

【資料】

血友病をもつ子どもの親のストレスに関する文献検討

Literature Review on Parental Stress of Children with Hemophilia

青野広子¹⁾ 中村加奈子¹⁾ 飯野英親¹⁾ 松尾陽子²⁾

1) 福岡看護大学 看護学部 看護学科 健康支援看護部門、2) 久留米大学 医学部 小児科学教室

抄 録

血友病をもつ子どもの親が抱えるストレスの内容を明らかにするために、国内外の文献の検討を行った。医中誌 Web 版、PubMed で「血友病」「小児」「親」「ストレス」「コーピング」「困難」「ニーズ」「支援」「家族機能」をキーワードとして文献を検索し、3 件の国内文献と、10 件の海外文献を分析対象とした。

血友病児の親のストレス、および血友病児の親のストレスを軽減する要因について分析した結果、親は、子どもの療養生活と日常生活の QOL に関するストレスを抱える傾向にあった。親は、子どもが血友病であること自体に精神的な苦痛を感じ、子どもの将来を心配していた。また、治療に関して、親は、家庭輸注を開始するにあたり、静脈注射の手技の習得や失敗に苦闘し、子どもに注射をする行為に対しても精神的に葛藤していた。親自身のストレス要因としては、保因者の問題があった。一方で、親は、家庭輸注により、出血から子どもを守る手ごたえを感じていた。親は、静脈注射手技の習得と実施にストレスを抱えながらも、自分が子どもを出血から守ることができるという自信となり、出血や関節症に対するストレスコーピングになっていたと考える。今後は、親のストレスを軽減するために、家庭輸注、子どもの血友病の重症度やインヒビターの有無に応じた療養支援、血友病児に対する子育て支援、そして、保因者の可能性をもつ母親支援について検討する必要がある。

キーワード：血友病，親，家庭輸注，ストレス

緒 言

血友病は、凝固因子の欠乏、または、不足により止血が遅延する特徴をもつ遺伝性の慢性疾患である。血友病をもつ子ども（以下、血友病児）は、出血による関節症や頭蓋内出血などの重篤な後遺症を引き起こす可能性をもちながらも¹⁾、自宅で家族や本人が凝固因子を補充する家庭輸注²⁾や、凝固因子の量を一定以上に保つことで出血を予防する定期補充療法³⁾により、出血予防または止血を図り日常生活を送っている。しかしながら、定期補充療法、および、家庭輸注は静脈注射であり、注射を受ける子どもにとって痛みを伴う処置である。同時に、親は、静脈注射という高度な医療手技を習得する必要が

あること、痛みを伴う処置をわが子に実施する状況から、ストレスを抱えていると推察する。また、血友病児は、学校生活など日常生活の QOL、および、関節症状により身体的な QOL が低い状況が報告されている⁴⁾。慢性疾患児を育てる母親は、健康児の母親よりも精神的健康度が低く、子どもの特徴に起因するストレスにより心理的適応が阻害されるという報告がある⁵⁾。血友病児の親においても、子どもの血友病が親の精神面に影響すると推察する。そこで、血友病児の親が抱えるストレスの内容を明らかにしたいと考えた。

研究目的

血友病児の親のストレスに関する研究報告より、血友病児の親が抱えるストレスの現状を明らかにする。

用語の定義

ストレス：わが子の血友病、治療、日常生活、将来に対する親の精神的・身体的な負担とする。

研究方法

1. 文献検索方法

文献検索は、わが国の血友病治療において、2008年より家庭輸注、および、定期補充療法の導入が増加した点⁶⁾を止血管理方法の変換期と捉え、2008年から2019年までの過去12年の期間とした。論文の種類は、総説と会議録以外を対象とした。

国内文献は、医学中央雑誌 Web 版を用いて、「血友病」「親」「ストレス」のキーワードで掛け合わせた結果、親のストレスに関わる文献は0件だった。そこで、「血友病」「親」のキーワードで掛け合わせた結果、29件が表示された。さらに、「血友病」「親」「支援」を掛け合わせて8件、「血友病」「親」「困難」を掛け合わせて5件、「血友病」「親」「ニーズ」を掛け合わせて1件が表示され、その中から重複した文献、および、血友病の治療を対象とした研究を除外した3件を対象とした。血友病をもつ子どもの親のストレスに関する文献が不足していたため、海外文献の検索を行った。PubMed を用いて「hemophilia」「children」「parents」「stress」で検索した結果27件、「hemophilia」「children」「parents」「stress」「coping」で検索した結果6件、「hemophilia」「children」「parents」「stress」「family」「functioning」で検索した結果6件が表示された。その中から、重複した文献を除外した10件が対象文献となった。

2. 分析方法

対象とした13件の文献中、調査対象者が血友病児とその親である研究は、内容から親のストレスに関する部分を抽出して分析対象とした。

分析の視点は、「血友病児の親のストレス」および「血友病児の親のストレスを軽減する要因」とした。倫理的配慮として、文献は出典を明記して、内容は著者の意図を侵害しないように留意した。

結 果

国内文献は、年代別にみると2013年1件、2015年1件、2018年1件であった。3件中1件は親が必要とする支援の内容について、1件が診療連携に対する親のストレス、1件が家庭輸注、および、定期補充療法に伴う親のストレスを調査したものであった。海外文献は、10件中、2008年3件、2011年2件、2014年2件、2016年1件、2017年2件であった。10件中7件が、子どもへの療養行動と子どもの日常生活のQOLに対するストレス、1件が子どもの日常生活のQOLに対する認識、1件が親のストレスとストレスコーピング、1件が血友病児の親のストレスと他の慢性疾患児の親のストレスを比較したものだ。10件の海外文献は、親のストレス、子どもの日常生活のQOLの認識について重複する部分があった。13件それぞれの対象である親の子どもの年齢は、1歳から18歳だった。一番多い年齢層は、学童期だった(表1)。

以上の文献を分析した結果、血友病児の親が抱えるストレスとストレスコーピングの内容が明らかとなった。

1. 血友病児の親のストレスの現状

1) 血友病児の親のストレスにおける国内と海外の相違

国内の親と海外の親のストレスの内容を比較したところ、国内の親、海外の親共に、わが子が家庭輸注と出血時に痛みを伴うことにストレスを感じていた^{7), 9), 12), 15), 19)}。しかしながら、海外の親は、家庭輸注にストレスを感じながらも、家庭輸注の技術習得と実施に関して、医療者と連携して進めたことや、家庭輸注の実施に伴い子どもの生活範囲が拡大したことに満足していた^{12), 15), 18), 19)}。一方で、国内の親は、子どもが受ける医療の環境が不十分であると感じ、緊急時の対応などに不安を抱いていた⁸⁾。

表 1. 血友病をもつ子どもの親のストレスの内容

No	研究者	タイトル	文献名	発表年	対象	調査方法	結果
1	藤井宝恵 古賀彩香 藤井輝久 ほか	血友病患者の治療も進歩は、学校・社会生活の改善につながったか？—定期補充療法を主とする若年者の親を対象とした質問紙調査—	広島大学医学雑誌	2018	若年世代の血友病患者の母親27名	質問紙調査。背景出血リスクが高いエピソード・出血予防・出血時対応策・患者の日常生活に關した母親の困難さについて	・血管確の失敗と焦り・注射で泣くわが子がかわいそうに思う精神的葛藤・本人のやる気のなさ・時間に追われる朝の忙しきだった。
2	Peng J, Yang H, Fu G, Zhao X, Li X, Chen F, <i>et al.</i>	A study of the stressors and coping behaviors of parents of Chinese hemophilic children.	J Child Health Care.	2017	血友病児（平均年齢10.7歳：SD7.1）の親158名	半構造化インタビュー調査血友病児の親のストレスを質的に分析し、CHIPcoping scaleにより親のストレスコーピングを調査	・子どもの病氣・子どもの体調・経済的問題・子どもの治療・子どものケア・遺伝・役割機能不全・コミュニケーションにストレスを感じていた。 ・親は、怒りを出す・趣味にそむく・友人に家族の状況を伝えて理解と援助を得るなどにより、家族生活を正常化していた。
3	von der Lippe C, Frich JC, Harris A, <i>et al.</i>	Treatment of hemophilia: A qualitative study of mothers' perspectives.	Pediatr Blood Cancer.	2017	血友病児の母親16名	半構造化インタビュー調査。母親の病院での治療に關する経験・治療への挑戦・家庭治療の利点・医療者への信頼と不信について	・治療に伴う問題は、緊急時に備え行動範囲が制限されること・わが子が治療を受け続ける必要があること・繰り返し注射をすることの辛きだった。特に注射はわが子が泣くこと、注射を失敗することに辛きを感じていた。 ・家庭治療の利点は、止血管理が可能になった・生活範囲が拡大したことだった。
4	Williams VK, Antoniou G, Jackson A, <i>et al.</i>	Parents' perception of quality of life in their sons with haemophilia.	J Paediatr Child Health.	2016	血友病児（4～16歳）とその親22名	質問紙調査。身体的健康・栄養面・自己親・家族・友人・支援状況・スポーツと学校生活・血友病の対処・治療・将来・周囲との関係性として、親の認識と子どもの自己評価を比較	・4歳～7歳の子どもの親は、全体的に子どもの生活上のQOLを低く認識していた。 ・8歳～12歳の子どもの親は、栄養面、自己親、友人、治療において、子どものQOLを低く認識していた。 ・13歳～16歳の子どもの親は、スポーツや学校生活において、子どものQOLを低く認識していた。 ・中等症、重症の子どもの親は、QOLを低く認識していた。
5	藤井宝恵 古賀彩香 石川菜由子 ほか	血友病患者の母親支援に關するニーズ調査	日本遺伝看護学会誌	2015	血友病児の母親16名	質問紙調査。対象者の背景と支援の必要性について	・遺伝性疾患を告知された時・子どもが疾患を告知された時・家庭輸注に悩んだ時・出血時の対応・子育てに悩んだ時に支援を要していた。 ・子への遺伝相談支援を希望していた。保因者に關連した学習会・同じ境遇の者との交流会を希望し、本音を言える場を要していた。 ・出産後の血友病告知時は、両親・夫・医師・看護師・患者会の知人・兄弟姉妹からサポートを受けていた。
6	福島弘子 福島敬 後藤悠大 ほか	血友病児の生活支援における診療連携の役割と課題	The Japanese Journal of Pediatric Hematology/Oncology	2013	血友病児（幼児～高校生）の親9名	全対象者連携医療機関9施設の面接調査、一部アンケート調査。医療機関におけるカンファレンスを実施診療録よりデータ収集	・幼児・学童の親は、医療連携に關して、小児血液疾患の専門医不足緊急対応・子どもが新しい医療機関に慣れるか不安だった。 ・医療連携開始後は、大学病院受診の負担・緊急時の対応・子どもに我慢させてしまうこと、身近な相談相手の不足を心配していた。
7	Torres-Ortuño A, Cuesta-Barrioso R, Nieto-Munuera J.	Parents of children with haemophilia at an early age: assessment of perceived stress and family functioning.	Haemophilia.	2014	血友病児（1～7歳）の親49名（母親：26名父親：23名）	FACES III で親のストレスと家族機能を、PIPで親のストレスレベルを調査	・家族機能に有意差はなかった。 ・医療者とのコミュニケーション・わが子への注射と病氣に対するストレスが高かった。 ・ストレスとの相関が高かった要因は、家族歴・ボートの留置・インビター保有・血友病の重症度だった。 ・相対的に、父親よりも母親の方が高ストレス状態だった。
8	DeKoven M, Karkare S, Kelley LA, <i>et al.</i>	Understanding the experience of caring for children with haemophilia: cross-sectional study of caregivers in the United States.	Haemophilia.	2014	血友病者・血友病児の介護者310名	オンラインアンケート調査。精神的なストレス・経済状態・犠牲にするもの・医療的管理・子どもの体調や治療について	・血友病児の親は、精神的な苦痛と子どもの痛みに対してストレスを感じていた。 ・親は、子どもへの注射・関節症・出血による痛みを心配していた。 ・子どもの将来について心配していた。
9	Ergün S, Sülü E, Başbakal Z	Supporting the need for home care by mothers of children with hemophilia.	Home Healthc Nurse	2011	血友病児（2～18歳）の母親20名	質問紙調査。家庭治療導入時のアクシデントの対処や初期治療の習得・出血予防行動の状況・薬の投与・家族や友人の子どもの病氣の理解度・生活上の問題・子どもに關する相談相手の有無	・母親は、緊急時の対処を習得していたが、家庭治療の習得は難しく医療者に支援を求めている。 ・母親は、子どもが血友病から快復することを望んでいた。 ・母親は、家庭治療導入前、出血を恐れて子どもから目を離すことができなかった。家庭治療後は、活動範囲が拡大した。 ・母親は、子どもの病氣に対して無力感を抱いていたが、家庭治療により、自分自身で我が子を守る手ごたえを感じていた。
10	Emiliani F, Bertocchi S, Poti S, <i>et al.</i>	Process of normalization in families with children affected by hemophilia.	Qual Health Res.	2011	血友病児の親13名 ・母親8名・父親5名で、子どもはすべて出血時補充療法を受けていた	半構造化インタビュー調査。家族機能、役割の影響・医療者との関係とケアの管理・治療・社会的支援・家族の適応。5年後半構造化インタビューで定期補充療法開始後の変化について調査	・血友病のない日常を希望していた。 ・日常生活の正常化の実現には、血友病の理解・療養管理・安心感他者との関わりが必要であると考えていた。 ・出血の予防行動は家族の日常正常化の要因だった。 ・定期受診と外傷時の対応など、病院がサポートの場だった。 ・症状が出現しない限り日常生活が可能と考えていた。 ・定期補充療法は日常。困ったときは医療者の助けを求めている。
11	Geerts E, van de Wiel H, Tamminga R.	A pilot study on the effects of the transition of paediatric to adult health care in patients with haemophilia and in their parents: patient and parent worries, parental illness-related distress and health-related Quality of Life.	Haemophilia.	2008	血友病児（14歳以上・移行前）の血友病児9名とその両親18名	血友病に対する苦痛・心配について、オランダ独自の血友病児者における健康関連QOL調査用紙を用いて、トランジション前後の精神状態を調査	・移行期において、子どもと父親は医療者が変わることによる関係性と医療の質を心配していた。母親は、医療の質を心配していた。 ・父親は、子どもの病氣について、移行期前より移行後に苦痛を感じていた。 ・母親は、移行後に子どものQOLが低くなったと感じていた。父親は、移行後の子どもの精神機能と治療について懸念していた。 ・子どもの病氣に対する親の苦痛は、子どものトランジションに關連していた。
12	Wiedebusch S, Pollmann H, Siegmund B, <i>et al.</i>	Quality of life, psychosocial strains and coping in parents of children with haemophilia.	Haemophilia.	2008	血友病児（平均年齢11歳）の親55名（母親32名・父親23名）と若年性関節リウマチの子ども161名・1型糖尿病の子ども69名	質問紙調査。生活の質・心理社会的緊張・ストレスへの対処手段・子どもの病氣に対する思いについて。若年性関節リウマチと1型糖尿病を対象群とした	・精神社会的機能・家族支援の満足度・情緒・自己啓発・well-beingに有意差はなかった。情緒において、血友病の親と1型糖尿病の親は差がなかった。 ・血友病の親と若年性関節リウマチの親を比較して、血友病の親の方が精神的な落ち込みが少なかった。 ・夫婦関係が良く、緊張や心配が少い親は、QOLが高かった。 ・子どもの病氣と治療に対するニーズは、医療に關する情報だった。母親は父親よりニーズが高い傾向にあった。
13	Shaw D, Riley GA	The impact on parents of developments in the care of children with bleeding disorders.	Haemophilia.	2008	血友病児（8～12歳）家族24名（4名はvonWillebrand病）	インタビュー調査（open-end）。家庭治療と親の責任に關する利点と課題について	・何より普通の生活を送ることができるようになった。 ・定期補充療法は、子どもや家族の身体活動の制限を緩和し、子どもの活動を監視し、心配する必要がなくなった。旅行も自由ができる。 ・家庭注射の導入について、一部の親にとっては困難だった。子どもが痛がり抵抗することに苦悶していた。 ・家族歴がある家庭は血液感染症を心配していた。 ・治療の管理や子どもの状態の日常的な管理を負担に感じていた。

2) 血友病児の親が抱くストレスの内容

血友病児の親は、子どもの療養生活と、日常生活の QOL に関してストレスを抱えていた。

親は、子どもが血友病であること自体に精神的な苦痛を感じ^{7), 11), 19)}、出血や血友病性関節症による疼痛¹³⁾や血友病と共に生きる子どもの将来を心配していた^{7), 11), 18), 19)}。また、子どもの出血の予防と対処に苦慮していた^{11), 19)}。治療に関して、親は、血友病の止血管理の手段である家庭輸注を開始するにあたり、静脈注射の手技の習得に苦闘していた¹⁹⁾。家庭輸注を開始した後も、手技が十分に安定しない状況であり、注射を実施する事や注射の失敗に焦りを感じていた^{7), 9), 11), 13), 19)}。また、子どもに注射をする行為、および、何度も繰り返し注射しなければならないことに対して、精神的に葛藤していた¹²⁾。特に、注射により子どもが泣き、抵抗することに対して強い苦痛をもっていた^{9), 12), 14)}。また、親は、子どもの治療の背景に、遺伝・インヒビターの保有・ポートの留置があること、そして、血友病の重症度が高いほどストレスが強かった¹¹⁾。親は、医療制度やトランジションにより、医療者や医療の内容が変更することにもストレスを感じていた^{8), 16)}。治療によるストレスは、父親よりも母親が高い傾向にあり^{13), 17)}、親自身のストレス要因として、保因者の問題があった⁷⁾。日常生活においては、病院の近くに旅行先や居住地を決めざるを得ない不自由さをもっていた¹²⁾。親は、子どもの日常生活における QOL が低いと捉え、幼児期は身体面、学童期は自己感・友人関係・治療において、思春期はスポーツや学校生活において QOL が低いと感じており、子どもの血友病の重症度が高いほど QOL が低いと感じていた¹⁰⁾。また、トランジション前後を比較して、トランジション後の QOL が低いと感じていた¹⁶⁾。

2. 血友病児の親のストレスを軽減する要因

血友病児の親は、子どもの出血や、出血に伴う疼痛に対して精神的な苦痛を持っていたが、家庭輸注を導入することで子どもを守る手ごたえを感じ¹⁹⁾、緊急時の対応に自信を持つことができていた¹⁸⁾。さらに、親は、家庭輸注を出血

の予防行動と捉えることで出血の心配から解放され、子どもの身体活動や行動範囲に対する抑制を緩めて子どもの将来を考えることができるようになっていた。家庭輸注は、家族機能が正常化する要因となっていた¹⁵⁾。また、親は、怒りを表出する、趣味に勤しむ、家族・友人に状況を伝えて理解を得ることで、通常の家族生活を送ることができると考えていた¹¹⁾。一方で、血友病児の親は、I 型糖尿病児の親と若年性関節リウマチ児の親と比較して、情緒的な落ち込みが少なかったが、医療に関する情報を必要としていた¹⁷⁾。

考 察

国内、および、海外の調査報告より、血友病児の親は、子どもの病気と治療、子どもの日常生活の QOL に関してストレスを感じていた。

国内と海外の文献の比較において、わが国の血友病児の親は、医療体制に対する満足度の低さが伺えた。欧米は、血友病治療センターが整備されており、医療連携のもと、包括的ケアを提供している現状である。一方、わが国は、血友病治療センターの数が患者数に対して不足しており、血友病診療を担う中核病院の医療整備が不十分な状況である²⁰⁾。医療的基盤の相違は、医療を受ける子どもの QOL と親のストレスに影響を及ぼすと考える。そして、親は、家庭輸注の実施に関して強いストレスを感じていた。親は、家庭輸注という治療の一端を担う責任と、困難な静脈注射手技を習得する必要があることから、家庭輸注に関するストレスが大きかったと考える。また、親は、子どもを出血から守るための注射が、子どもに恐怖と痛みを与えることに葛藤していた。しかしながら、親は、家庭輸注により、子どもを出血から守る手ごたえを得ていた。静脈注射手技の習得と実施にストレスを抱えながらも、自分が子どもを出血から守ることができるという自信となり、子どもの出血や関節症に対するストレスコーピングになっていたと考える。家庭輸注を始めとした注射に関わる親のストレスを緩和するためには、親の生活様式や精神面に応じた静脈注射手技の習得

支援と、習得後の技術面、精神面における継続支援が必要と考える。さらに、トランジションに関して、慢性疾患をもつ子どもとその親は、医療情報、医師からの病気説明とサポートを必要としていた²¹⁾。血友病児の親は、医療者が変わることコミュニケーションに戸惑うこと、トランジション前とは情報取得の方法が異なること、そして、医療サポート体制の変化に影響され、トランジション後に子どもの QOL に関わるストレスを感じた推察する。また、血友病児の親は、子どもの日常生活の QOL が低いと認識していた。特に、重症、中等症、インヒビターを保有する子どもの親は、子どもの日常生活の QOL が低いと認識していた。親は、子どもの血友病の重症度・インヒビターの有無・出血などの身体症状、そして、子どもの成長に伴う日常生活の拡大や変化により気持ちの揺れが生ずると推察する。血友病児に対する子育て支援の視点を持った関わりが重要であると考え。

一方で、血友病児の親自身の要因として、保因者であること、保因者の可能性があることに対して、学習会や交流会といった支援を必要としていた。血友病の保因者は、月経過多や周産期出血、そして、外科的手術時の出血等の出血異常が認められている²²⁾。出血症状や出産に対応するためには、保因者診断が有効だが、心理的なストレスや遺伝差別を受ける可能性がある¹⁾。保因者、および、保因者の可能性をもつ母親を身体的、精神的に支援できるよう、今後の調査と、支援内容の検討を進める必要があると考える。

結 語

文献上、血友病児の親は、子どもの病気と治療、子どもの日常生活の QOL に関してストレスを感じており、特に、親が実施する家庭輸注と出血が子どもに苦痛を与えることに、強いストレスを抱えていることが明らかとなった。今後は、親のストレスを軽減するために、家庭輸注、子どもの血友病の重症度やインヒビターの有無に応じた療養支援、血友病児に対する子育て支援について検討する必要がある。また、親

自身の要因として、保因者の問題が挙げられたことから、保因者の可能性をもつ母親への支援について検討する必要がある。

本研究において、すべての著者には、申告すべき利益相反事項はない。

引用文献

- 1) 小倉妙美, 堀越泰雄: II 診断 1. 臨床症状. みんなに役立つ血友病の基礎と臨床改訂版, 白幡聡(編), 医療ジャーナル社, 東京, 104-115, 2012
- 2) 牛尾里美: 血友病の知識の教育. 小児看護, 32(12), 1592-1598, 2009
- 3) 瀧正志: III 治療 2. 定期補充療法. みんなに役立つ血友病の基礎と臨床改訂版, 白幡聡(編), 423, 医療ジャーナル社, 東京, 192-201, 2012
- 4) 血液凝固異常症調査委員会: 血液凝固異常症の QOL に関する研究 平成 26 年度調査報告書. 血液凝固異常症 QOL 調査委員会事務局, 2015
- 5) 扇野綾子, 中村由美子: 慢性疾患児を育てる母親の心理的適応モデルの検証—共分散分析を用いて—. 日本小児看護学会誌, 23(3), 1-9, 2014
- 6) 血友病在宅治療支援プログラム委員会: 血友病患者さんアンケート調査 よりよい在宅医療の実現をめざして調査報告書. (株)マッキャン ヘルスケア ワールドワイド ジャパン, 東京. 2009
- 7) 藤井宝恵, 古賀彩香, 石川茉莉子 他: 血友病患者の母親支援に関するニーズ調査. 日本遺伝看護学会誌, 13(2), 83-90, 2015
- 8) 福島紘子, 福島敬, 後藤悠大 他: 血友病児の生活支援における診療連携の役割と課題. The Japanese Journal of Pediatric Hematology/Oncology, 50(2), 227-231, 2013
- 9) 藤井宝恵, 古賀彩香, 藤井輝久 他: 血友病患者の治療も進歩は、学校・社会生活の改善

につながったか？－定期補充療法を主とする若年者の親を対象とした質問紙調査－. 広島大学医学雑誌, 66, 1-8, 2018

- 10) Williams VK, Antoniou G, Jackson A, *et al.*:Parents' perception of quality of life in their sons with haemophilia. J Paediatr Child Health, 52(12), 1095-1098, 2016
- 11) Peng J, Yang H, Fu G, *et al.*:A study of the stressors and coping behaviors of parents of Chinese hemophilic children. J Child Health Care, 21(2), 212-221, 2017
- 12) Von der Lippe C, Frich JC, Harris A, *et al.*:Treatment of hemophilia:A qualitative study of mothers' perspectives. Pediatr Blood Cancer, 64(1), 121-127, 2017
- 13) Torres-Ortuño A, Cuesta-Barriuso R,Nieto-Munuera J:Parents of children with haemophilia at an early age: assessment of perceived stress and family functioning. Haemophilia, 20(6), 756-762, 2014
- 14) DeKoven M, Karkare S, Kelley LA, *et al.*: Understanding the experience of caring for children with haemophilia: cross-sectional study of caregivers in the United States. Haemophilia, 20(4), 541-549, 2014
- 15) Emiliani F, Bertocchi S, Potì S, *et al.*: Process of normalization in families with children affected by hemophilia. Qual Health Res, 21(12), 1667-1678, 2011
- 16) Geerts E, van de Wiel H, Tamminga R:A pilot study on the effects of the transition of paediatric to adult health care in patients with haemophilia and in their parents:patient and parent worries, parental illness-related distress and health-related Quality of Life. Haemophilia, 14(5), 1007-1013, 2008
- 17) Wiedebusch S, Pollmann H, Siegmund B, *et al.*:Quality of life, psychosocial strains and coping in parents of children with haemophilia. Haemophilia, 14(5), 1014-1022, 2008
- 18) Shaw D, Riley GA:The impact on parents of developments in the care of children with bleeding disorders. Haemophilia, 14(1), 65-67, 2008
- 19) Ergün S, Sülü E,Başbakkal Z:Supporting the need for home care by mothers of children with hemophilia. Home Healthc Nurse, 29(9), 530-538, 2011
- 20) 白幡 聡:【血友病診療 update 現状と今後の課題】血友病診療連携体制 欧米諸国とわが国の状況. 日本血栓止血学会誌, 28(4), 443-450, 2017
- 21) 櫻井育穂:思春期・青年期の先天性心疾患とその親の成人型医療への移行に関する認識とその相違. 日本小児看護医学会誌, 25(3), 32-38, 2016
- 22) WORLD FEDERATION OF HEMOPHILIA (2012):Carriers and Women with Hemophilia, <https://www.wfh.org/en/abd/carriers/carriers-and-women-wit-hemophilia-en> (2019.10.1)

Literature Review on Parental Stress of Children with Hemophilia

Hiroko Aono¹⁾, Kanako Nakamura¹⁾, Hidechika Iino¹⁾, Yoko Matsuo²⁾

1) Fukuoka Nursing College, Faculty of Nursing, Department of Nursing, Division of Support Nursing

2) Department of Pediatrics and Child Health, Kurume University School of Medicine

Key words: Hemophilia, Parents, Home infusion, Stress

The purpose of this study is to clarify the stress contents of parents of children with hemophilia by literature review.

A literature search using the keywords "hemophilia", "children", "stress", "coping", "difficulty", "needs", "support", and "family function" was conducted in PubMed, Japan Medical Abstracts on the Web. As a result, 3 domestic and 10 overseas literatures were analyzed. We analyzed the stress of parents of children with hemophilia and factors that reduce those stress.

Parents experienced stress related to the quality of life of their children in recuperation and daily life. Parents were concerned about their children's future because of the psychological pain they felt from having hemophilia. With regard to treatment, parents struggled to learn and fail to learn the technique of intravenous injection when starting home infusion, and they were also mentally conflicted with the act of injecting children. Parents, on the other hand, felt that home infusion was a great way to protect their children from bleeding. The stress factor of the parent was the problem of the carrier.

Parents were under stress in learning and performing intravenous procedures, while they were confident that they could protect their children from bleeding, leading to stress coping for bleeding and arthropathy. In the future, in order to reduce the stress of parents, it is necessary to consider home infusion, medical treatment supports depending on the severity of hemophilia and the presence of inhibitors, childcare support for hemophiliacs, and supports for mothers who have the potential to be carriers.