

200400840A

厚生労働科学研究費補助金
難治性疾患克服研究事業

**特定疾患の疫学に関する研究
平成16年度総括・分担研究報告書**

主任研究者 稲葉 裕

平成17(2005)年3月

厚生労働科学研究費補助金難治性疾患克服研究事業

特定疾患の疫学に関する研究

平成16年度総括・分担研究報告書

主任研究者 稲葉 裕

厚生労働科学研究難治性疾患克服研究事業

特定疾患の疫学に関する研究班

平成17年3月

**2004 Annual Report of
Research on Measures for Intractable Diseases**

The Ministry of Health, Labour and Welfare of Japan

March 2005

Chairman: Yutaka Inaba, M.D., Ph.D.

序

2002（平成14）年度から主任研究者となって3年目、1999（平成11）年に前班長大野良之先生を受け継いで6年間の研究が終了しました。2004（平成16）年度の厚生労働科学研究費「特定疾患の疫学に関する研究」報告書をまとめることができ、ひとまずほっとしています。

この6年間繰り返し述べてきましたように、特定疾患に関する疫学研究の究極的な目標は、「人口集団内における各種難病の頻度分布を把握しその分布を規定している要因（発生関連／予防要因）を明らかにすることを通じて、難病患者の発生・進展・死亡を防止し、患者の保健医療福祉の各面、さらには人生および生活の質（QOL）の向上に資するための方策をあらゆる疫学的手法を駆使して確立すること、および疫学研究の本来の目的を達成するために臨床研究班・分科会と緊密な連携をとりながら研究を進め、難病の保健医療福祉対策の企画立案と実施のために役立つ行政科学的資料の提供と対策評価をする」ことです。この目標に向かって、分担研究者・協力研究者の熱意ある実践と行政・臨床研究班のご協力を得て精一杯の努力を重ねてきたつもりであります。この報告書は6年間の総括ともいうべきものですが、疫学研究の宿命で、次年度以後に継続される研究も少なくありません。

発生関連要因・予防要因の解明の研究では、神経線維腫症1型、後縦靭帯骨化症、筋萎縮性側索硬化症、サルコイドーシス、全身性エリテマトーデスの報告が掲載されています。基本的な姿勢としては、遺伝子多型と環境要因の交互作用に重点をおくことを目標にしてきましたが、すぐに役立つような結果は残念ながらまだ得られていません。

臨床調査個人票の体系的利用法の研究では、3つの疾患で臨床研究班に送付された調査票の解析の報告が掲載され、過去4回実施された医療受給者全国調査の利用、地域保健・老人保健事業報告の利用による研究が報告されています。新しいオンラインシステムによる調査票については、厚生労働省の許可を得て、12月末から解析を開始し、別冊（「電子入力された臨床調査個人票に基づく特定疾患治療研究医療受給者調査報告書」）として発行することにしました。

全国疫学調査では、2003年1月に実施された水疱性先天性魚鱗癬およびペーチェット病、2004年1月に開始された繊維筋痛症・小児急性膝炎・内分泌関連4疾患・多発性硬化症・クロウフカセ症候群・モヤモヤ病および進行性腎障害4疾患の報告と臨床班主導の調査である侵襲・非侵襲人工換気療法患者についての報告が掲載されています。

予後調査は、倫理面での課題があり大きく出遅れました。今回は特発性心筋症の進捗状況のみが報告されています。

地域ベースのコホート研究は大野班からの継続研究で5年間の結果が報告されています。

モニタリングシステムは特発性大腿骨頭壊死症と神経線維腫症1型の2つの疾患が継続して報告されています。

その他として、ニーズ調査から発展してきた炎症性腸疾患の患者団体を対象とした調査や臨床研究の報告が掲載されています。

最終結果の報告書として一応の成果を網羅できたものと自負しています。ご協力いただいた多くの方々に深く感謝いたします。

2005年3月24日記 主任研究者 稲葉 裕

目 次

I. 研究班構成員名簿	1
II. 臨床各班と疫学班との協力関係一覧	3
III. 総括研究報告書	
特定疾患の疫学に関する研究	5
主任研究者 稲葉 裕 順天堂大学医学部衛生学教授	
IV. 分担研究報告・協力研究報告	
1. 発生関連要因・予防要因の解明	
(1) 神経線維腫症1型の症例対照研究結果	11
三宅吉博（福岡大学医学部・公衆衛生学）、横山徹爾（国立保健医療科学院・技術評価部）、佐々木 敏（国立健康・栄養研究所・栄養所要量策定企画・運営）、縣 俊彦（東京慈恵会医科大学・環境保健医学）、古村南夫、中山樹一郎（福岡大学医学部・皮膚科）、田中景子、牛島佳代（福岡大学医学部・公衆衛生学）、阪本尚正（兵庫医科大学・衛生学）、岡本和士（愛知県立看護大学・公衆衛生学）、小橋 元（北海道大学大学院医学研究科・予防医学講座・公衆衛生学）、鷺尾昌一（札幌医科大学・公衆衛生学）、稲葉 裕（順天堂大学医学部・衛生学）	
(2) 後縦靭帯骨化症の発症関連要因・予防要因の解明；生活習慣と遺伝子多型に関する症例・対照研究	23
小橋 元（北海道大学大学院医学研究科・老年保健医学）、岡本和士（愛知県立看護大学・公衆衛生学）、鷺尾昌一（札幌医科大学・公衆衛生学）、阪本尚正（兵庫医科大学・衛生学）、佐々木 敏（国立健康・栄養研究所）、三宅吉博（福岡大学医学部・公衆衛生学）、横山徹爾（国立保健医療科学院・技術評価部）、田中平三（国立健康・栄養研究所）、日本後縦靭帯骨化症(OPLL)疫学研究グループ	
(3) 筋萎縮性側索硬化症の発症関連要因・予防要因の解明；生活習慣と食事要因に関する症例・対照研究	29
岡本和士（愛知県立看護大学・公衆衛生学）、紀平為子、近藤智善（和歌山県立医科大学・神経内科）、小橋 元（北海道大学大学院医学研究科・老年保健医学）、鷺尾昌一（札幌医科大学・公衆衛生学）、阪本尚正（兵庫医科大学・衛生学）、佐々木 敏（国立健康・栄養研究所）、三宅吉博（福岡大学医学部・公衆衛生学）、横山徹爾（国立保健医療科学院・技術評価部）、田中平三（国立健康・栄養研究所）、稲葉 裕（順天堂大学医学部・衛生学）	

- (4) サルコイドーシスの症例対照研究計画 35
 横山徹爾（国立保健医療科学院・技術評価部）、中島正光（広島大学大学院分子内科・第二内科）、江石義信（東京医科歯科大学病院・病理部）、三宅吉博（福岡大学医学部・公衆衛生学）、佐々木 敏（独立行政法人国立健康・栄養研究所）、岡本和士（愛知県立看護大学・公衆衛生学）、小橋 元（北海道大学大学院医学研究科・老年保健医学）、阪本尚正（兵庫医科大学・衛生学）、鷺尾昌一（札幌医科大学・公衆衛生学）
- (5) 全身性エリテマトーデスの症例対照研究 38
 鷺尾昌一（札幌医科大学・公衆衛生学）、清原千香子、堀内孝彦、塚本 浩、原田実根、古庄憲浩、林 純（九州大学大学院）、浅見豊子、佛淵孝夫、牛山 理、多田芳史、長澤浩平（佐賀大学）、児玉寛子、井出三郎（聖マリア学院短期大学）、小橋 元（北海道大学大学院医学研究科・予防医学）、岡本和士（愛知県立看護大学・公衆衛生学）、阪本尚正（兵庫医科大学・衛生学）、佐々木 敏（国立健康・栄養研究所）、三宅吉博（福岡大学医学部・公衆衛生学）、横山徹爾（国立保健医療科学院・技術評価部）、大浦麻絵、鈴木 拓、森 満、高橋裕樹、山本元久（札幌医科大学）、阿部 敬（市立釧路総合病院）、稲葉 裕（順天堂大学医学部・衛生学）
- (6) 発生関連要因・予防要因の解明 44
 阪本尚正（兵庫医科大学・環境予防医学）、岡本和士（愛知県立看護大学・公衆衛生学）、小橋 元（北海道大学大学院医学研究科・社会医学系予防医学）、佐々木 敏（国立健康・栄養研究所・栄養所要量策定企画・運営担当）、三宅吉博（福岡大学医学部・公衆衛生学）、横山徹爾（国立保健医療科学院・技術評価部）、鷺尾昌一（札幌医科大学・公衆衛生学）、稲葉 裕（順天堂大学医学部・衛生学）

2. 医療受給者の臨床調査個人票による患者実態調査とその体系的利用

- (1) 臨床調査個人票の有効利用 47
 坂内文男、森 満（札幌医科大学医学部・公衆衛生学）
- (2) 特定疾患治療研究事業による臨床調査個人票をもとにしたクロイツフェルト・ヤコブ病のサーベイランス結果 50
 中村好一、渡邊 至（自治医科大学地域医療学センター・公衆衛生学部門）、山田正仁（金沢大学大学院医学系研究科）、水澤英洋（東京医科歯科大学大学院医歯学総合研究科）
- (3) 13年間に性比が増大した疾患についての検討 52
 石島英樹、仁科基子、柴崎智美、太田晶子、泉田美智子、永井正規（埼玉医科大学・公衆衛生学）

(4) 疾患別・性・年齢別受給者数の18年間の変化	64
太田晶子、仁科基子、柴崎智美、石島英樹、泉田美智子、永井正規（埼玉医科大学・公衆衛生学）	
(5) 2002年度地域保健・老人保健事業報告による全国特定疾患医療受給者の実態把握	107
太田晶子、仁科基子、柴崎智美、石島英樹、泉田美智子、永井正規（埼玉医科大学・公衆衛生学）	
(6) 2002年度特定疾患医療受給者の地域格差（保健所別）の検討	121
仁科基子、柴崎智美、太田晶子、石島英樹、泉田美智子、永井正規（埼玉医科大学・公衆衛生学）	
3. 特定の難病の全国疫学調査	
(1) 線維筋痛症全国疫学調査	155
玉腰暁子（名古屋大学大学院医学系研究科予防医学/医学推計・判断学）、前田伸治（名古屋市立大学大学院医学研究科）、松本美富士（山梨県立看護大学短期大学部人間・健康科学）	
(2) 小児急性膵炎全国疫学調査	157
玉腰暁子（名古屋大学大学院医学系研究科予防医学/医学推計・判断学）、広田昌彦（熊本大学大学院医学薬学研究部）、木原康之、大槻眞（産業医科大学・第三内科）	
(3) 潜在性または不顕性クッシング病、ACTH分泌をしないACTH産生下垂体腺腫の全国疫学調査	159
横山徹爾（国立保健医療科学院・技術評価部）、須田俊宏（弘前大学医学部・第三内科）、千原和夫（神戸大学大学院医学研究科・内分泌代謝・神経・血液腫瘍内科）、橋本浩三（高知大学医学部・内分泌代謝・腎臓内科）、平田結喜緒（東京医科歯科大学・体内分泌制御学）、玉腰暁子（名古屋大学大学院医学系研究科予防医学/医学推計・判断学）、稲葉 裕（順天堂大学医学部・衛生学）	
(4) 多発性硬化症の全国疫学調査成績	164
坂田清美（岩手医科大学医学部・衛生学公衆衛生学講座）、吉良潤一（九州大学大学院医学研究院医学系学府医学部・神経内科学）	
(5) クロウ・フカセ症候群の全国疫学調査成績	166
坂田清美（岩手医科大学医学部・衛生学公衆衛生学講座）、有村公良（鹿児島大学大学院医歯学総合研究科神経病学）	

- (6) 全国疫学調査によるモヤモヤ病の患者数推計と臨床疫学像 ----- 168
辻 一郎 (東北大学大学院医学系研究科・公衆衛生学)、吉本高志 (東北大学総長)、日下康子、藤村 幹 (東北大学大学院医学系研究科・神経外科)、栗山進一 (東北大学大学院医学系研究科・公衆衛生学)
- (7) 進行性腎障害 4 疾患の患者数の推計 ----- 173
清原康介、川村 孝 (京都大学・保健管理センター)、若井建志 (愛知県がんセンター・疫学・予防部)、玉腰暁子 (名古屋大学大学院医学系研究科予防医学/医学推計・判断学)、遠藤正之、堺 秀人 (東海大学医学部・腎代謝内科)、富野康日己 (順天堂大学医学部・腎臓内科)
- (8) ベーチェット病の全国疫学調査－患者数推計 (一次調査結果) ----- 179
黒沢美智子、稲葉 裕、松葉 剛 (順天堂大学医学部・衛生学)、西部明子、金子史雄 (福島医科大学医学部・皮膚科)、玉腰暁子 (名古屋大学大学院医学系研究科健康社会医学専攻・社会生命科学講座予防/医学推計・判断学)、川村 孝 (京都大学・保健管理センター)
- (9) ベーチェット病の全国疫学調査－臨床疫学像 (二次調査結果) ----- 181
黒沢美智子、稲葉 裕、松葉 剛 (順天堂大学医学部・衛生学)、西部明子、金子史雄 (福島医科大学医学部・皮膚科)、玉腰暁子 (名古屋大学大学院医学系研究科健康社会医学専攻・社会生命科学講座予防/医学推計・判断学)、川村 孝 (京都大学・保健管理センター)
- (10) 水疱型先天性魚鱗癬様紅皮症 (一次、二次) 及び参考疾患の全国疫学調査結果 ----- 189
黒沢美智子 (順天堂大学医学部・衛生学)、池田志孝 (順天堂大学医学部・皮膚科)、玉腰暁子 (名古屋大学大学院医学系研究科健康社会医学専攻・社会生命科学講座予防/医学推計・判断学)、川村 孝 (京都大学・保健管理センター)、稲葉 裕 (順天堂大学医学部・衛生学)、北島康雄 (岐阜大学医学部・皮膚科)、松葉 剛 (順天堂大学医学部・衛生学)
- (11) 侵襲、非侵襲人工換気療法 of 患者数推計 - 中間報告 2004 - ----- 197
縣 俊彦、豊島裕子、中村晃士、西岡真樹子、佐野浩斎、松平 透、清水英佑 (東京慈恵会医科大学・環境保健医学)、佐伯圭一郎 (大分看護情報大学、保健情報)、稲葉 裕、黒沢美智子 (順天堂大学医学部・衛生学)、石原英樹 (大阪府立呼吸器・アレルギー医療センター)、久保恵嗣 (信州大学医学部・内科学第一)、坂谷光則 (国立病院機構近畿中央胸部疾患センター)、西川浩昭 (筑波大学大学院・人間総合科学研究科)

4. 特定の難病の予後調査

- (1) 特発性心筋症の予後調査 207
中川秀昭、三浦克之、曾山善之、森河裕子（金沢医科大学・健康増進
予防医学）、松森 昭（京都大学大学院医学研究科・循環病態学）、
北畠 顕（北海道大学大学院医学研究科・循環病態学）、稲葉 裕（順
天堂大学医学部・衛生学）

5. 地域ベースコホート研究の実施

- (1) 特定疾患患者の地域ベース・追跡（コホート）研究の最終年度追跡結果
報告 213
松田智大（国立保健医療科学院・疫学部）、坂田清美（和歌山医科学
大学・公衆衛生学）、杉江拓也（国立保健医療科学院・疫学部）、新城
正紀（沖縄県立看護大学・公衆衛生学・疫学）、三徳和子（川崎医療
福祉大学・医療福祉学部）、眞崎直子（福岡県久留米保健所）、平良
セツ子（沖縄県宮古保健所）、永井正規（埼玉医科大学・公衆衛生学）、
蓑輪眞澄（国立保健医療科学院・疫学部）
- (2) 脊髄小脳変性症患者の QOL 222
眞崎直子（福岡県久留米保健所）、松田智大（国立保健医療科学院・
疫学部）、三徳和子（川崎医療福祉大学・医療福祉学部）、新城正紀
（沖縄県立看護大学・公衆衛生学・疫学）、坂田清美（和歌山医科学
大学・公衆衛生学）、永井正規（埼玉医科大学・公衆衛生学）、平良
セツ子（沖縄県宮古保健所）、杉江拓也、蓑輪眞澄（国立保健医療科学
院・疫学部）
- (3) 神経難病患者において包括的 QOL が治療や保健福祉サービスに対する
満足度に与える影響の考察 228
松田智大（国立保健医療科学院・疫学部）、眞崎直子（福岡県久留米
保健所）、新城正紀（沖縄県立看護大学・公衆衛生学・疫学）、平良
セツ子（沖縄県宮古保健所）、三徳和子（川崎医療福祉大学・医療福
祉学部）、杉江拓也（国立保健医療科学院・疫学部）、坂田清美（和
歌山医科大学・公衆衛生学）、永井正規（埼玉医科大学・公衆衛生学）、
蓑輪眞澄（国立保健医療科学院・疫学部）
- (4) 32 特定疾患患者の主観的健康(QOL)プロフィール 236
三徳和子（川崎医療福祉大学・医療福祉学部）、松田智大（国立保健
医療科学院・疫学部）、眞崎直子（福岡県久留米保健所）、新城正紀
（沖縄県立看護大学・公衆衛生学・疫学）、平良セツ子（沖縄県宮古
保健所）、坂田清美（和歌山医科大学・公衆衛生学）、杉江拓也（国
立保健医療科学院・疫学部）、永井正規（埼玉医科大学・公衆衛生学）、

6. 定点モニタリング・システムの運用と新たな疾患についての検討

- (1) 特発性大腿骨頭壊死症の発生要因 - 多施設共同症例・対照研究 249
田中 隆、廣田良夫 (大阪市立大学大学院医学研究科・公衆衛生学)、
- (2) 特定複数施設患者における特発性大腿骨頭壊死症の記述疫学研究
- 新患症例に関する 8 年間の集計・確定診断年別の経年変化 - 256
福島若葉、田中 隆、廣田良夫 (大阪市立大学大学院医学研究科・公衆衛生学)、竹下節子 (東海大学福岡短期大学・情報処理学科)
- (3) 個人情報保護と定点モニタリングについての研究 266
縣 俊彦、清水英佑、松平 透、佐野浩斎、中村晃士、西岡真樹子 (東京慈恵会医科大学・環境保健医学)、新村真人 (東京慈恵会医科大学・皮膚科)、大塚藤男 (筑波大学・皮膚科)、稲葉 裕、黒沢美智子 (順天堂大学医学部・衛生学)、古村南夫、中山樹一郎 (福岡大学医学部・皮膚科)、三宅吉博 (福岡大学医学部・公衆衛生学)、高木廣文 (新潟大学医学部)、金城芳秀 (沖縄県立看護大学)、李廷秀 (東京大学・健康増進科学)、柳 修平 (東京女子医科大学)、河 正子 (東京大学医学部・ターミナルケア学)

7. その他の個別研究

- (1) 就学中の IBD 患者における日常の困難感と生活ニーズ 281
前川厚子、神里みどり、安藤詳子、竹井留美 (名古屋大学医学部保健学科)、楠神和男、安藤貴文、後藤秀実 (名古屋大学大学院医学系研究科)、小松喜子 ((株)水戸薬局)、伊藤美智子、藤井京子、高添正和 (社会保険中央総合病院)、積 美保子 (日本看護協会看護研修学校)、渋谷優子 (藤田保健衛生大学)、山崎京子 (茨城キリスト教大学)、小橋 元 (北海道大学大学院・医学研究科)、太田薫里 (千葉大学大学院・医学研究科)、中村 眞、内山 幹 (東京慈恵会医科大学附属柏病院・消化器肝臓内科)、白石弘美 (東京慈恵会医科大学附属病院・栄養部)、片平洸彦 (東洋大学社会学部)
- (2) 炎症性腸疾患の脂肪酸バランス失調説のエビデンスに関する文献的考察 --- 286
片平洸彦 (東洋大学・社会学部)、小松喜子 (水戸薬局)、前川厚子、神里みどり (名古屋大学大学院・医学系研究科)、渋谷優子 (藤田保健衛生大学・衛生学科)、山崎京子 (茨城キリスト教大学・看護学部)、藤井京子、伊藤美智子 (社会保険中央総合病院)、積 美保子 (日本看護協会看護研修学校)、小橋 元 (北海道大学大学院・医学研究科)、太田薫里 (千葉大学大学院・医学研究科)、中村 眞、内山 幹 (東京慈恵会医科大学附属柏病院・消化器肝臓内科)、白石弘美 (東京慈恵会医科大学附属病院・栄養部)

(3) 炎症性腸疾患 (IBD) 患者の性比および年齢階級別・性別による QOL	289
神里みどり、前川厚子 (名古屋大学)、小松喜子 (水戸薬局)、渋谷 優子 (藤田保健衛生大学)、山崎京子 (茨城キリスト教大学)、片平 洸彦 (東洋大学)	
(4) 炎症性腸疾患の脂肪酸栄養療法、薬物療法の意義に関する多変量解析によ る検討	293
中村 眞、内山 幹、桜井俊之 (東京慈恵会医科大学付属柏病院・消 化器・肝臓内科)、白石弘美 (東京慈恵会医科大学付属病院・栄養部)、 丸尾さやか (東京慈恵会医科大学付属病院・ソーシャルワーカー)、 片平洸彦 (東洋大学・社会学部)	
V. 事務局記録	295
VI. 平成 16 年度総会プログラム	
第 1 回総会プログラム	297
第 2 回総会プログラム	302
VII. 添付資料	309
VIII. 研究成果の刊行に関する一覧表	381
IX. 研究成果の刊行物・別刷	385

I. 研究班構成員名簿

特定疾患の疫学に関する研究班組織

1. 構成員一覧 (50音順)

区分	氏名	所属	職名	
主任研究者	稲葉 裕 <small>いなば ゆたか</small>	順天堂大学医学部衛生学	教授	
分担研究者	縣 俊彦 <small>あがた としひこ</small>	東京慈恵会医科大学環境保健医学	助教授	
	小橋 元 <small>こはし げん</small>	北海道大学大学院医学研究科老年保健医学	講師	
	阪本 尚正 <small>さかもと なおまさ</small>	兵庫医科大学環境予防医学講座	講師	
	玉腰 暁子 <small>たまこし あきこ</small>	名古屋大学大学院医学研究科・予防医学/ 医学推計・判断学	助教授	
	中川 秀昭 <small>なかがわ ひであき</small>	金沢医科大学健康増進予防医学	教授	
	中村 好一 <small>なかむら よしかず</small>	自治医科大学保健科学講座公衆衛生学部門	教授	
	永井 正規 <small>ながい まさき</small>	埼玉医科大学公衆衛生学	教授	
	簗輪 眞澄 <small>みのわ ますみ</small>	国立保健医療科学院疫学部	部長	
	横山 徹爾 <small>よこやま てつじ</small>	国立保健医療科学院技術評価部	主任研究官	
	鷺尾 昌一 <small>わしお まさかず</small>	札幌医科大学公衆衛生学	助教授	
	研究協力者	井原 一成 <small>いはら かずしげ</small>	東邦大学医学部公衆衛生学	講師
	太田 晶子 <small>おおた あきこ</small>	埼玉医科大学公衆衛生学	講師	
	岡本 和士 <small>おかもと かずし</small>	愛知県立看護大学公衆衛生学	教授	
片平 洌彦 <small>かたひら きよひこ</small>	東洋大学社会学部社会福祉学科	教授		
川村 孝 <small>かわむら たかし</small>	京都大学保健管理センター	教授		
木村 慎吾 <small>きむら しんご</small>	佐賀県健康福祉本部健康増進課			
清原 千香子 <small>きよはら ちかこ</small>	九州大学大学院医学研究院予防医学分野	講師		
坂田 清美 <small>さかた きよみ</small>	岩手医科大学公衆衛生学	教授		
佐々木 敏 <small>ささき さとし</small>	独立行政法人国立健康・栄養研究所栄養所要量 策定企画・運営担当	ライター		
柴崎 智美 <small>しばさき ともみ</small>	埼玉医科大学公衆衛生学	講師		
新城 正紀 <small>しんじょう まさき</small>	沖縄県立看護大学公衆衛生学	教授		
杉田 稔 <small>すぎた のり</small>	東邦大学医学部衛生学	教授		
田中 隆 <small>たなか たかし</small>	大阪市立大学大学院医学研究科公衆衛生学	助教授		
辻 一郎 <small>つじ いちろう</small>	东北大学大学院医学系研究科医学部公衆衛生学	教授		
豊嶋 英明 <small>とよしま ひであき</small>	名古屋大学大学院医学研究科公衆衛生学	教授		
中村 眞 <small>なかむら まこと</small>	東京慈恵会医科大学附属柏病院消化器・肝臓内科	医師		
仁科 基子 <small>にしな もとこ</small>	埼玉医科大学公衆衛生学	実験助手		
堀内 孝彦 <small>ほりうち たかひこ</small>	九州大学大学院医学研究院病態修復内科	助手		
三宅 吉博 <small>みやけ よしひろ</small>	福岡大学医学部公衆衛生学	講師		
森 満 <small>もり みつる</small>	札幌医科大学公衆衛生学	教授		
事務連絡担当 責任者 (事務局)	黒澤美智子 <small>くろさわ みちこ</small>	順天堂大学医学部衛生学	助手	

Ⅱ．臨床各班と疫学班 との協力関係一覧

2. 臨床各班と疫学班との協力関係一覧

研究課題名	主任研究者	協力担当者(所属)	疫学班担当
1. 特発性造血障害	小峰 光博	小峰 光博(昭和大藤が丘病院内科血液) 浦部 昌夫(NTT 関東病院血液内科)	杉田 稔
2. 血液凝固異常症	池田 康夫	池田 康夫(慶應義塾大学医学部内科)	杉田 稔
3. 原発性免疫不全症候群	宮脇 利男	岩田 力(東京大学大学院成長発達加齢医学)	中村 好一
4. 難治性血管炎	尾崎 承一	山田 秀裕(聖マリアンナ医科大学内科リウマチ・膠原病・アレルギー-内科)	稲葉裕(松葉剛)
5. 自己免疫疾患	小池 隆夫		鷲尾 昌一
6. ベーチェット病	金子 史男	西部 明子(福島県立医科大学皮膚科)	稲葉裕(松葉剛)
7. ホルモン受容機構異常	清野 佳紀	赤水 尚史(京都大学医学部附属病院探索医療センター)	中村 好一
8. 間脳下垂体機能障害	千原 和夫	横山 徹爾(国立保健医療科学院技術評価部)	横山 徹爾
9. 副腎ホルモン産生異常	名和田 新	上芝 元(東邦大学医学部内科学糖尿病・代謝・内分泌科)	中川 秀昭
10. 中枢性摂食異常症	柴崎 保	鈴木 眞理(政策研究大学院大学保健管理センター)	井原 一成
11. 原発性高脂血症	齋藤 康	武城 英明(千葉大学大学院医学研究院臨床遺伝子応用医学)	豊嶋 英明
12. アミロイドーシス	池田 修一	徳田 隆彦(信州大学大学院医学研究科分子細胞学)	中川 秀昭
13. プリオン病及び遅発性ウイルス感染	水澤 英洋	中村 好一(自治医科大学疫学・地域保健科学講座)	中村 好一
14. 運動失調症	辻 省次	小野寺 理(新潟大学脳研究所附属生命科学リソース研究センター)	阪本 尚正
15. 神経変性疾患	葛原 茂樹	成田 有吾(三重大学医学部附属病院医療福祉支援センター)	岡本 和士
16. 免疫性神経疾患	吉良 潤一	村井 弘之(九州大学大学院医学研究院神経内科学)	坂田 清美
17. 先天性水頭症	山崎 麻美	森竹 浩三(島根医科大学医学部脳神経外科)	玉腰 暁子
18. ウィリス動脈輪閉塞症	吉本 高志	辻 一郎(東北大学大学院医学研究科公衆衛生学)	辻 一郎
19. 網膜脈絡膜・視神経萎縮症	石橋 達朗	中江 公裕(南九州大学健康栄養学部食品健康学科)	杉田 稔
20. 前庭機能異常	高橋 正紘		坂田 清美
21. 急性高度難聴	喜多村 健	中島 務(名古屋大学医学部耳鼻咽喉科)	井原 一成
22. 特発性心筋症	北島 顕	松森 昭(京都大学大学院医学研究科臨床器官病態学)	中川 秀昭
23. びまん性肺疾患	貫和 敏博	河野 修興(広島大学大学院分子内科学(第二内科))	横山 徹爾
24. 呼吸不全	久保 恵嗣	福原 俊一(京都大学大学院医学研究科医療疫学)	縣 俊彦
25. 難治性炎症性腸管障害	日比 紀文	武林 享(慶應義塾大学医学部衛生学公衆衛生学)	鷲尾 昌一
26. 難治性の肝疾患	戸田剛太郎	銭谷 幹男(東京慈恵会医科大学消化器・肝臓内科)	森 満
27. 門脈血行異常症	橋爪 誠	廣田 良夫(大阪市立大学大学院公衆衛生学) 田中 隆(大阪市立大学大学院公衆衛生学)	田中 隆
28. 肝内結石症	跡見 裕	跡見 裕(杏林大学医学部第一外科)	佐々木 敏
29. 難治性脾疾患	大槻 眞	木原 康之(産業医科大学第三内科)	玉腰 暁子
30. 稀少難治性皮膚疾患	北島 康雄	池田 志孝(順天堂大学医学部皮膚科)	黒沢美智子
31. 強皮症	竹原 和彦	尹 浩信(東京大学医学部附属病院皮膚科)	森 満
32. 混合性結合組織病	近藤 啓文	岡田 純(北里大学医学部健康管理センター)	三宅 吉博
33. 神経皮膚症候群	中山樹一郎	三宅 吉博(福岡大学医学部公衆衛生学)	縣 俊彦
34. 脊柱靭帯骨化症	中村 耕三		小橋 元
35. 特発性大腿骨頭壊死症	久保 俊一	廣田 良夫(大阪市立大学医学部公衆衛生学)	田中 隆
36. 進行性腎障害	富野康日己	遠藤 正之(東海大学医学部腎代謝内科)	川村 孝
37. スモン	松岡 幸彦	氏平 高敏(名古屋市衛生研究所疫学情報部)	養輪 眞澄

Ⅲ. 總括研究報告書

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患克服研究事業）

総括研究報告書

特定疾患の疫学に関する研究

主任研究者 稲葉 裕 順天堂大学医学部衛生学教授

分担研究者

中村好一 自治医科大学保健科学講座公衆衛生学部門教授

玉腰暁子 名古屋大学大学院医学系研究科健康社会医学専攻社会生命科学大講座助教授

永井正規 埼玉医科大学公衆衛生学教授

箕輪真澄 国立保健医療科学院疫学部部長

中川秀昭 金沢医科大学健康増進予防医学教授

縣 俊彦 東京慈恵会医科大学環境保健医学助教授

小橋 元 北海道大学大学院医学研究科老年保健医学講師

阪本尚正 兵庫医科大学環境予防医学講師

横山徹爾 国立保健医療科学院技術評価部主任研究官

鷲尾昌一 札幌医科大学公衆衛生学助教授

当研究班の目的は、「人口集団内における各種難病の頻度分布を把握し、その分布を規定している要因（発生関連／予防要因）を明らかにすることを通じて、難病患者の発生・進展・死亡を防止し、患者の保健医療福祉の各面、さらには人生および生活の質（QOL）の向上に資するための方策をあらゆる疫学的手法を駆使して確立すること、および難病の保健医療福祉対策の企画・立案・実施のために有用な行政科学的資料を

提供し、難病対策の評価にも関わること」である。この目的に添って初年度にプロジェクト研究9件を企画し、最終年の3年目が終了した。ここでは最終年度の成果を中心にプロジェクトごとに総括する。

①発生関連要因・予防要因の解明

6年前に研究協力者として参加した若手研究者から、数人を3年前に分担研究者として加わっていただき、遺伝子多型と環境因子の相互作用を中心とした症例対照研究を企画してきた。いずれも各機関の倫理審査委員会の承認を経て研究を開始した。対象疾患ごとに総括する。

神経線維腫症1型では、孤発例の環境要因を課題として、症例21、対照50を解析した結果、父親の間接喫煙の影響が認められた。

後縦靭帯骨化症では、症例63、性・年齢を対応させた病院対照、住民対照各126例の解析結果では、VDR遺伝子FokI多型Fの頻度が症例群に低いこと、LPL遺伝子HindIII多型hには差が認められなかったこと、糖尿病以外に高血圧既往歴ありが症例群に多いことが示された。

筋萎縮性側索硬化症では、愛知県内の90例の症例について、対照例を選挙人名簿から抽出して調査し、比較解析を実施した。病前性格と食品摂取状況の解析を行い、「目的達成のために努力した」、「緑黄色野菜

の摂取頻度が低い」が症例群に高いことが示された。

サルコイドーシスでは、Propionibacterium acnes との関連に注目して、多施設共同での症例対照研究実施の準備が整った。

全身性エリテマトーデスでは、多施設共同研究で、症例 44 例と学生対照 268 例との比較で、症例群に喫煙者、飲酒者、膠原病既往歴、手術経験者、ピル使用経験者が多かった。症例 123 例と住民対照 190 例との比較では、症例群に慢性関節リウマチ、蕁麻疹、膠原病の既往歴、手術の既往、輸血の経験、膠原病の家族歴のある者が多かった。遺伝子多型が測定できた症例 63 例と学生対照 261 例の比較では、TNF 受容遺伝子の遺伝子多型の R+と、CYP1A1-Msp I C 型が症例群に多く認められた。

②医療受給者の臨床調査票による患者実態調査とその体系的利用

平成 15 年 10 月から新規・継続を合わせて入力するオンラインシステムが動き始め、研究利用への手続きが整えられて平成 16 年 12 月に許可を得て作業を開始した。これは「電子入力された臨床調査個人票に基づく特定疾患治療研究医療受給者調査報告書」として別冊として発行された。臨床班に送付された平成 10、11 年度の臨床調査票を利用した研究として、強皮症(10,956 例)、原発性胆汁性肝硬変(6,305 例)についての検討がされたこと、クロイツフェルト・ヤコブ病(577 例)の新規罹患の臨床像が独自のサーベイランス委員会の検討結果としてまとめられたことが報告されている。過去 4 回実施された医療受給者全国調査を利用した研究結果が 2 つ報告されている。

一つは性比の増大した 12 疾患に注目したもので、いずれも新規受給者で性比が増大したためであることが示された。もう一つは 2002 年の地域保健事業報告の数値も含めて 1984 年から 18 年間の医療受給者を疾患別、性・年齢別に検討したものであり、行政資料として有用なものである。2002 年の地域保健事業報告を利用した報告があと 2 つある。一つは最新の疾患別・性別・年齢別都道府県別の受給者数の報告であり、もう一つは地域格差(保健所別)の検討である。いずれも基礎資料として有用なものと評価する。

③特定の難病の全国疫学調査

2004 年 1 月に実施した、繊維筋痛症(推計患者数 95%信頼区間 1850~3490)、小児急性膀胱炎(同 350~490)、間脳下垂体機能障害(潜在性または不顕性クッシング病 130~330、ACTH 分泌をしない ACTH 産生下垂体腺腫 30~90)、多発性硬化症(11400~13300)、クローフカセ症候群(280~410)、モヤモヤ病(ウィリス動脈輪閉塞症 6100~8900)、進行性腎障害(IgA 腎症 28000~37000、急速進行性糸球体腎炎症候群 3200~4200、難治性初発性症候群 4500~5900、常染色体優性多発性嚢胞腎 6700~9200)の調査結果が報告されている。2003 年 1 月に実施されたベーチェット病と水疱性先天性魚鱗癬様紅皮症についての最終的な解析結果も掲載した。また、臨床班主導の「侵襲、非侵襲人工換気療法の患者数推計の中間報告」が掲載されている。本年 1 月に開始された 10 疾患(腭嚢胞線維症、血栓性血小板減少性紫斑病、溶血性尿毒症症候群、大腿骨骨頭壊死症、特発性門脈圧亢進症、肝外門脈閉塞症、パッドキアリ症候群、原発性胆汁性肝硬変、

自己免疫性肝炎、劇症肝炎)については来年度へ繰り越すことになる。調査対象となる病院での倫理審査についての検討は今後の課題として残されている。

④「難病 30 年のまとめ」は昨年度完成しており今年度の報告はない。

⑤特定の難病の予後調査

予後の検討には、原則的には国の「疫学研究の倫理指針」に従って、インフォームドコンセントの得られた患者さんの追跡を実施することが必要であるが、特発性心筋症に関しては匿名化を工夫することで、倫理委員会の許可を得て追跡調査を実施し、途中経過が報告されている。ベーチェット病に関しては、今回の報告書に記載がないが、QOL 調査とともに患者本人の同意を得て実施する方向で調査が進行中である。

⑥地域ベースのコホート研究の実施

対人保健サービスの評価を目的に難病患者個人の臨床情報、疫学・保健・福祉情報、福祉サービス利用状況等の調査を実施し、保健所をベースとした難病患者情報システムが 1999 年に 37 の保健所で構築された。ベースライン調査 (2059 名)、第 1 回目追跡調査 (3202 名)、第 2 回目追跡調査 (1552 名) 第 3 回目追跡調査 (894 名) を対象に解析が行われた。SF36 などの QOL 関連の指標を含めて、特に神経難病の実態の把握に有用な資料が提供されている。平成 16 年度をもって担当の分担研究者 (菘輪真澄) が交代するため、この研究は一時中断される。

⑦行政資料による難病の頻度調査

この 3 年間では人口動態死亡票、患者調査の目的外使用の申請は実施しなかった。研究班としては、5 年ないし 10 年ごとの報告の作成を継続する必要がある。

⑧定点モニタリング・システムの運用と新たな疾患についての検討

前回から継続して、特発性大腿骨頭壊死症と神経線維腫症 1 (NF1) の定点モニタリング・システムの運用を通して本システムの有効性と限界を検討してきた。特発性大腿骨頭壊死症では、1997 年の 10 施設から始められ、現在 18 施設が協力している。NF1 では、1997, 1998, 2000 年に次いで 2003 年に 4 回目の調査を実施したが、個人情報の入手についての条件が厳しくなったためか、これまでの 1/3~1/4 の回収となった。個人票の情報システムが完備するようになれば、このシステムはその使命を終えることになるのではないかという意見が出ている。

⑨その他の個別研究

前回のニーズ調査から発展した炎症性腸疾患 (IBD) 関連の研究報告が今年度も 4 題ある。QOL と関連する要因、食事での n-3/n-6 比に注目した臨床研究が実施された。

研究班 3 年間の総括は別に記した。新しい研究班がこれまでの実績の上にさらに有用な研究を積み上げて、難病の疫学の成果を高めて行って下さることを期待する。

健康危険情報

特になし。

研究発表 (平成 16 年度)

1. 論文発表

本報告書巻末の別表に記載した。

2. 学会発表

1) 縣俊彦、高木廣文、金城芳秀、稲葉裕、

- 黒沢美智子、三宅吉博. 個人情報保護と疫学研究のあり方. 第 14 回日本疫学会学術総会. 2004.1 山形
- 2) 松田智大, 坂田清美, 眞崎直子, 平良セツ子, 箕輪眞澄. パーキンソン病患者の ADL の経年変化が QOL に及ぼす影響についての解析. 第 14 回日本疫学会学術総会. *Journal of Epidemiology* 2004; 14(1 Suppl): 73. 2004.1 山形
- 3) 松田智大, 永井正規, 新城正紀, 三徳和子, 箕輪眞澄. 大規模コホートにおいてパーキンソン病患者の QOL に関わる要因の検証. 第 14 回日本疫学会学術総会. *Journal of Epidemiology* 2004; 14(1 Suppl): 84. 2004.1 山形
- 4) 岡本和士, 小橋元, 阪本尚正, 佐々木敏, 三宅吉博, 鷺尾昌一, 横山徹爾, 稲葉裕. わが国における 1995 年から 2001 年までの既存統計に基づく筋萎縮性側索硬化症の記述疫学特性の検討. 日本疫学会, 2004.1 山形
- 5) 三宅吉博, 佐々木敏, 横山徹爾, 千田金吾, 吾妻安良太, 須田隆文, 工藤翔二, 阪本尚正, 岡本和士, 小橋元, 鷺尾昌一, 稲葉裕, 田中平三, 日本特発性肺線維症研究グループ. 脂肪酸および肉類摂取と特発性肺線維症との関連に関する症例対照研究. 第 14 回日本疫学会学術総会.
- 6) 中村好一, 渡邊至, 佐藤猛, 北本哲之, 山田正仁, 水澤英洋. 臨床調査個人票をもとにしたクロイツフェルト・ヤコブ病のサーベイランス結果. 第 14 回日本疫学会学術総会 [シンポジウム], *J Epidemiol* 2004; 14(1 suppl): 46. 2004.1.23 山形
- 7) 前川厚子, 神里みどり, 安藤詳子, 井口弘子, 竹井留美, 藤井優子, 青山京子, 島田よし江, 藤井京子, 積美保子, 伊藤美智子, 高添正和, 小松喜子, 小橋元, 片平洸彦, 楠神和男, 伊奈研次, 後藤秀実. 60 歳以上の IBD 患者における生活困難感と QOL. 名古屋クローン病研究会, 2004 年 3 月 12 日
- 8) 青山京子, 前川厚子, 竹井留美, 神里みどり, 安藤詳子, 楠神和男, 伊奈研次, 安藤貴文, 後藤秀実, 小松喜子, 伊藤美智子, 積美保子, 藤井京子, 高添正和, 片平洸彦. クローン病患者の病状コントロールと栄養関連要因. 名古屋クローン病研究会, 2004 年 9 月 10 日
- 9) 前川厚子, 神里みどり, 安藤詳子, 楠神和男, 伊奈研次, 後藤秀実, 藤井優子, 吉川由利子, 竹井留美, 小松喜子, 伊藤美智子, 積美保子, 藤井京子, 高添正和, 片平洸彦. IBD 全国調査に見るストーマ/骨盤内パウチ増設術を受けた患者の QOL. 日本創傷・オストミー・失禁ケア研究会誌, 8 (1) 24, 2004 年 5 月
- 10) 三宅吉博, 佐々木敏, 横山徹爾, 千田金吾, 吾妻安良太, 須田隆文, 工藤翔二, 阪本尚正, 岡本和士, 小橋元, 鷺尾昌一, 稲葉裕, 田中平三, 日本特発性肺線維症研究グループ. 野菜、果物及び穀物摂取と特発性肺線維症との関連に関する症例対照研究. 第 74 回日本衛生学会総会 2004
- 11) 稲葉裕, 黒沢美智子, 松葉剛. ベーチェット病の HLA-B51 保有者の特徴. 第 69 回日本民族衛生学会総会 2004.
- 12) 石島英樹, 仁科基子, 太田晶子, 泉田美知子, 柴崎智美, 永井正規: 全身性エリテマトーデスと悪性関節リウマチの性比の