身長にコンプレックスがある
3	社会（学校など）は低身長児に対して配慮してくれている
4	お子様が（身長が低いことで）かわいそうとは思わない
5	身長が低いことをバネにして頑張っしてほしい
6	低身長は友だち関係に影響がある
7	患児には、ほかの子どもと同等に接している
8	患児には、ほかの子どもより厳しく接している
9	お子様の治療に対して選択肢が十分だと感じている
10	受診の際の医師の説明に満足している
11	お薬の効果がある限り低身長はハンディキャップではない
12	毎日の注射はきちんとできている
13	治療を今後何年かにわたり継続することについて、不安はありますか
14	治療終了後の不安はありますか
選択肢から一つ選択する	
15	一番不安に思うことは何ですか
16	最も信頼できる情報源は何ですか
選択肢の中から複数選択する	
17	受診の際詳しく説明してほしいことは何ですか

つの質問内容があるものは、二つに分けた。成長ホルモン療法に特化した次の二つの質問「成長ホルモンに強い期待を持っている」、「毎日の注射について最も心配なことは何か」を除外し、最終的に17項目からなる質問紙を作成した（表1）。質問は、「お子様は（いじめなどなく）ほかの子どもたちと同じように毎日を過ごしている」、「お子様自身は身長にコンプレックスがある」などについて、「大変そう思う（5）」、「少しそう思う（4）」、「どちらでもない（3）」、「あまり思わない（2）」、「全く思わない（1）」の5件法で回答する14項目と、「一番不安に思うことは何ですか」、「最も信頼できる情報源は何ですか」について選択肢の中から一つ選択する2項目と、「受診の際詳しく説明してほしいことは何ですか」について選択肢の中から複数選択する1項目の3項目からなる。親自身の身長への満足度について、「大変満足」、「どちらでもない」、「不満」の3件法で回答を得た。子どもの性別、生年月、身長、成長ホルモン療法や骨延長術の有無などの基本情報について親から回答を得た。

ii. 子ども

身長ストレスの心理社会的適応プロセスは、自記式の質問紙である軟骨無形成症をもつ子どもの心理社会

指標評価質問紙群を用いて評価した³⁾。この質問紙群は身長ストレス, 学校ストレス, ストレス認知 (影響性, コントロール性), コーピング, セルフエフィカシー, ソーシャルサポート, 自己概念, ストレス反応の8分野からなる。質問紙の詳細な内容については, 既報で述べている³⁾。

3. 分析方法

既報³⁾で子どもから回答を得た8分野の尺度それぞれの下位尺度ごとの素点を, 健常小児集団でのSDスコアに換算し解析を行った⁹⁻¹³⁾。身長ストレスについては, 標準身長の高校生92人を対象として調査を行った。有効回答を得た84人 (男児43人, 女児41人) の5つの下位尺度の素点それぞれ, 身体的不便さ (1.2±0.2), 子どもとのかかわり (1.4±0.3), 大人とのかかわり (1.2±0.3), ボディイメージ (1.6±0.4), 親の認識 (1.1±0.2) をもとに軟骨無形成症児のSDスコアを算出した。心理社会指標8分野それぞれの下位尺度の平均値をその心理社会指標の代表値とし, 親としての認識との関連を検討した。子どもの性別と親としての認識の関連には Mann-Whitney U 検定を使用し, 親の身長満足度と子どもの心理社会指標との関連, 親の身長満足度と親としての認識との関連, 子どもが在籍している学校 (小学校, 中学校, 高校) と親としての認識との関連を明らかにするために Kruskal-Wallis 検定を使用した。親としての認識は, 子どもがどの学校に在籍しているかで差はなかったため, 小学生, 中学生, 高校生すべてを合わせて親としての認識と子どもの心理社会指標の関連を検討した。親としての認識と子どもの心理社会指標との関連を明らかにするために, 相関係数 (Spearman's ρ) を使用した。また, 子どもが在籍している学校別での親の不安, 信頼できる情報源, 受診の際の説明は記述統計集計を行った。データ解析には SPSSver.22 for Windows (IBM 社) を使用し, 有意水準は5%とした。

4. 倫理的配慮

本研究は, 鳥取大学医学部倫理審査委員会の承認を受けた (受付番号1727)。対象者には書面で研究の目的, 趣旨, 研究への自由参加, プライバシーの保護, 結果の公表について, また, 本研究活動が患者会とは一切関係がないこと, 研究に協力しないことで不利益を被らないこと, 質問紙の返送をもって研究協力への同意

が得られたものと解釈することを伝えた。

III. 結 果

1. 対象者の基本的情報

親と子どもの基本的情報を表2に示した。

2. 親としての認識や自身の身長満足度と子どもの心理社会指標との関連

子どもの心理社会指標と親が抱く子どもの心理社会的側面や治療についての認識との関連について表3に示した。項目1~10は64組, 項目13, 14は成長ホルモン注射を受けていない, もしくは終了したと回答した5組を除外した59組の関連について検討した。

子どもの身長ストレス+1.4±1.0, セルフエフィカシー+3.0±1.8は健常小児集団と比較して高値であった。「お子様自身は身長にコンプレックスがある」の親の得点が高ければ, 子どもの身長ストレス ($\rho = 0.286, p = 0.022$) とストレス反応 ($\rho = 0.275, p = 0.028$) は高く, ストレス認知のコントロール性 ($\rho = -0.348, p = 0.005$), 自己概念 ($\rho = -0.361, p = 0.003$) は低かった。子どもの心理社会指標の自己概念は, 「お子様自身は身長にコンプレックスがある」を含め親としての認識の3つの項目との関連が有意であった。子どもの自己概念が高ければ, 「お子様は (いじめなどなく) ほかの子どもたちと同じように毎日を過ごしてい

表2 親と子どもの基本的情報

親		平均(標準偏差)	
身長	父親 n=64	169.7 (5.8)	
	母親 n=64	157.1 (5.8)	
身長満足度 (n)			
父親	満足	31	
	どちらでもない	23	
	不満	10	
母親	満足	32	
	どちらでもない	18	
	不満	14	
軟骨無形成症児 (n)			
	小学生	中学生	高校生
男児 (28)	12	10	6
女児 (36)	11	8	17
治療内容 (n)			
治療なし			7
骨延長術と成長ホルモン療法			33
成長ホルモン療法のみ			24

表3 親としての認識と子どもの心理社会指標との関連

	親としての認識		子どもの心理社会指標										
	男児	女児	身長 ストレス	学校 ストレス	影響性	コント ロール 性	コー ピング	セルフ エフィ カシー	ソー シャル サポート	自己 概念	ストレス 反応		
	平均 (標準偏差)		1.4 (1.0)	-0.1(0.8)	-0.1(1.1)	0.1 (0.9)	0.3 (0.5)	3.0 (1.8)	0.4 (0.7)	0.0 (0.8)	0.3 (0.9)		
			平均 (標準偏差)										
1	お子様は(いじめなどなく)ほかの子どもたちと同じように毎日を過ごしている		3.32 (1.16)	3.39 (1.23)	-0.210	-0.145	-0.081	0.175	0.184	0.117	0.108	0.299*	-0.235
2	お子様自身は身長にコンプレックスがある		3.79 (1.10)	3.97 (1.03)	0.286*	0.129	0.207	-0.348*	-0.047	-0.211	-0.243	-0.361**	0.275*
3	社会(学校など)は低身長児に対して配慮してくれている		3.61 (0.88)	3.33 (1.07)	-0.051	0.014	-0.066	0.020	0.054	0.030	0.056	0.220	-0.008
4	お子様が(身長が低いこと)でかわいそうとは思わない		2.11 (1.07)	2.56 (1.18)	-0.012	-0.132	-0.111	0.036	0.137	0.004	-0.005	0.147	-0.119
5	身長が低いことをバネにして頑張してほしい		4.29(0.76)	3.89(0.95)	0.012	-0.070	-0.051	0.113	0.336*	0.067	0.176	0.067	0.072
6	低身長は友だち関係に影響がある		3.07 (1.12)	3.00 (1.35)	0.082	0.040	0.119	-0.133	-0.151	-0.155	-0.166	-0.177	0.160
7	患児には、ほかの子どもと同等に接している		3.79 (1.10)	3.81 (1.22)	0.066	0.159	-0.131	0.175	0.131	0.122	0.248*	0.030	0.091
8	患児には、ほかの子どもより厳しく接している		2.11 (0.96)	2.33 (1.27)	-0.004	0.011	-0.059	0.007	-0.117	-0.097	-0.178	-0.045	0.051
9	お子様の治療に対して選択肢が十分だと感じている		2.29(1.08)	2.14 (1.05)	-0.096	-0.098	0.064	0.009	-0.022	0.058	0.102	0.111	-0.084
10	受診の際の医師の説明に満足している		3.36 (1.10)	3.31 (1.04)	-0.133	-0.144	-0.117	-0.016	0.005	-0.244	-0.255*	0.054	-0.151
13	治療を今後何年かにわたり継続することについて、不安はありますか (n=59)		3.50(1.07)	3.45 (1.00)	0.197	0.323*	0.183	0.091	0.169	-0.075	-0.047	-0.263*	0.317*
14	治療終了後の不安はありますか (n=59)		3.58(0.99)	3.73 (1.01)	0.152	0.098	-0.094	0.072	0.102	-0.105	-0.042	0.035	0.038
11	お薬の効果がある限り低身長はハンディキャップではない (n=49)		1.87 (0.87)	1.69 (0.84)									
12	毎日の注射はきちんとできている (n=45)		4.32 (1.09)	4.13 (1.29)									

項目11, 12は無回答が多く、相関分析からは除外した。

Spearman ρ , * $p<0.05$, ** $p<0.01$

る」の親の得点は高く ($\rho = 0.299, p = 0.016$), 「治療を今後何年かにわたり継続することについて、不安はありますか」の親の得点が低かった ($\rho = -0.263, p = 0.044$)。「治療を今後何年かにわたり継続することについて、不安はありますか」の親の得点が高ければ、子どものストレス反応の得点は高かった ($\rho = 0.317, p = 0.015$)。

子どもの性別ごとでは、親としての認識に有意な差はなかった。親の身長に対する満足度は子どもの心理社会指標、親としての認識いずれとも関連はなかった。

項目11「お薬の効果がある限り低身長はハンディキャップではない」、項目12「毎日の注射はきちんとできている」に対しての有効回答は、64人中それぞれ

49人、45人であり、無回答が多かったため、相関分析から除外した。「お薬の効果がある限り低身長はハンディキャップではない」には「そうでない」と24人(49.0%)が回答し、「毎日の注射はきちんとできている」には「そのとおりである」と27人(60.0%)が回答した。

3. 親の不安、情報源、望む受診の際の説明と子どもが在籍している学校との関連

親より、一番不安に思うこと、主な情報源、受診の際に説明してほしいことについて回答を得た(表4)。一番不安に思うことは、小学生、中学生、高校生すべて、患児の学校生活と将来のことが多くの割合を占め

表4 子どもが在籍している学校別で見た親が持つ不安, 信頼している情報源, 望む受診の際の説明

質問項目	n (%)		
	小学生	中学生	高校生
一番不安に思うこと (n=62)			
相談相手がないこと	0	2 (11.8)	1 (4.3)
費用のこと	0	0	1 (4.3)
病気のことが他人にわかること	0	0	0
患児の学校での生活	15 (68.2)	6 (35.3)	8 (34.8)
注射のこと	1 (4.5)	0	0
薬の副作用のこと	0	2 (11.8)	1 (4.3)
毎日欠かさず注射ができないこと	0	0	0
特になし	0	0	1 (4.3)
その他 本人の思い	0	0	2 (8.7)
その他 将来	6 (27.3)	6 (35.3)	7 (30.4)
その他 合併症	0	1 (5.9)	2 (8.7)
最も信頼できる情報源 (n=63)			
インターネット	1 (4.3)	1 (5.6)	1 (4.5)
同じ病気の子どものもつ知人	11 (47.8)	5 (27.8)	9 (40.9)
医師	10 (43.5)	11 (61.1)	8 (36.4)
看護師	0	0	0
医療関係者の知人	0	0	0
冊子, 本, パンフレット	0	0	2 (9.1)
家族会	1 (4.3)	1 (5.6)	2 (9.1)
受診の際, 詳しく説明してほしいこと (複数選択可) (n=58)			
	(n=20)	(n=17)	(n=21)
今後の治療方針	4 (20.0)	5 (29.4)	8 (38.1)
治療の継続期間	2 (10.0)	0	0
普段の生活での注意点	1 (5.0)	4 (23.5)	5 (23.8)
最終身長について	3 (15.0)	1 (5.9)	2 (9.5)
最新の医学情報	9 (45.0)	8 (47.1)	8 (38.1)
以前治療を受けていた患者の現在	9 (45.0)	3 (17.6)	4 (19.0)
その他	0	0	1 (4.8)

ていた。小学生では, 学校生活と将来のことにほぼ集中しているのに対し, 中学生, 高校生では回答にばらつきがみられた。主な情報源は小学生と高校生では同じ病気の子どものもつ知人 (それぞれ47.8%, 40.9%), 中学生では医師 (61.1%) が最も多かった。受診の際に説明してほしいことは, 小学生, 中学生, 高校生すべてで, 最新の医学情報が最も多くの回答があった。次いで, 小学生では, 以前治療を受けていた患者の現在, 高校生では今後の治療方針となっていた。

IV. 考 察

1. 親としての認識と子どもの心理社会指標との関連

親が自分自身の身長をどのように認識しているかと

いうことは, 子どもの心理社会指標と関連がなかった。それよりも, 「お子様自身は身長にコンプレックスがある」と「治療を今後何年かにわたり継続することについて, 不安はありますか」という親としての認識と, 子どもの心理社会指標とに関連がみられた。芳賀が「軟骨無形成症では顔貌異常や四肢短縮というプロポーションなど体質性低身長とは異なる特徴がある」と指摘しているように¹⁴⁾, 軟骨無形成症をもつ児 (者) にとって, 外見的特徴が特別な意味を持つことが推察される。したがって, 身長に加えて外見に対して子どもがどう感じているのか, 劣等感を持っているのではないかという問題は親にとっても重要になる。このような背景から, 「お子様自身は身長にコンプレックスがある」と親が強く認識していれば, 子どもの心理社会指標の中でも身長に関連したストレスやストレス反応が強くなり, ストレス認知のコントロール性と自己概念は低くなるという結果になったと考えられる。

これまで, 低身長の子どもの心理社会的適応の防御因子として, 支持的な家族の存在が報告されているが¹⁵⁾, 低身長の子どものもつ親の不安要素が子どもの適応と関連があるかの知見は少ない。しかし, 本研究では子どもが身長に劣等感を抱いているのではないかという親としての認識や治療中であるという不安が, 子どもの身長に関連する心理社会的適応プロセスの多くの指標と有意な相関がみられた。このことは親としての認識, つまり不安要素が子どもの心理社会的適応プロセスに関連していることが示唆され, 今後の支援を考察するうえで重要な点といえよう。

子どもの心理社会指標の側面から見ると, 自己概念が「お子様は (いじめなどなく) ほかの子どもたちと同じように毎日を過ごしている」, 「お子様自身は身長にコンプレックスがある」, 「治療を今後何年かにわたり継続することについて, 不安はありますか」の親としての認識の3つの項目と関連があった。中でも「お子様は (いじめなどなく) ほかの子どもたちと同じように毎日を過ごしている」は, 子どもの学校生活への親の懸念を反映していると考えられる。低身長の子どものもつ親への調査で, 学校生活の設備についての多くの問題があるにもかかわらず, 親は設備や学業成績よりも子どもの社会生活についての心配を強調していると指摘されている¹⁶⁾。また, 一見してわかるその外見的特徴により, 子どもとその家族が社会生活や学校生活に適応する際に困難を抱えることや, その体験が

子どもにとって一時的もしくはその後の人生で抱えるトラウマになり得ることが指摘されている^{17,18)}。親の学校生活への懸念が強ければ、子どもが自身をどうとらえているかという自己概念が低かったことから、子どもが学校生活を円滑に送れるように親を支援することが、子どもの学校生活への適応とその後の生涯を考えるうえで重要であると考えられる。

しかし、親としての認識と子どもの心理社会指標との相関が有意であったものの、低～中程度の相関であった。これまで低身長児の心理社会的側面についての調査は児自身ではなく親の回答で行われたものが多く報告されている^{19, 20)}。深川は、成長ホルモン自己注射の是非の認識について、親子間で意見の相違がみられることを指摘している²¹⁾。軟骨無形成症をもつ子どもの支援には、親の影響を加味しつつ子ども自身がどう感じているかを把握する必要がある。

2. 親としての認識と子どもの性別

身長が低い男性は、女性にとって交際や結婚を考える対象になる頻度が少ないという社会的ステレオタイプが報告されている¹⁾。また、成長ホルモン分泌不全症患児の母親は、男児には身長が高くなってほしい、女児の身長は低くてもかまわないという子どもの性別によって異なった意識を持つことが報告されている²²⁾。軟骨無形成症をもつ当事者への調査では、軟骨無形成症をもつ女性は男性より Quality of life (QOL) 得点が高いことが報告されている²³⁾。今回の調査では、軟骨無形成症をもつ子どもを養育する親が持つ子どもへの認識は、子どもの性別によって差を生じなかった。性別と身長に関する社会的ステレオタイプが報告される中、この結果の背景にある要因を明確に特定することはできないが、本症では、治療を受けても男女とも最終身長は著しい低身長に留まること、低身長以外に QOL を大きく左右する四肢の短縮やほかの合併症の存在などが関与している可能性がある。軟骨無形成症をもつ子どもには、健常児と同様に性別に配慮してかわかると同時に、先入観にとらわれず個別に対応する必要があると考える。

3. 親の不安、情報源、望む受診の際の説明と子どもが在籍している学校との関連

これまでの低身長の子どもの親の心理社会的側面については、成長ホルモン療法を受けていることを

前提として調査が行われている^{22,24)}。今回の対象者の約90%が成長ホルモン療法期間中もしくは治療終了者であったが、注射に関する不安を訴えたのは、わずかであった。不安として親が多く訴えていたのは、小学校、中学校、高校をとおして「学校生活について」であった。軟骨無形成症は、低身長の側面が注目されることが多いが、成長ホルモン療法に関する調査が多く報告されている SGA 性低身長などのほかの低身長とは、親の不安の内容が異なることに留意する必要がある。特に、小学生は、保育園や幼稚園とは違い大人数での集団生活を送る最初の段階となる。したがって、交友関係がうまくいっているか、学習についていけているかなど、親の不安が、学校生活に集中するものと考えられる。また、米國小児科学会による軟骨無形成症をもつ小児のガイドラインにあるように、ドアの重さ、ドアノブの高さ、黒板に届くかどうか、台を置く、机のサイズなどを調整する必要がある、トイレを一人で使えるように整備することも含め²⁵⁾、軟骨無形成症をもつ子どもが学校生活を送れるように、学校と連携をとり、学校での生活を問題なく送れるような支援が必要となる。

中学生、高校生となるにしたがって、成長ホルモン療法の期間の終了が近づくことや、骨延長術が終了している場合、今後骨延長術を行うかどうかを検討している場合など、いずれにしても、今後どうしていけばいいのかという不安が生じると考える。また、軟骨無形成症の合併症に大後頭孔狭窄症や水頭症などがあるが、これらをもつ割合は低い²⁶⁾。成長ホルモン療法が終了し、骨延長を行わない場合、継続した医療機関への受診が途切れることから、就職なども含め「将来の不安」への支援が必要となる。

次に、最も信頼できる情報源は、同じ病気をもつ知人に次いで医師が多かった。受診の際に説明してほしいことは、どの学校に在籍している場合でも最新の医学情報が多くを占めていた。軟骨無形成症は約2万人に1人という希少疾患であり²⁷⁾、また、骨延長・成長ホルモン療法など、低身長に対する対症療法のみという現状がある^{28,29)}。医療機関を受診した際に、軟骨無形成症をもつ子どもとその親が必要としている情報を確実に提供する必要がある。課題として、医療機関を受診していない場合が多いことを考慮し、そのような場合でも適切な情報が提供されるシステムを整えることが挙げられる。

V. 結 論

親としての認識の中で、学校生活について、子どもが外見に抱く劣等感について、治療中であることについての親の不安要素が子どもの身長ストレスの心理社会的適応プロセスに関連していることが明らかとなった。しかし、親としての認識と子どもの心理社会指標の関連は有意であったものの、低～中程度の相関であり、親としての認識が子どもの心理社会的適応プロセスに関連することをふまえて、子ども自身の思いを把握し支援していくことが不可欠である。また、ほかの低身長を呈する疾患とは違い、親の関心は成長ホルモン療法よりも「学校生活について」であった。特に小学生では、子どもが学校生活に適応できる支援への優先順位が高い。年齢が上がるにつれて、将来の不安への支援が重要性を増すため、子どもが在籍する学校に応じ、医療機関での適切な情報提供が必要となる。

謝 辞

本研究に理解を示し、ご協力いただきました研究参加者の方に感謝いたします。

本研究の一部は、第62回日本小児保健協会学術集会（長崎）にて発表した。

利益相反に関する開示事項はありません。

文 献

- 1) Sandberg DE, Colman M. Growth hormone treatment of short stature : status of the quality of life rationale. *Horm Res* 2005 ; 63 : 275-283.
- 2) Erling A. Why do some children of short stature develop psychologically well while others have problems?. *Eur J Endocrinol* 2004 ; 151 : S35-39.
- 3) Nishimura N, Hanaki K. Psychosocial profiles of children with achondroplasia in terms of their short stature-related stress : a nationwide survey in Japan. *J Clin Nurs* 2014 ; 23 : 3045-3056.
- 4) Visser-van Balen H, Sinnema G, Geene R. Growing up with idiopathic short stature : psychosocial development and hormone treatment : a critical review. *Arch Dis Child* 2006 ; 91 : 433-439.
- 5) Wallander JL, Varni JW. Effects of pediatric chronic physical disorders on child and family adjustment. *J Child Psychol Psychiatry* 1998 ; 39 : 29-46.
- 6) Busschbach JJV, Hinten M, Rikken B, et al. Some patients with idiopathic short stature see their short stature as a problem but others do not : why this difference?. Eiholzer U, Haverkamp F, Voss L, eds. *Growth, stature, and psychosocial well-being*. Seattle/Toronto, Hogrefe & Huber Publishers, 1999 : 27-35.
- 7) Visser-van Balen H, Geene R, Kamp GA, et al. Motives for choosing growth-enhancing hormone treatment in adolescents with idiopathic short stature : a questionnaire and structured interview study. *BMC Pediatr* 2005 ; 5 : 15.
- 8) Arisaka O, Koledova E, Kanazawa S, et al. Discrepancies between physician and parent perceptions of psychosocial problems of GHD children undergoing GH therapy in Japan. *Clin Pediatr Endocrinol* 2006 ; 15 : 163-176.
- 9) 坂野雄二, 岡安孝弘, 嶋田洋徳. パブリックヘルスリサーチセンター版ストレスインベントリーマニュアル 小学生用・中学生用・高校生用. 東京:実務教育出版, 2007.
- 10) 嶋田洋徳. 小中学生の心理的ストレスと学校不適応に関する研究. 東京:風間書房, 1998.
- 11) 小澤永治. 思春期における不快情動への態度とストレスの関連. *心理研* 2010 ; 81 : 501-509.
- 12) 三浦正江, 坂野雄二, 上里一郎. 中学生が学校ストレスに対して行うコーピングパターンとストレス反応の関連. *ヒューマンサイエンスリサーチ* 1998 ; 7 : 177-189.
- 13) 眞榮城和美. 改訂・自己知覚尺度日本語版作成一児童版・青年版・大学生版を対象として一. *心理研* 2007 ; 78 : 182-188.
- 14) 芳賀信彦, 滝川一晴, 中村 茂, 他. 軟骨無形成症患者の社会生活 就学・就職状況に関するアンケート及び社会生活能力検査. *総合リハ* 2001 ; 29 : 1147-1150.
- 15) Noeker M, Haverkamp F. Adjustment in conditions with short stature : a conceptual framework. *J Pediatr Endocrinol Metab* 2000 ; 13 : 1585-1594.
- 16) Ablon J. *Living with difference families with dwarf children*. New York : Praeger Publishers, 1988.
- 17) Pauli RM, Legare JM. *Achondroplasia*. 1998

- Oct 12 [Updated 2018 May 10]. In : Adam MP, Ardinger HH, Pagon RA, et al., editors. GeneReviews® [Internet]. Seattle (WA) : University of Washington, Seattle : 1993-2019. <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/books/NBK1152/>
- 18) Ablon J. The nature of stigma and medical conditions. *Epilepsy Behav* 2002 ; 3 : 2-9.
 - 19) 田中敏章, 堀川玲子, 小川憲久, 他. 日本人SGA性低身長児に対する長期間の成長ホルモン治療による心理社会的側面の改善—無作為化試験—. *日成長会誌* 2016 ; 22 : 77-86.
 - 20) 高橋 亮, 長田久雄, 横谷 進, 他. SGA性低身長児における成長ホルモン治療効果の心理社会的特徴に関する検討. *日成長会誌* 2011 ; 17 : 77-83.
 - 21) 深川あきえ. 成長ホルモン注射治療における自己注射の現状. *日看会誌* 2006 ; 16 : 170-176.
 - 22) 市江和子. 成長ホルモン分泌不全低身長症患者の母親の治療継続に関する研究. *日看医療会誌* 2008 ; 10 : 37-43.
 - 23) Gollust SE, Thompson RE, Gooding HC, et al. Living with achondroplasia in an average-sized world : an assessment of quality of life. *Am J Med Genet Part A* 2003 ; 120A : 447-458.
 - 24) 竹田和子, 服部ふみ, 鈴木恵美子, 他. 地域中核病院における子どものこころの支援のあり方に関する研究. *こども医療センター医誌* 2009 ; 37 : 186-189.
 - 25) Trotter TL, Hall JG, American Academy of Pediatrics Committee on Genetics. Health supervision for children with achondroplasia. *Pediatrics* 2005 ; 116 : 771-783.
 - 26) Wright MJ, Irving MD. Clinical management of achondroplasia. *Arch Dis Child* 2012 ; 97 : 129-134.
 - 27) Waller DK, Correa A, Vo TM, et al. The population-based prevalence of achondroplasia and thanatophoric dysplasia in selected regions of the US. *Am J Med Gene* 2008 ; Part A 146A : 2385-2389.
 - 28) Kim SJ, Balce GC, Agashe MV, et al. Is bilateral lower limb lengthening appropriate for achondroplasia? : midterm analysis of the complications and quality of life. *Clin Orthop* 2012 ; 470 : 616-621.

- 29) 立花克彦, 諏訪城三, 西山宗六, 他. 全国調査に基づいた軟骨無形成症患者の身長への検討. *小児科診療* 1997 ; 8 : 1363-1369.

[Summary]

We investigated the relationships between the psychosocial profiles of children with achondroplasia and the perceptions of their parents about their children's psychosocial problems and treatments. We also examined how each parent's perception was associated with both child's gender and with their parents' satisfaction regarding their height. The participants were sixty-four 9-to 18-year-old children with achondroplasia and their parents. We found that parents' perception of the statement, "Your child has an inferiority complex," was positively associated with both short stature-related experience and stress response in their children's height-related psychosocial profiles, and negatively with control appraisal and self-concept. In addition, a more positive self-concept in children was associated with more positive parent perceptions about their children's school life and with lower anxiety about their children's condition under medical treatment. There was no association between parents' satisfaction with their height and their children's psychosocial profiles. Much parental anxiety concerned their children's school lives and future outlook, regardless of school grade. Moreover, the most frequent request by parents of school-aged children with achondroplasia was for an explanation of the condition at the time of diagnosis, based on the most up-to-date information. Therefore, it is essential for healthcare staff to understand that parents' perceptions about their children's school lives, possible inferiority complexes, and anxiety concerning medical treatments, are related to the process whereby their children adapt to their stature. Finally, it is crucial to understand and support the feelings of children with achondroplasia.

[Key words]

achondroplasia, children, parent's perception, psychosocial profiles, short stature