

血友病患者によるきょうだいに関する感情と経験及び遺伝に関する意識

北村弥生* 上田礼子** 柿沼章子***

Feelings, Experiences on Siblings and Perception of Heredity on Patients with Hemophilia

Yayoi KITAMURA*, Reiko UEDA**, Akiko KAKINUMA***

Abstract

Two adult patients with hemophilia were interviewed about feelings and experiences about their siblings and perception of hereditary disease. Following results were obtained, 1) patients noticed that mothers paid more attention and spent a lot more time for patients compared to other siblings, and the conflict between patients and siblings continued until they are grown-up, 2) one of patients heard his sister's worries on her life plan because it was uncertain whether she would have succeeded the family's estate, 3) patients expected their mothers to manage the relationship between patients and siblings and their fathers to coordinate the family dynamics smoothly, 4) patients did not have negative perception on hereditary disease, and 5) patients requested to have general information on the carrier status for themselves and their siblings during their young days. These results suggest that 1) information on hemophilia and counseling on the carrier status should be provided for patients and their siblings, and 2) empowerment programs for parents should be provided to manage the family relationship harmoniously.

キーワード：母子関係、遺伝性疾患、HIV

Key words: maternal and child relation, hereditary disease, HIV

2011年11月30日 受付

2012年9月12日 採択

1. はじめに

慢性疾患患児（者）及び障害児（者）のきょうだいには多様な課題があることが知られている。例えば、親の関心が患児に集中するための寂しさ、疾患に関する情報不足による必要以上の不安、学校や地域で出会う偏見、親亡き後の後見の負担などである^[1,2]。きょうだいの課題に関する先行研究は、母親ときょうだいを対象にした研究が多く^[3-6]、患児を対象にした研究は見当たらない。理由の第一は、きょうだい研究のうちの

多くを占める知的障害と自閉症では、患児の言語能力の制限のために、患児に対する調査は困難だからである。理由の第二は、小児がん患児など調査に回答が可能な場合には、患児がきょうだいの課題の原因となっていると責めることになる危険があるために、調査後に患児に対する支援が保障できなければ調査を実施できないためである。

しかし、患児からきょうだいへの感情と経験及び有効な対処方法を知ること、患児ときょうだい双方の

* 国立障害者リハビリテーションセンター研究所障害福祉研究部

** 沖縄県立看護大学保健看護学研究所

*** 社福) はばたき福祉事業団

* Department of Social Rehabilitation, Research Institute, National Rehabilitation Center for Persons with Disabilities

** Okinawa Prefectural College of Nursing, Graduate programme of Health and Nursing

*** Social Welfare Corporation HABATAKI Welfare Project

健康な発達のために重要であると考え。なぜならば、きょうだい関係は双方向から考えるべきだからである^[7]。例えば、中途視覚障害者に対する調査によれば、きょうだいに期待することは物質的・経済的な支援ではなく情報提供や精神的な支援であった^[8]。これは、先天性の知的障害者のきょうだいが親亡き後の後見を親から期待されるのとは異なる^[9]。つまり、患者の意見を聞かない、あるいは、聞けないために、きょうだいは必要以上に負担を感じている可能性があると考えられる。

また、寛解期の小児がん患者の会合で、筆者が非公式に「きょうだいについての意識」を質問した際には、「入院時に親を独占して後ろめたい」「社会生活での助言は、親は患者の利益を第一にするのに対して、きょうだいは患者の利益よりも正義を優先させる場合があること」が回答された。これらは、共に、患児の心理的支援あるいは家族全体への支援を検討する必要があることを示唆している。

きょうだいの課題の中で家族全体に関係があり、かつ専門性を必要とされる課題の一つに遺伝性疾患に関する情報不足がある^[10]。家族による血友病に対する姿勢により伝達される情報が異なるために、きょうだいだけでなく患者にも保因者状況の情報提供が必要だと指摘されている^[11,12]。きょうだいに、誰が、いつ、どのように、遺伝・検査・疾患及び社会資源に関する情報提供を行うかも手引きはあるが規則はなく、国や民族により差がある^[13,14]。日本では、遺伝するとは限らない障害であっても、障害児を生んだだけで離婚に至ることが、かつては多かったことなど^[15]、遺伝性疾患への抵抗が家族制度との関係で強いことは指摘されている^[16]。

そこで、本研究では、老年期の血友病患者2名を対象に、1)きょうだいに対する感情と経験、及び2)遺伝に関する知識と意識を知ることがを目的に調査を行った。血友病は血液凝固因子活性の欠乏により血液凝固過程が遅延するX連鎖劣性遺伝の病気である。出血症状は生涯にわたり反復し、関節・筋肉出血等激しい痛みを伴い、頭蓋内出血など致死的な出血もありうる。しかし因子補充による止血療法は極めて有効で、近年は予防投与療法と包括医療の進歩により、患者のQOLは劇的に向上したと報告されている^[17]。また、1980年代には、非加熱の血液製剤にHIVウイルスが混入し、血友病患者約1500人がHIV感染し、HIV感染の有無に関わらず血友病患者と家族の生活に大きく影響した^[18]。

血友病を選んだ理由は3つある。第一は、対象者の幼少時に、血友病は慢性的痛みにより通院や家族によ

る見守りの頻度が高く、親の関心が集中することが予測されるからである^[19]。親の関心が集中したことを患児が意識したか、どう対処したかを明らかにすることが第一の目的である。

第二は、血友病は伴性劣性遺伝する遺伝性疾患であるために、女性きょうだいは保因者である確率が二分の一であることが、教科書に掲載されるなど一般にもよく知られているからである。「男性血友病患者の子どもは、配偶者が血友病または保因者でない限り血友病を発病しないが、きょうだいの子どもは血友病を発病する可能性があることを、患者がどのように考えるのか」「母親から患者への遺伝を患者はどのように考えるか」「患者自身の子ども(娘)は保因者になることを患者はどのように考えるか」を明らかにすることが第二の目的である。そこで、女性きょうだいのいる血友病患者の紹介を当事者が関わる組織に依頼した。

第三は、1980年代前半の薬害HIV事件が感染の有無に関わらず血友病患者の多くに大きな影響を与えたことは多くの著作が示しているが^[20]、きょうだい関係への影響についての患者による記載は少ないため、記録に留めることを目的とした。

2. 対象と方法

女性きょうだいのいる老年期血友病男性2名(60歳代)を対象に、振り返り法により、幼少期以降のきょうだいへの感情と経験、患者自身の疾患に関わる知識と意識について半構成法による面接調査を行った。対象者は、(社福)はばたき福祉事業団に、薬害HIV事件に関する話題も含めて回答することに精神的負担が比較的少ないと考えられる成人期または老年期の血友病患者の紹介を依頼した。はばたき福祉事業団は、東京HIV訴訟原告団を基に、薬害エイズ被害者の救済事業を行うために設立され、HIV感染者や血友病患者等の身体障害者の更生相談事業や感染者の遺族に対する相談・支援や調査研究、教育啓発等の公益事業活動を行う組織であるため、薬害HIV事件に関わる血友病患者の状況を最も把握している組織のひとつであると考えられるからである。

調査内容は、家族構成、血友病と遺伝について患者が受けた説明、きょうだいの課題と対処方法、薬害HIV事件当時のきょうだいとの関係、患者の結婚と子どもの遺伝に関する意識、母親から遺伝することについての意識、保因者検査についての意識とした。

本研究は、国リハの研究倫理審査委員会の承認を得て実施された。面接調査は、それぞれ2時間から3時間で、録音を逐語訳したデータから、きょうだいの課

題を抽出した。調査対象者2名に、発表原稿の確認を依頼したところ、文言の修正を得るとともに、ホームページでの掲載も含めて公表に了解を得た。

3. 結果

調査内容に対応した回答を以下にまとめて記載した。引用に関しては、・・・は省略を、() 内の記載は筆者による補足を示している。

3. 1. 家族構成と属性

図1に事例A、Bの家系図を示す。事例Aは、配偶者と2人暮らしで、子どもはなく、凝固活性は低く重度であった。きょうだいは姉1人で、母方の祖父も血友病であった。姉は結婚し、姪は30歳代で未婚であった。姉は結婚前に、凝固因子活性検査により保因者であると言われていた。

事例Bも子どもはなく、離婚後、母親と2人暮らしであった。きょうだいは、姉と妹の2人で、親族に血友病患者はいなかった。姉は結婚後に凝固因子活性検査を受け、2人の娘のうち一人の子ども(事例Bの姉の孫)が血友病と診断された。事例Bの凝固活性は軽度であった。

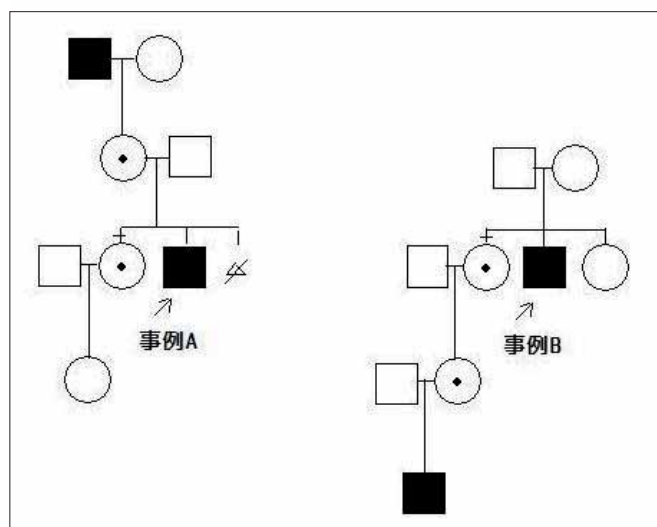


図1 事例A、Bの家系図

事例Bの回答によれば、事例Bの母親は保因者ではないとのことであったため、図では保因者としなかった。保因者検査を行った否かは不明である。

両者ともに専門的な職業に就き、予防投与法により調査時には慢性的な痛みはなかったが、関節拘縮があった。また、両者共に子どもはなく、きょうだいとの関係は「あまりよくない」と回答し、きょうだいに対する面接調査は実現しなかった。事例AはHIV陽性であり、事例Bは陰性であった。

3. 2. 親の関心の患児への集中

事例AもBも、親の関心と時間が患児に集中していたことを意識し、きょうだいの生活に影響があったこと、きょうだい間の葛藤は調査時にも続いていることを回答した。事例Aでは、きょうだい間で感情をぶつけあうことはあるものの解決には至っていなかった。一方、事例Bでは、きょうだいは成人してから繰り返し母親に対し不満を訴えたが、患者には訴えないと回答した。また、事例A、Bともに、きょうだい間の葛藤の原因を患者や母親だけの責任と捉えずに、病気を家系に伝わる特性と考え、きょうだいの性格にも言及した。

(引用1)

B：姉は性格がのほほんとしていて、わたしに親が手をかけていて、あまり世話をしてもらえないのは平気だったと思うんですが、妹はやっぱりちょっと性格がゆがみましたね。

調査者：自分に手がかかっていて、きょうだいへはお留守になっているという意識は、当時、ありましたか？

B：うん、ありました、もちろん。

調査者：ありました。ちょっと悪いとか。

B：うん、何となく。いや、それはえらい気の毒だなと思いましたよ。だってかかり切りになっちゃうわけでしょう。妹はやっぱり小さかったから、当時はね。ちょっとかわいそうだったかもしれない。親はわたしにかかり切りになることが多くて、何せ三分の一寝てるような感じでしょう、一年のうち。「お手伝いさんに育てられた」とかって今でも時々何か機嫌が悪いときに言いますから・・・。

調査者：妹さんは言うんですね。

B：言いますよ、今でも。不機嫌になると、親に。親とはやるんですよ、結構。親子げんか有的时候には「ひどい目に遭わされた」とか今でも言うらしいです。僕には言わない。・・・あんまりそんなふうに関係を責めるなって言うんですけど、始まっちゃうと止まらないみたい。・・・今でも抑圧してるかもしれないね、その感情をね、妹は多分ね。わたしには言わないというのは、そういうことなんじゃない？ わたしは本当に勉強のことで親に心配かけたことはなかったし、いい子で育っちゃったもんだから、面白くなかったかもしれないですね。

調査者：いい子だったんですか。妹さんはどんなふうに関係がよくなるようになったんでしょう。

B：妹はよく不登校をしたり遅刻をしたりとか、学校生活がだらしなくて、よく呼び出しを受けたりとかし

て(笑)。結構親は大変だった、そういう意味でね。
調査者：お姉さんに問題が起こらなかったのは、何か違いが。
B：性格の違いでしょう。

(引用2)

調査者：「なんで僕はこの病気なんだ」「お母さんのせいだ」という人も中にはいると聞きますがいかがでしたか。
A：それってね、姉とけんかしたときに言ったかもしれないな。
調査者：お姉さんとのけんかで。
A：「僕はこんな体になって生まれたんだから」って。何か、(姉が)「両親が甘いから」とかって。
調査者：「甘いのは当たり前だ。しょうがないことだ」と。
A：うん。だからいつぐらいの話だったかな。・・・高校2年ぐらいからずっと休みがちで。そのときかもしれないね。

(引用3)

調査者：逆にAさんからごらんになって、お姉さんが我慢してきたのを感じて、申し訳ないとか、そういうことを考えることはありますか。
A：小さいときにね、なぜ姉だけ一人(で、)叔父の家族と(祖母が連れて)一緒に旅行をしなくちゃいけないのかというのは、まあそれは我慢させられたのかなと。
調査者：血友病は、ご家族の中で、Aさん一人の問題じゃないんですね。おじいさんからきているから、「Aさんのせいで」というふうに考えないんですね。
A：だからたぶんおばあさんも、こっちの血友病持った孫は大変だから、姉のほうはこっちで引き受けて。
調査者：ちょっと助けてあげよう。
A：そういう感じだったんだろうと思うんですね。

3. 3. きょうだいに関して患児が意識する課題

患者が意識したきょうだいに関する課題には、前の項でとりあげた「親の注意が患児に集中すること」の他に、「きょうだい患児の分も達成することを期待されること」「財産を病気に関わることで使われること」「家を誰が継ぐのかははっきりしないこと」などが回答内容であった。

(引用4)

調査者：Aさんが弱くて早く死んじゃうかもしれない

と思われていると、お姉さんが「その分頑張りなさい」というふうに期待されていたという感じはあるのですか。
A：それはありますよね。だから、大学までという感じで。

(引用5)

調査者：きょうだいのことでこれまで嫌だったり、困ったことはありますか。あるいは悪いなと思ったことはありますか。
A：一つは血友病を持っていることに対して、ときどき話するんですけど、「本来なら自分(姉)の所に来べきいろいろな資産とかそういうのが来ないんじゃないか」というような「少なくなっちゃったんじゃないか」というね。
調査者：お金かかる病気だから。
A：医療費だけでなく、車買っちゃったりとか。引越しをしたり。
調査者：ああ、そういう回りのことを全部含めると。
A：わりと性格的に(笑)。これは性格の問題だからあれですけど、ずけずけ、ずけずけという人なので。
調査者：仲は良くないんですか？
A：仲が悪くなったのは、そういうこともあるんですけど、もしかして(姉は)自分が後を継げるんじゃないかと思ったんですね。
調査者：体の弱い子だから。
A：たぶん死んじゃうと思って。そうしたら結婚して、また結婚してもそんなに長く生きないんじゃないのと思ってたのかもしれないです。
調査者：きょうだいが強くて患者を傷つけたという話は、あまり文献にはないんですが。
A：結構あると思うんですけどね。家族間で。

3. 4. きょうだいの課題への対処方法

きょうだいの課題に対する患者による具体的な対処方法は回答されなかった。望ましい対処方法として、母親と父親に対処を求めたことは、事例AとBに共通していた。例えば、子どもの性格に合わせた母親による育児方針、母親による疾患に関する情報提供、母親によるきょうだい間の葛藤の調整、父親による家庭内の調整が述べられた。また、学童期きょうだいを対象としたグループワーク^[2]に関する情報提供にも関心を示した。

(引用6)

調査者：そのときお母さまが、もうちょっと時間を妹

さんにかけてれば、解決していた問題だと思われませんか？

B：それだけの問題ではないような気が、親の接し方にも問題があったような気がしますけれどね。親の子育てがよくなかったのかなっていう気もしなくはない。

調査者：Bさんには（親の接し方は）別に悪くなかったけど。

B：悪くなかったっていうか、僕は病気のことだけですから、心配かけたのは。

調査者：妹さんに対しては、どういう点が変わったらよかったですか。

B：うーん、一般の子育ての問題ですかね、きっとね。

（引用7）

調査者：きょうだいには親の関心が向かなくなる。どうしても病気の子どもばかりに集中するので、寂しさがあるというのはよく言われているんですが。

A：それはあるんだろうと思う。・・・そこは父親の、家庭内を調和させるための役割が一つあるのではないかと。それが、（父親は）孤立していたと、逆に。

調査者：お父さん気の毒だなとか、何していいかわからないんだなというのを感じることはありましたか。

A：大きくなってからですね。

調査者：自分の家庭と比べると、お父さんいろいろ発言権少なかったとかということですか？

A：何も権限なかった。だから今考えると、一番かわいそうだったかなと。

（引用8）

調査者：もっとうまくいきたいと思います？お姉さんと。

A：今になるとあれですけど、やっぱり小さいときに、そういう遊びの中でこう（きょうだい支援のグループワークを）やるとかね。

調査者：同じようなお姉さんで悩んでいる小さな子どもがいたら、何かアドバイスありますか。

A：そこは親がやはり毅然とした方がいいですね。・・・「この子はこういう病気なんだから」ということで。まあ「我慢しなさい」というのではなくて、やっぱり事実をちゃんとやって。親が情報提供をきちっとしないことによって問題になるわけで。・・・ある一定の年齢までは、やっぱり親がしっかりリードしていくというのは必要なんじゃないかなと。

3. 5. 薬害HIV事件についてのきょうだいとの会話

事例A、Bともに、薬害HIV事件、患者の感染の有

無、患者の健康状態、家族としての注意事項については、患者ときょうだいが直接に話すことはなく、きょうだいは母親に、患者は他の患者に対して懸念を語っていた。また、事例Aは、薬害HIV事件を機に、親戚からも血友病についても話しかけられることがなくなったと回答した。

（引用9）

調査者：（薬害HIV事件の頃は）ご家族から、何か言われましたか？

A：それが結局両親はあんまり科学的なことは関心がなくてあれなのですけど、ただ姉から言われて、「一緒に食事しない方がいい」とかね。・・・直接ではなかったんですけど、「箸一緒に使っても平気なの？」とか、（母が）ときどき言ったんですよ。「誰にそんなこと言われたの？」と聞いたら、姉がそういうふうと言ったとかね。

調査者：それって嫌な感じなものですか。やっぱり。お姉さんだから平気ということにはならない？

A：向こうは何かね、エイズの件に関してはね、一切聞かなくなってきた。

調査者：言いにくかったんでしょうか。

A：いや、分からないですね。

調査者：いまだに話しませんか。エイズのこと。

A：親戚も血友病のときには「足の具合どう？」とか「最近どうなの？」とかって、前言っていたのですが、この問題が起きてからピタッと何も言わなくなりましたよ。

調査者：タブーになっちゃったんですね。その後、解けるんですか。和解が行われて、最近では血友病、今はもうエイズ治療も進んできてという感じになるとご家族も親戚は解けていくものですか？

A：「新聞に出ていたね」とか、それぐらいです。

調査者：だんだんまた元に戻って。「どう？」とかいう話は。

A：あんまり出てこないですね。その辺のある一部の親戚だけが心配をしてくれる。

（引用10）

調査者：薬害HIVの時期というのは、お母さまとかきょうだいとかとHIVについて心配を共有したり、情報交換したりとか。

B：全然しませんでした。・・・それはわたしがもう治療のことは全部自分で決めてやりましたから、自分で判断して何かやってんだろうと。

調査者：じゃあ、（ご家族は）安心して？

B：安心はしてなかったんじゃないですか。「そのときは、そのときだよ」って。ただ僕は非常に心配しましたよ、感染してるかっていうの分かんないんですよ。感染してたら、その当時は姪と一緒に住んでいたので、姉夫婦と一緒にいたんで、一緒にいると、何かいろいろと言われるかもしれないし、ちょっとそういうふうになったときは、しょうがないからどこかアパートでも借りてひとり住まいでもしてみんなに迷惑かからないようにしなくちゃいけないかなとか、そんなことをC君（同世代の血友病患者）と話してた記憶もありますね。

3. 6. 対象者への疾患の特性と遺伝性の説明及び意識

家族歴がある事例Aとない事例Bともに、患者が血友病についての説明を意識したのは小学校のときであり、中学校の生物の授業で血友病の遺伝について学習したが、疾患についての否定的な感情はなく、母親から自分、自分から子どもへの疾患の伝達についての不満や不安は持っていなかった。一方、(引用13)に示すように、「当人にとって、遺伝のことはものすごく重要な問題」と回答された。

(引用10)

調査者：血友病は遺伝するという話はどんなふうに聞かれたか覚えていらっしゃいますか。

A：遺伝するというのは、何か生物で。中学1年かな。小学校のときも病院で。おじいさんがそんな病気だったということは聞いていて、それが遺伝につながっているのかどうかというのは、はっきりした認識はなかった。中学へ行って、中学1年ぐらいのときに生物で、そういうようなことを、メンデルなんか・・・こういう遺伝なんだよねというのが出てきて。

調査者：そのとき何か驚いたりとかありましたか。

A：結局、おじいさんからそういう病気が遺伝しているんだなというのは、自分なりに分かっていました。

調査者：お母さんを通じて遺伝しているというのと、自分の子どもたちにも遺伝するかもしれないという意識は。

A：そういう認識はなかったですね。(笑) それほどしっかりしていなかった。

(引用12)

調査者：血友病が遺伝するという話はどのくらいの段階で聞かれたんですか？

B：もうそれは小学校の3年か4年で、X病院に入院したときに多分医者から説明を受けたと思いますね。

調査者：小学校3年生で直接。

B：うん。

調査者：このときは、お母さんが因子を持っていてっようなことも説明されたんですか？

B：いや、そういうことは説明ありません。それは遺伝病だって言われただけで、親が因子を持っていると難しいことを教わったのはもうちょっと後です。

調査者：それはいつごろになるんですか。

B：それは中学校の理科のときに勉強しました。学校で遺伝病だって。

調査者：学校で、血友病が出てきたんですね。

B：血友病、ええ、色盲と血友病というのが例に挙げられて説明をされて、遺伝病はそういうものがあってということで、血友病の説明も受けまして、伴性の劣性の遺伝病だとか、それで「悪貨は良貨を駆逐するんだよ」とか言われてむかついてですね(笑)。「悪かったね」みたいな。

調査者：理科の先生は、Bさんが血友病だということは知らなかったんですか。

B：理科は担任じゃないから、専任の教師だったから、僕が血友病だということは知らなかったかもしれないね。「悪貨は良貨を駆逐する」とかいうことを遺伝病の説明のときに言って、わたしは抗議しましたので、「僕は悪貨なんですか」とか(笑)。

調査者：抗議しました、ちゃんと。先生は、何て言われました？

B：「いや、ごめんなさい」とか(笑)。

調査者：たくましいですね。それでしょげちゃうことはなかったんですね。

B：一瞬むかつきましたけど、別にそれは悪気がなくて言っていることなんで、腹は立ちましたけど、これはちょっと認識がおかしいとか。

(引用13)

調査者：いろいろな性格と一緒に、「これ(血友病の遺伝子を、)私持っています」って、「出ていないけど持っています」って、抱え続けていく必要はないという気もするんですけど。

A：さっき言ったみたいに時代の先送りだと思のですよ。それはたぶん「時代が解決してくれるんじゃないかな」ということで、一つ楽観みたいなものがあるんですけど。ただ知りたい人についてはちゃんと知るなら知っていいと思いますね。・・・よく言われるんですけど、「なんで(障害や病気を)否定するの？」という感じは、何かへんてこ、へんてこですよ。・・・当人にとって遺伝の病気といたら、もう遺伝のこと

ですからものすごく重要な問題なので。

3. 7. 患者自身の結婚と子どもへの遺伝に関する意識

事例A、Bともに結婚や子どもへの遺伝では疾患を制約に感じたことはなく、「先のこと」、「時代の先送り、時代が解決する」（引用13）と表現した。また、配偶者への疾患の説明にも困難を感じていなかった。一方、保因者である女性きょうだいの子ども、あるいは孫の発症は「心配した」と事例Bは回答したものの、「病気を否定するのではなく受け入れるという考え方」をすれば、生活での苦労が減ることを語った。

（引用14）

調査者：奥様になる方に、病気のことをお話になるとき、緊張しませんでしたか。

A：うちのかみさんのほうが医療専門職の資格を持っていて。ですから血友病ということはよく知っている。

調査者：「血友病だ」といえば、それで、わかってもらえたんですか。

A：ええ。

調査者：特に子どものことについて、どうしようかというような相談とあってありましたか。

A：それはそのとき、生まれたとき考えようかと。

調査者：生まれたときに。Aさんの場合はお子さんが血友病になる可能性はないわけですね。だから出産時に（出血に）注意しなければいけないということはないわけですね。

A：ないですね。

調査者：だけど保因者になる可能性はあるから。

A：それはその先のことから。

（引用15）

調査者：遺伝について、自分の子どもがどうなるんだろうとか、そういうことは気にされる時期というのはありましたか？

B：あんまりなかったですね。

調査者：とりあえず自分の子どもには生まれたいというのは、早い段階でご存知でしたか？

B：それもあんまり気にしなかったかな。

調査者：それもあんまり気にしない。じゃあ自分と同じ程度の病気の状況であれば……。

B：血友病でも生きていけるんだなという考えの方が強かったから。

調査者：悪貨だとは思わなかったわけですね。

B：思わなかったですね。「それはしょうがない。遺伝病はいろいろあるしな。」とかですね。人間もいろ

いろとろんなふうに生まれてくるじゃないですか。だから病気だけが何か特別なことだとあんまり思わなかった。「性格の違いの方が、でかいよな」とか（笑）。そういうふうな。

調査者：その後に、ごきょうだいの子どもが血友病になる可能性とか、そういうことってというのは。

B：それはちょっと心配しましたね。……姉がキャリアだってことはもう分かってましたし。娘がいて。娘が結婚して子どもができるという時期になってきたのでね。やっぱり案の定男の子は血友病だった。

調査員：それはいろいろ情報提供とか育て方のアドバイスとかというのは？

B：してません。

調査員：聞かれたりはあんまりしないですか。

B：聞いてもこないです。（母親が）医療従事者なんでね。

調査員：今後はBさんの経験がこの子には生かせるから、いろいろアドバイスしたいなとかってありますか。

B：わたしの経験がですか？ うーん、治療のことよりも、例えばどういうふうな学校に行って、どんなふうなことをしていきたいとかいうことは話を聞いてやってもいいかなとか思いますけど、治療のことはもう……自分で自己注射し出す時期がちょっと一つのポイントかなとは思いますが。そうしたらいろいろとアドバイスしてあげようかなとは思いますが。今親が子育て中なので、あんまりちょっと私が言うのもどうなのかなって、親が勉強しないと駄目な時期なので。

（引用16）

調査者：インターネット上でも、血友病は遺伝するからというので、結婚をどうしようかと出産どうしようかという相談が、今もあるんですけど。そういう方に対してはどんなふうにお考えになりますか。

B：病気ということもちゃんと理解してもらわなくちゃいけない、病気の固有の問題はあると思うんですけど、それは遺伝のこととかよく理解しなくちゃいけないけど、でもあれじゃないですか。うまくいかないというのはそういうことじゃないんですよね。……例えば病気に対する物の考え方ってというのは、その人が考える、血友病じゃなくて病気全体についての考え方が影響してたりとか、病気は嫌なものだとかいうものがあると、どんな病気だって嫌なものになっちゃうじゃないですか。でも、病気ってというのは、それは否定するものじゃなくて受け入れるものだという考え方があれば、それはHIVだろうが血友病だろうが、そこからまず始まる

ということがあるんじゃないかなと。全然違うと言われれば、それは違うところもありますけども、何かもつと違うところで苦労しちゃうことの方が多いうような気がしますよね。そうだと思いますけども。

調査者：そういうところって医者に行っても説明してもらえないですね。

B：医者に説明を受けることじゃないんじゃないのかなと思うんです。

3. 8. 母親から病気が遺伝することについての患者の意識

事例A、Bともに「疾患の責任は母親にある」とは考えていなかったが、痛みが特にひどい時や薬害HIV事件の時に、患者または母親から、母親の責任が問われる場合があったことを語った。また、事例Aは青年期に、母親が中絶したこと、そのために継続して体調が悪いことを知ったが、その時には、自分の病気との関連性は考えなかったと回答した。

(引用17)

調査者：そこで、「お母さんのせいなんだみたいな」というような思いになることはあったんですか？

B：親のせいというふうに思ったことはなくて。しかし、痛くて1週間とか10日とか眠れなくなるわけですから何かあったときには、そのときは「病気じゃなかったら楽かな」ということはちらっと思ったことがありますけども、それはもう治ればすぐに忘れてしまうという。「痛い痛い」と言って眠れなくて大変なときは、それは思いますけどね。

調査者：お母さまは「自分のせいで子どもが血友病で痛い思いをして……。」と、言われることもあるんですか？

B：そういうのは、「僕が何でこんな目に遭わされるんだ」と、何か一言、言ったことはありますけど、その程度で終わりですね。

(引用18)

A：たまたまエイズの問題が起きて、結構、こっちも悩んでいたときなんかもあって、何気なく、(母が)「私が悪いんだからね」とか言っていたことはありましたね。

調査者：そのときは、どうされたんですか。

A：もう聞き流していたというか。

(引用19)

A：私が生まれて(後に、母に)次の妊娠があったというのは聞いていて、そのとき子どもをおろしているということだったので。

調査者：それはずいぶん大きくなってから聞かれたのですか。

A：聞いたのは、高校ぐらいのときですかね。

調査者：お母さまから。

A：そうです。・・・何かときどき体調が悪いというか、調子が悪い、そのせいだとか何か言っていたことがあって。

調査者：そのときの手術のせいで体調が悪い。

A：ええ。

調査者：この間の国際血友病連盟の会議で、女性の保因者に出血性傾向があるという話題が発表されたそうですか。

A：そうですね。(母は)生理が重かったということを知りました。

調査者：それは、自分の病気と関係してお母さんの体調が悪いというふうに考えられましたか。

A：いや、その時は考えていなかったですね。

調査者：それ以外にはお母さんから「あなたに病気を伝えてごめんなさい」とか、そういうようなことってありましたか？

A：それはなかったですね。

3. 9. 保因者検査についての患者の意識

事例Aは、保因者検査の意味を、「出産時(の出血による母子双方の)事故に備えること」と「知りたい場合には、事実として知ること」にあると回答した。また、結婚前に、患者ときょうだいは、疾患に関わる一般的な知識として、遺伝と検査について情報を得る機会があるべきだと語った。

(引用20)

調査者：・・・保因者検査をするということについては抵抗感とかはありますか。

A：それはいいですよ。それは本当に自由だと思います。・・・やっぱり出産時の事故と、もし保因者だったらそういう一つの覚悟じゃないですけど。事実として、自分で持っているということは大切だと思いますね。

調査者：急にびっくりしないこと、ですか。

A：万一のときにね。本人じゃないから。それがずっと内緒のまま伝わっていくということは、あまりいいことじゃないと。

(引用21)

調査者：・・・知っていたほうが良いと思います？やっぱり本人もきょうだいもちゃんと。

A：女性のほうがね。

調査者：男性患者さんは？

A：患者は知らないかな。娘が遺伝するって。

調査者：知らない人もいる。親が言わない場合もありますね。

A：ああ、そうか。それは知っていないとだめですよ。・・・100パーセント遺伝するわけなので、(患者の)娘に。・・・例えば血友病キャンプに行ったときに、一つの科目として。何かカリキュラムの中に、血友病を勉強しましょうというカリキュラムの中にそれを入れちゃおうとか。ある一定の年齢のところ。その方が。

調査者：個別にいうとちょっと何か深刻になりますか。

A：かなあと思うんですね。何か悩み相談のときにそういうのをね、見るのかもしれないですけど。血友病のカウンセリングで個別のカウンセリングというのはどういふような理由かなと思って。あんまり想像が豊かじゃないからあれなんですけど。自己注射を勉強しようとしたときに、そのときに周辺事情みたいな感じの、カリキュラム1個入れるとか。アメリカのエイズが流行っているときの・・・アメリカの血友病患者に対しての性教育等、米国血友病協会という患者会が、小さい患児を対象に網羅的にパンフレットを配布して、ものすごい積極的にしていました。

4. 考察

4. 1. 親の注意の偏り

本研究では、「親の注意が患児に集中すること」に関する患者の意識が初めて明らかになった。すなわち、「親の注意が患児に集中すること」は血友病患児にも強く認識されていること、偏って注目されていることに患児は罪悪感を感じていること、きょうだい同士では課題の解決に至る話し合いは行われずに成人してもわだかまりになっていることを対象者は述べた。欧米の先行研究では、両親ときょうだいを対象にした調査により、両親が血友病の子どもにすべての意識を注ぐ傾向があると他の家族を無視したり社会生活や家族生活に悪影響を及ぼすこと、急性出血により家族生活が乱されたり土壇場で予定を中止せざるを得なくなったりすることは珍しくないこと、きょうだい嫉妬を感じ嫉妬に対して罪悪感を抱くことは、すでに報告があり^[21-23]、日本でも患者や専門職者からの指摘はあっ

た^[19,24]。また、日本の血友病患者の母親に対する調査でも、対象者のほとんどが「患児に注意が集中するので、きょうだいに対して申し訳なく思っていること」が報告されている^[25]。

一方、対象者から自発的に指摘されたきょうだいに関する課題の種類は少なかった。その理由は、きょうだいの課題は患者から推測されにくいためであり、血友病患児のきょうだいには課題が少ないわけではないと考える。なぜならば、血友病患者の母親による手引書では、他の慢性疾患患児で指摘されている数多くのきょうだいに関する課題が血友病でも見られることが紹介されているからである^[26]。

4. 2. 親の関心の偏りへの対処方法

本研究では、血友病患児の親に家族関係の調整力が求められることを示唆されたと考える。理由は、親の関心の偏りへの対処方法として、対象者は親による調整を期待すると回答したからである。親による調整のうち母親に対しては、きょうだいへの疾患に関する情報提供を行うことによって、患児に注意が集中することの必然性を説明することが求められた。事例Aでは、きょうだいは患者に対して不満の感情をぶつけていたが成人になっても解決にはいたっておらず、葛藤を調整する役割は母親ないし支援者に求められていた。

父親に対しては家族全体の関係調整が求められたことから、支援者から父親に対して、家族内での役割と配慮に関する教育・支援が必要なことも示唆していた。母親が直接に慢性疾患患児の介護の主たる担い手となるのに比べて、父親の役割は不明確であり、父親による障害の認識が遅れることは既に指摘されている^[27]。日本は欧米に比べて、遺伝性疾患への対応が父母で均等でなく母親に偏重していることに加えて^[16]、血友病は母親を介して遺伝するために母親が負担を抱え込みがちである^[28]。従って、慢性疾患患児のいる家庭における父親の役割は社会規範と通常の医療支援では自然に習得しにくいと考えられるからである。

実際に行われた対処方法については、血友病患者の母親に対する調査結果では、「少数の医師からの注意はあったものの、ほとんどの場合は、きょうだいに対して何の対処もされていないこと」が示された^[25]。1970年代から開発され効果が報告されているきょうだいを対象としたグループワークは、まだ、日本では普及していない^[29]。欧米でも、カウンセリング、家族への情報提供、感情と経験を家族間で共有する機会をもつことが勧められているが、血友病に関しては患者および家族の心理社会的な支援方法に関する文献は少

数である^[23]。一方、日本語に翻訳されインターネットを介して公開されている血友病の母親による手引きには、日常生活で親が留意すべき工夫が詳細に記載されており^[26]、広く活用されることが期待される。

欧米で、血友病患者と家族の心理社会的支援を行う主な機関は血友病センターであり、看護師・ソーシャルワーカー・心理士等が担当する。しかし、我が国には、血友病の包括的療を実施している施設は8カ所にすぎない^[30]。一方、日本では、障害と疾患種別を問わずに、保健所が療育講演として親や支援職者に対する「きょうだい支援」の啓発をしたり、当事者組織等がきょうだい支援活動をする例は少数あるが継続性に欠けるため^[31-33]、きょうだいを含めた家族支援システムの充実は今後の課題である。

調査対象者の家庭では、母親に代わって家政婦や祖母がきょうだいの養育に関わったことが述べられた。家政婦や祖母はきょうだいではなく患児の養育を分担し、母親ときょうだいの時間を確保することも有効な選択肢と考えられる。そのためには、家政婦や祖母などの代替え者が患児の看護をできるように支援する必要がある。すでに、厚生労働省の「障害児支援の見直しに関する検討会報告書」では^[34]、「家族会などにおける障害児のきょうだいに対する支援の取り組み」とともに、「親が障害児以外のきょうだいに関われる時間をもてるようにしていく」ことが記載されており、母親ときょうだいの余暇活動の際に、知的障害児にガイドヘルパーを依頼することも実践されている。ただし、治療法の開発により血友病患児については、看護の代替え者の必要性は低く、母親による過度の心配を解消すればよいと考えられる。

4. 3. 家制度

「家を継ぐこと」は、欧米の先行研究ではきょうだいの課題として指摘されておらず、血友病や遺伝性疾患に限らず家制度を重視する民族の特徴として対応を検討する必要があると考える。欧米で指摘されている「親からきょうだいへの達成の期待」も、本研究では「家を継ぐこと」「財産を継承すること」と関連して回答された。血友病治療の進歩により、患者が結婚し子どもをもうけることが容易になると、家督相続に関する女性きょうだいの立場は混乱し、きょうだいの生活設計に関わる可能性がある。

一方、成人きょうだいを対象とした調査では、「家を継ぐこと」という言葉ではなく、「血友病患者の寿命が短いこと」と「老後の親の介護責任」が回答された。きょうだいの生活設計に関わる点では同じである

が、患者ときょうだいは家制度に関する「権利」と「責任」を別の面から捉えた可能性が伺われる。したがって、家制度及び生活設計に関しても、きょうだいと患者の間の会話を促進し、課題を共有する必要性があると考えられる。

4. 4. 薬害HIV事件の際のきょうだい間の会話

本研究では、薬害HIV事件について調査に応じることが出来る対象者においても、事件に関連したきょうだい間の会話はほとんどなかったことが述べられた。食事の際の感染に関するきょうだいの心配は親を介して患者に伝えられた。また、患者はきょうだいへの感染は心配しなかったが、きょうだいの子どもへの感染に関する配慮は述べられた。薬害HIV事件は、きょうだいについても学校生活や結婚・就労等の将来計画における不利益をもたらしたことは、母親から報告されている^[25]。薬害HIV事件について家族内でオープンな会話があった報告は少ないが、危機に遭遇した際に、患者と母親の間や患者同士で行われた意思疎通が、患者ときょうだいの中で成立しにくいことへの対策は必要であるとする。すでに、自閉症児のきょうだいに関し心理社会的適応がよい場合には、障害の程度・きょうだい順位・性別とは関係なく、家族間のタブーのないオープンな会話の多いことが報告されている^[35]。しかし、これまで指摘されていたのは親ときょうだいの間のオープンな会話であり、患者ときょうだいの間のオープンな会話を促進する方法の開発は、今後の課題である。

4. 5. きょうだいの保因者検査

本研究の対象者では、きょうだいと患者に対する保因者状況についての情報提供は十分ではなかった。対象者は、きょうだいの凝固因子活性検査結果を知っているだけであり、遺伝相談を必要と考える場合については想像が及ばないと回答していた。保因者状況とは、血友病の遺伝・子どもの出産に関する選択肢・保因者が出血時や分娩時に留意すべきこと・検査方法であり^[11]、一部の国では遺伝性出血性疾患の女性と保因者のケアに関するガイドラインに保因者状況についての情報提供のあり方も記載されている^[36]。

血友病の保因者診断は、遺伝相談を経ずに、血友病専門医から凝固因子活性検査を受ける場合が多く^[37]、きょうだいが保因状況についての情報提供を受ける機会は少ない。出生前診断を受ける場合は遺伝相談を伴うが、血友病を深刻な疾患であると考え中絶を意図した場合が主である^[38,39]。家系内での潜在保因者への情

報提供についてはWHOから指針も出ているが^[40,41]、患者と姉妹、患者の母親の姉妹の関係にも関わる課題であるため^[42]、専門家の協力も得ながら正しい情報交換を進める体制整備が必要であると考え。不安や診療時の拒否的な対応により、保因者が極端な感情的・行動的反応を示すことも報告されている^[43]。

また、対象者は、家族歴の有無・HIV感染の有無に関わらず、血友病・結婚・子どもをもうけることに否定的な意識を持たず、遺伝相談とは別に、疾患に関する知識のひとつとして患者ときょうだいが情報を提供される機会があることを希望した。この希望は、欧米で、血友病患者の娘には確実保因者であることを、患者の姉妹には潜在保因者であることを、妊娠可能な年齢になるまでに情報提供すべきであるとされていることと合致する。血友病についての知識を理解できるようになる年齢は10～11歳であるといわれる^[11]。

確定保因者及び潜在保因者と保因状況について誰がきょうだいに伝えるかは、欧米でも手引きはあっても規則はない。家族と血友病センターの協力が推奨されており、血友病センターは適切な訓練を受けた知識のあるソーシャルワーカーや看護師により、両親から娘への情報提供の指導を行うことが想定されている^[11]。これに対し、対象者は血友病患者のサマーキャンプ等で一般的な情報提供を行うことを提案した。サマーキャンプは小学校4年生から中学生を対象として、自己注射の手技獲得を主目的として、患者会または医療従事者により主催されている^[44,45]。しかし、サマーキャンプでは、まだ患者やきょうだいに保因状況についての情報提供を行う機会は整備されておらず、血友病の保因者に関するカナダのハンドブックが支援者組織により翻訳されたばかりである^[46]。サマーキャンプが対象者から提案された理由は、情報提供プログラムだけでなく、青年期血友病患者同士で情報を元に恋愛・結婚・就労などの将来計画を語る場を求めたためと推測される。すでに、1970年代に青年期血友病患者は、教育・就労・結婚などの生活あるいは心理社会的問題について取り組むことを目的に、親が主導する患者会とは独立した集まりを組織し、血友病患者がはじめて旅行に一人で参加するなど画期的な合宿を行った経験があることも関係しているであろう^[47]。患者同士が議論する機会としては、他には、情報技術を活用して、青年期の血友病患者に対して試行を始めている専門家が関与するインターネットを介した情報提供^[48]や、オンラインのネットワークの活用^[49]も情報提供の機会となると考えられる。

4. 6. 対象者の偏りと限界

本研究の対象者は60歳代の血友病患者2名であり、血友病患者全体を代表しているとはいいがたい。しかし、家族歴、重症度、HIV感染状況が異なるにも関わらず、きょうだいの課題と遺伝に関する意識では共通性が高かったことは注目に値する。また、老年期の対象者に対する振り返り法による調査では、過去の記憶の正確さの保障は十分でないが、本研究では、過去の記憶の正確さよりも、過去のきょうだい関係の課題についての記憶が現在のきょうだい関係に影響を及ぼすことを示したことが重要であると考え。

遺伝に関する意識は別として、きょうだいに関する課題は障害及び疾患の種類と重症度とは関係しないことは既に報告されているが^[50]、年代やHIV/HVCの発症状況との関係は明らかではない。例えば、若い世代の血友病患者では、予防投与療法の普及により痛みや社会生活の制限は全体的には少なくなった反面、家庭注射が早期から頻回に行われるようになったという特徴がある。また、遺伝子検査により出生前診断が可能になったことは、血友病患者と家族の精神的負担を増やしたという報告もある^[51]。HIV/HVC発症者では、就労が継続できなくなったり、医療にかける時間が多くなる等の社会生活の制限が予想されるからである。今後は対象者数を増やし、血友病患者のきょうだい関係に関する知見を蓄積し、患者と家族に対する効果的な支援方法を整備するが課題であると考え。

5. 文献

- 1) Labato, D. Brothers, sisters with special needs. Brookes, Baltimore, 1990.
- 2) Meyer, D., Vadasy, P. Living with brothers or sisters with special needs: a book for sibs. University of Washington Press, 1996 .
- 3) Grossman, F. K. Brothers and sisters of retarded children. Syracuse Univ. Press, 1972.
- 4) 北村弥生, 上田礼子. 慢性疾患患児の同胞の適応状態と同胞による疾患の理解. 総合リハビリテーション. 28, 2000, p.765-770.
- 5) 椎野葉月, 大島巖. 慢性疾患患児や障害児をきょうだいに持つ高校生のきょうだい関係と心理社会的適応一性や出生順位による影響を考慮して-. こころの健康. 18, 2003, p.29-40.
- 6) Seltzer, M. M., Greenberg, J. S., Orsmond, G. I., Lounds, J. Life course studies of siblings of individuals with developmental disabilities. Ment. Retard. 43, 2005, p.354-359.

- 7) 依田明. きょうだいの研究. 東京, 大日本図書, 1990.
- 8) 北村弥生, 伊藤和之, 飯塚尚人, 河村宏, 上田礼子. 視覚障害者の情報支援機器利用とそれにかかわる要因について. 日本ロービジョン学会誌. 7, 2007, p.127-133.
- 9) 吉川かおり. 発達障害者のきょうだいの意識. 発達障害研究. 14, 1993, p.253-263.
- 10) グレーター・ボストン知的障害者協会 (訳: きょうだい支援の会&金子久子). きょうだい支援グループのためのハンドブック ステップ・バイ・ステップ ガイド 知的障害者のきょうだいが大人になって支援グループを組織・運営するとき. きょうだい支援の会, 2000.
- 11) Miller, R. Counseling about diagnosis and inheritance of genetic bleeding disorders: haemophilia A and B. Haemophilia. 1999, p.77-83.
- 12) Miller, R. Genetic counseling for hemophilia. Treatment of Hemophilia Monograph Series No.25. World Federation of Hemophilia, 2002.
- 13) ヨーロッパ委員会報告. 遺伝学的検査に関する倫理的、法的、社会的考察: 研究, 開発, 臨床応用. 2004.
- 14) Thomas, S., Herbert, D., Street, A., Barnes, C., Boal, J. Komesarodd P. Attitudes towards and beliefs about genetic testing in the haemophilia community: a qualitative study. Haemophilia. 13(5), 2007, p.633-641.
- 15) 高谷清. 重い障害を生きるということ. 東京, 岩波書店, 2011.
- 16) 川島ひろ子. ヒトゲノム研究と社会 (藤木典生, D. メイサー編). コウバイオス倫理研究会, 1992, p.152-154.
- 17) 吉岡章. 血友病の告知とインフォームドコンセント. 正岡徹, 吉岡章編. 血液病の告知とインフォームドコンセント. 大阪, 医薬ジャーナル社, 1999.
- 18) 山崎喜比古, 瀬戸信一郎 (編). HIV感染被害者の生存・生活・人生—当事者参加型リサーチから. 東京, 有信堂高文社, 2000.
- 19) 若生治友. 第13章 血友病治療の歴史と患者をめぐる諸問題. HIV薬害—問題の所在と調査の課題 (輸入製剤によるHIV感染問題調査研究 第一次報告書). 2003.
- 20) 東京HIV訴訟原告団. 薬害エイズ原告からの手紙. 東京, 三省堂, 1995.
- 21) HERO国際諮問委員会. 血友病とともに生きることの心理的・社会的側面. HEROプロジェクトの一環としてノボ ノルディスクのために作成した文献レビュー. 2010.
- 22) Bottos, A. M., Zanon, E., Sartori, M. T., Girolami, A. Psychological aspects and coping styles of parents with Haemophilic children undergoing a programme of counseling and psychological support. Haemophilia. 13, 2007, p.305-310.
- 23) Ross, J. Perspectives of haemophilia carriers. Haemophilia, 6, (Suppl.1), 2000, p.41-45.
- 24) 藤井輝久, 高田昇. 血友病の社会心理学的問題. 血友病診療の実際 1998年度版.
- 25) 北村弥生. 血友病患児のきょうだいの課題と対処の現状. 平成21年度厚生労働科学研究費補助金 (エイズ対策研究事業) 血友病とその治療に伴う合併症の克服に関する研究報告書. 2010, p.29-32.
- 26) Kelley, L. A. Raising a child with haemophilia: A practical guide for parents (4th Ed.). LA Kelley Communications, 2007.
- 27) 広瀬たい子, 上田礼子. 脳性麻痺児 (者) に対する父親の受容過程について. 小児保健研究. 50(4), 1991, p.487-497.
- 28) 山田富秋. 第6章 血友病治療における家族主義あるいはパターンリズムについて. HIV薬害—問題の所在と調査の課題 (輸入製剤によるHIV感染問題調査研究 第一次報告書). 2003.
- 29) 北村弥生. 特殊なニーズのある子どものきょうだいに対する支援 第5回 多様な試行. 厚生労働. 2009, p.40-41.
- 30) 白幡聡, 酒井道生. 我が国における血友病治療センターの現状. 日本血栓止血学会誌. 21(3), 2010, p.349-353.
- 31) しぶたね. きょうだいさんのための本, 2011. <http://blog.canpan.info/sib-tane/img/225/sassil.pdf>
- 32) 白鳥めぐみ, 諏訪智広. きょうだい 障害のある家族との道のり. 東京, 中央法規出版, 2010.
- 33) 遠矢浩一. 障がいをもつこどもの「きょうだい」を支える—お母さん・お父さんのために. 京都, ナカニシヤ出版, 2009.
- 34) 厚生労働省. 障害児支援の見直しに関する検討会報告書. 2008.
- 35) McHale, S. M., Sloan, J., Simeonsson, R. J. Siblings relationships of children with autistic, mentally retarded, and non-handicapped brothers and sisters. J. Autism Dev. Disord. 16(4), 1986,

- p.399-413.
- 36) Lee, C. A., Chi, C., Pavord, S. R., Bolton-Maggs, P. H., Pollard, D., Hinchcliffe-Wood, A., Kadir, R. A. The obstetric and gynaecological management of women with inherited bleeding disorders - review with guidelines produced by a task force of UK Haemophilia Center Doctors' Organization. *Haemophilia*, 12(4), 2006, p.301-336.
- 37) 藤井輝久, 高田昇. 保因者診断. 血友病診療の実際 1998年度版.
- 38) Tedgardo, U. Carrier testing and prenatal diagnosis of haemophilia - utilization and psychological consequences. *Haemophilia*, 4(4), 1998, p.365-369.
- 39) 吉岡章, 血友病の出生前診断に関する免疫・生化学的並びに分子遺伝学的研究. 文部科学研究補助金1990年度研究業績報告書. 1991.
- 40) WHO human genetics programme. Proposed International Guidelines on Ethical Issues in Medical Genetics and Genetic Services. 1998.
- 41) WHO human genetics programme. Review of Ethical Issues in Medical Genetics. 2003.
- 42) 藤井智恵子, 芳野信. 血友病A家系における血縁者間の遺伝情報交換の問題点. *日本遺伝看護学会誌*. 4(1), 2006, 36-42.
- 43) Renault, N. K., Howell, R. E., Robinson, K. S., Greer, W. L. Qualitative assessment of the emotional and behavioral responses of haemophilia A carriers to negative experiences in their medical care. *Haemophilia*, 17(2), 2011, p.237-245.
- 44) 佐藤幸子, 長尾大. 血友病サマーキャンプの報告. *子ども医療センター医学誌*. 14(1), 2010, p.21-28.
- 45) 長尾大. 第1回血友病サマーキャンプの報告. *子ども医療センター医学誌*. 14(1), 2010, p.29-30.
- 46) Canadian Haemophilia Society. All about carriers. A guide for Carriers of Haemophilia A and B. 2007.
- 47) 北村健太郎. 第1部第3章パンフレットからYoung Hemophiliac Clubへ: 血友病患者本人の活動のうねり. *生存学研究センター報告14* (山本崇記・高橋慎一編). 2010, p.114-140.
- 48) Khair, K., Holland, M., Carrington, S. Social networking for adolescents with severe haemophilia. *Haemophilia*. 18(3), 2011, e290-296.
- 49) Sterling, L., Nyhof-Young, J., Blanchette, V. S., Breakey, Y. R. Exploring internet needs and use among adolescents with haemophilia: a website development project. *Haemophilia*. 18(2), 2012. p.216-221.
- 50) Breslau, N., Weitzman, M., Messenger, K. Psychologic functioning of siblings of disabled children. *Pediatrics*, 67(3), 1981, p.344-353.
- 51) Coppola, A., Cerbone, A. M., Mancuso, G., Mansueto, M. F., Mazzini, C., Zanon, E. Confronting the psychological burden of haemophilia. *Haemophilia*. 17(1), 2011, p.21-27.