

博士論文の要旨及び審査結果の要旨

氏 名 深井 真澄
学 位 博 士 (歯 学)
学 位 記 番 号 新大院博 (歯) 第373 号
学位授与の日付 平成29年3月23日
学位授与の要件 学位規則第4条第1項該当
博 士 論 文 名 口蓋裂患者における口蓋裂言語の心理的受容過程
Psychological acceptance process in patients with cleft palate speech

論文審査委員 主査 高木 律男 教 授
副査 小野 和宏 教 授
副査 小林 正治 教 授

博士論文の要旨

【目的】

口唇裂・口蓋裂は先天性の顔面奇形の中でも高率に認められ、日本では500人に1人という頻度で出生している。近年では乳幼児期から成人に至るまでの一貫したチーム治療により多くの口蓋裂患者が正常な言語を獲得するなか、少数では口唇裂・口蓋裂に関連した言語の異常（以下、口蓋裂言語）が成人期以降も持続する症例がある。本研究では、口蓋裂言語が成人期以降も長期的に持続している口蓋裂患者に対する言語管理のあり方を模索することを目的として、口蓋裂言語の心理的受容過程について質的検討を行った。

【対象と方法】

対象は、口蓋裂言語が成人期以降も長期的に持続しており、言語管理および口腔管理のために通院を継続している患者7名（裂型：口蓋裂4名、唇顎口蓋裂2名、粘膜下口蓋裂1名、年齢：23-78歳）とし、2014年12月から2015年12月に半構造化面接による質的調査を行った。

方法は質的研究の分析手続きに従い、半構造化面接およびグラウンデッド・セオリー・アプローチ（以下、GTA）を用いた。調査期間は2014年12月から2015年12月とし、新潟大学医歯学総合病院歯科言語治療室の個室にて、対象者および筆頭著者、共同著者が在室して行った。なお、質的研究は対象者を内面から理解することを志向するもので、記述および解釈する研究手法の総称である。すなわち、現象の性質や特徴などを数値で表せない質的データとして扱う。具体的には、面接手法の一つである半構造化面接は、主な方向性を決めた面接項目に従って質問を行う形式を取り、対話の流れに合わせて質問を加えるなど柔軟な変更ができる。また、分析手法のGTAは、データに根ざして引き出された理論を構築するための方法論であり、対象とする現象がプロセス的性格をもっている研究領域に適している。

まず、半構造化面接の項目（①基本的属性（手術時期、教育歴、職業、家族歴）、②自らの言語への認識の時期と自己評価、③学校や職場での言語に関する経験とそのときどきの気持ち、④心の支えとなった経験もしくは周囲への期待、⑤これからの治療への期待）を設定し、自由回答法のインタビュー形式により、対象者の語りを引き出した。面接内容は対象者に録音許可を得て、ICレコーダーで記録した。

次に、データの分析をGTAに従って以下の手続きにより行った

①面接内容のすべてを逐語録化した。個人名、地域名などは削除または別表記とし、対象者を特定できないよう、アルファベットA~Gに記号化した。

②逐語録から口蓋裂言語の受容過程に関わる文脈を抽出し、意味解釈と比較を行い、コード名を付

与した。

③同類のコード名ごとに分類し、サブカテゴリー、カテゴリーを生成した。

④カテゴリー、サブカテゴリー同士のまとまりから、コアカテゴリーを生成した。

⑤カテゴリー間の相互関係と構造から概念図を見出し、ストーリーラインを生成した。

⑥データの分析や解釈について信頼性および妥当性を得るため、経験豊富な質的研究者のコンサルテーションを受けた。

【結果】

対象者の口蓋裂言語の心理的受容過程において、10のカテゴリーと25のサブカテゴリーが生成され、概念図が見出された。なお、口蓋裂言語の受容過程について、以下の3つのコアカテゴリーに分類して検討した。

1. 言語の特異性の認識はない時期（乳幼児期から学童期前半～後半）

本コアカテゴリーは1) 日常的な通院や治療、2) 言語の特異性の認識はない、3) 告知に対するショックと戸惑い、という3のカテゴリーにより構成されていた。

2. 言語の特異性を認識する時期（学童期後半～青年期前期から青年期中期）

本コアカテゴリーは4) いじめ体験や親への反発、5) 言語の特異性の認識と他者との違いへの葛藤、6) 周囲の支えと新たな気づき、といった3のカテゴリーにより構成されていた。

3. 言語の特異性を受容する時期（青年期後期～成人期）

本コアカテゴリーは7) 言語の特異性を受容する、8) 自己への自信、9) 医療者への信頼、10) 言語治療への希望、といった4のカテゴリーにより構成されていた。

【考察】

口唇裂・口蓋裂の言語機能について、多くの症例では幼少期には家族以外でのコミュニケーションに難渋する場合があっても、就学頃もしくは学童期までには個性の範囲でコミュニケーションが取れるようになる。しかし、個々の要因として破裂幅が広かったり、言語管理を十分に受けられなかったりなどの要因のために口蓋裂言語が重度のまま成人期以降も持続している症例があり、本研究での対象者とした。したがって、広義の言語管理の一側面として、長期にわたり言語治療室を定期的に受信する口蓋裂患者をより理解し、適切な言語管理のあり方を模索するために、口蓋裂言語の心理的受容過程について検討した。

乳幼児期および学童期前半では、言語の特異性の認識はなかった。すなわち、幼少期の口蓋裂患者は家族や友人から何度も聞き返される場面を頻回に経験しており、その状況を否定的に感じてはいたが、聞き返される原因が自らの言語の特異性にあるとは認識していなかったと考えられる。

学童期後半では、手術のための入院に際して家族からの説明などを契機に、徐々に口唇裂・口蓋裂であることを認識し、次第に自らの言語の特異性を認識し始めていた。この点に関して、松本の調査では容貌の認識の観点から検討しているが、審美障害や言語障害などに対する他者の言及や治療などを契機として、漠然と自身の容貌の特異性に気付いていくと述べている。したがって、口蓋裂言語の特異性の認識においても、口蓋裂患者の自己意識と他者評価が育っていくにつれて、学童期後半の小学校高学年頃から青年期前期の中学校前半頃にかけて、漠然と自らの言語の特異性を認識していくことが考えられた。

青年期前期では、口蓋裂患者が自らの言語の特異性を認識する契機の一つとして、冷やかしいいじめ体験を振り返っていた。この年代については、他の論文でも口蓋裂患者は何らかの冷やかしいいじめを受けることが多く、これらの体験は人の心理機能に重大な脅しを与えることが指摘されている。また、冷やかしいいじめの原因がときに口蓋裂言語自体のこともあるとされる。この点に関して、Christinaらは本研究と同様に、口蓋裂言語が成人期以降も持続している口蓋裂患者について検討しており、対象者は共通して冷やかしいいじめ体験を振り返ったと述べている。また、この時期は思春期に重なり、思春期は第二次性徴の影響を受けて大きな心理的、身体的変化がもたらされます。したがって、先天性疾患をもつ子どもは身体的な限界に加えて社会から疎外感を覚え、自立と依存、限界の可能性の間で葛藤しやすいことが指摘されている。また、思春期では誰しも自己意識と他者評価をより気にする傾向があり、口蓋裂患者においては特に審美障害や言語障害を有する症例でより先鋭化するとされ、他者の嘲笑によって自尊心が傷つけられ劣等感や屈辱感、挫折感が形成されやすいことが考えられる。本研究でも思春期に個々の患者の問題が顕在化していた。一方、

思春期の口蓋裂患者の心理に関する報告について三浦のアンケート調査では、学校生活での適応状態は良好であり、社会的人間関係の学習が大きな問題はなく行われていたと述べている。しかし、対象者の審美障害や言語障害の程度などは明らかにされておらず、また、口蓋裂患者と保護者を対象者としていたことから、子どもは自責の念を持っている母親や家族を気遣って話さない選択をする場合があり、アンケートによる量的調査だけでなく質的調査の必要性がうかがえた。また、本時期では、口唇裂・口蓋裂や言語の特異性の原因について自ら情報を求めようとする傾向がみられた。さらに、この時期の特徴として、急に多くの新たな情報を得ることから、結果的に大きなショックと戸惑いを抱えていた症例や、知ることによって葛藤を抱えている症例も推測された。このような患児の悩みに対する家族への対応の重要性として、松田らの調査では口蓋裂患者への手術説明について検討しており、子どもであっても手術に対する詳細な説明を受け、理解して臨む必要があり、家族ともよく相談して実施していく必要があると述べている。また、Christinaらも、口唇裂・口蓋裂や口蓋裂言語について家庭でよく話をすることが重要であるとし、子どもに開放的な状況を設定することは、後に冷やかしからかいを受けた際に自らの状況を他者に適切に相談するのに役立つとしている。ただし、子どもの発達段階によって当然理解度は異なるため、早期からの慎重かつ柔軟な対応が重要であると思われる。

青年期中期では、家族や友人、学校の教師から支えられた経験を振り返っていた。この点に関して、須川は先天性心疾患患者について検討しており、患者は他者からのサポートを有益であると考え、自らの関係する人々、例えば教師や友人から理解されることを求めていると述べており、本研究でも同様の傾向がみられた。

青年期後期から成人期では、さまざまな葛藤を経ながら自らの言語の特異性を受容していくことが表れていた。本時期では、相手に自らの言語の状況を積極的に伝えようとするなど社会参加を志向する一方、就職の選択や婚姻など将来の不安について振り返っていた。この点に関して、松本は青年期後期では、口唇裂・口蓋裂を自己の一部として理解する段階へと移行しており、成人期では、障害について肯定的に理解し、自己の中にどう位置付けるか、また、就職の選択や婚姻などが具体的に課題となると述べており、本調査でも同様の傾向がみられた。さらに、Billboulらは肯定的な自己意識の形成は、積極的な社会参加を通して言語の特異性があるという自己を受け入れるようになるとし、Christinaらも自らの言語の状況を捉えることは、コミュニケーション参加の妨害になるのではなく、自らのコミュニケーションに責任をもつことにつながり、その後には生じうる困難に向き合うために必要であると述べている。すなわち、自分の言語を受け入れることにより、社会の一員として口唇裂・口蓋裂のない人と同じような葛藤や悩みを共有するようになることがうかがわれた。

さらに、全体を通してみると、口蓋裂言語の心理的受容過程を通して、長期的な治療経過によって得られた医療者との信頼関係について振り返っていた。また、今後の治療への希望として言語の改善への希望とともに、継続的な心理的サポートを望んでいることがうかがわれた。すなわち、患者にとって共感してくれる医療者やカウンセリング等で話を聞いてくれることが支えになるとされ、広義の言語管理の一側面として、心理的サポートの役割が再確認された。

なお、上記でも家族への思いについて触れたが、口蓋裂患者が自らの言語の特異性の認識から受容に至るまで、母親を中心とした家族への思いを振り返っており、口蓋裂患者と母親との密接な相互作用が影響していることが考えられた。この点に関しては、松田らの調査でも中学生および高校生の口蓋裂患者において、病院を受診する回数が多い本疾患の子どもたちは母親と共に過ごす時間が長く、ごく自然に母親の苦労や思いを感じ取っていたと述べている。さらに、母親に関する報告では、口蓋裂患者の母親の心理的衝撃は大きく、初めて対面した母親は悲嘆、不安、混乱、失望、不信、焦燥、抑うつ傾向、罪悪感、苦悩、怒り、ショックなどを示し、特に母親の自責の念は治療が進んでいく過程においても消失することなく継続することを指摘している。したがって、口蓋裂言語の心理的受容過程において口蓋裂患者と母親の相互作用について前方視的に明らかにし、広義の言語管理の一側面としての家族支援のあり方を検討していくことが今後の課題と考えられた。

審査結果の要旨

今回用いた質的研究の分析は、半構造化面接により集めたデータをグラウンデッド・セオリー・アプローチ（以下、GTA）でにより分析するという既に確立された質的研究方法で、この手続きを取るにより質的評価が可能とされている。量的に有意差や傾向をみる手法を取る医療統計的考え方からすると違和感があり、受け入れる、または資料をどう判断するかについては、質的研究に精通する必要がある。しかし、頻度の低い疾患（例えば今回の唇裂・口蓋裂は1/500 出生）における形態的特徴のみでなくそれに伴う精神的負担（目に見えないデータを扱う場合）では逆に統計的に見るよりも、一つ一つの語りから得られる質的研究により得られるものが多い可能性がある。

今回対象とした口蓋裂治療後の患者さんは、何らかの条件により予後が悪く口蓋裂言語が残遺したと考えられる。これらの患者さんでは、成長・発育過程での言語治療のあり方をどのようにすべきであったのかや長期におよんでからでもなお受診されることがどのような背景から生じていることかがわかれば、今後どのような対応を取るべきであるかを模索する一助のなるが、これまでは例数も少なく検討対象となっていなかった。したがって今後さらに一般的な言語治療を受け、個性の範囲で言語障害を受け入れ、日常生活を送っている口唇裂・口蓋裂患者さんの質的調査を通して、それらの差を見る必要があるとも感じている。

今回の研究では成長・発育につれて、手術や管理を通して、口唇裂・口蓋裂であること、それに起因した言語障害が残ってしまっていることなどについて、いつ頃どのような形でそれを知り、受容してきたか、それに対して母親を中心とする家族や友人がどのように関与しているかなどの傾向を知ることができ、成長段階での対応、今後の精神的バックアップなどにおいて有用な情報が得られ、学位論文としての価値を認める。