

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患等政策研究事業（難治性疾患政策研究事業））
難治性疾患の継続的な疫学データの収集・解析に関する研究（H29-難治等(難)-一般-057）
分担研究報告書

難治性炎症性腸管障害希少疾患(クローンカイト・カナダ症候群、非特異性多発性小腸潰瘍症、
腸管型ベーチェット病)の全国疫学調査の実査について

研究協力者：村上義孝（東邦大学医学部社会医学講座医療統計学分野）
研究協力者：西脇祐司（東邦大学医学部社会医学講座衛生学分野）
研究協力者：大庭真梨（東邦大学医学部社会医学講座医療統計学分野）
研究協力者：朝倉敬子（東邦大学医学部社会医学講座衛生学分野）
研究分担者：福島若葉（大阪市立大学大学院医学研究科公衆衛生学）
研究協力者：大藤さとこ（大阪市立大学大学院医学研究科公衆衛生学）

研究要旨：難病疫学班が作成した調査マニュアルにしたがって、難治性炎症性腸管障害希少疾患（クローンカイト・カナダ症候群、非特異性多発性小腸潰瘍症、腸管型ベーチェット病）の全国疫学調査・一次調査の計画を立案した。調査計画は倫理審査委員会の承認および調査委託契約など平行して進められ、2017年12月11日から実施した。調査診療科・対象数は内科、外科、小児科、小児外科の4科、計3,741病院であり、病院の層化無作為抽出の作業はSAS9.40によるプログラムを用い、実施した。

A．研究目的

クローンカイト・カナダ症候群、非特異性多発性小腸潰瘍症、腸管型ベーチェット病は、難治性の炎症性腸管障害をもつ希少疾患であるが、これまで日本における患者数を把握する調査が実施されていない。本年度、上記3疾患の有病者数の男女別推計を目的とした全国疫学調査を計画した。その際、病院リストから層化無作為抽出を実施したので、方法、結果について報告する。

B．研究方法

本調査の計画・実施に際しては、難病疫学班が作成した調査マニュアル「難病の患者数と臨床疫学像把握のための全国疫学調査マニュアル第3版」の中の一次調査の方法に準拠することとした。調査対象期間は、2017年1月1日～12月31日（過去1年間）である。調査対象となる診療科については、鈴木班の研究者を交えた議論の結果、内科、外科、小児科、小児外科の4科とした。この4診療科を対象に全国病院を病床規模別に層化無作為抽出した標本を設計した。層化無作為抽出の層は大学医学部附属病院、一般病院別に500床以上、400床台、300床台、200床台、100床台、99床以下、特別階層病院（とくに患者が集中すると考えられる特別な病院）の8層

とし、各層からランダムに対象診療科を抽出することとした。なお特別階層病院については、上記臨床班の分担研究者、研究協力者が所属する病院とした。

一次調査で必要となる依頼状、返信用葉書、診断基準などの部材については、上記マニュアル記載のものを参考に、クローンカイト・カナダ症候群、非特異性多発性小腸潰瘍症、腸管型ベーチェット病の各疾患に合致するよう、変更を加え作成した。本調査はCROに一部受託して実施される。表に大学とCROの調査業務区分についてまとめた。大学が担当した業務は、研究計画、倫理委員会申請、病院抽出(リスト作成)、部材作成・修正、郵便局との交渉(返送分)、督促の準備(電話)、督促(郵便)、データ修正、推計、結果報告である。CROが担当した業務は、部材作成・修正、郵便局との交渉(発送分)、発送準備、発送、データ入力、督促の準備(郵便)、督促(郵便)、データ修正である。なお病院抽出(リスト作成)に際し作成したSASプログラムを付録に示した。

（倫理面への配慮）

本調査は医療施設(病院)を対象とし、当該医療施設の患者数をはがきに記載、返送してもらう郵送調査である。調査に関する説明と

同意については、依頼状に調査目的を記載し、同意のもと葉書を返送してもらう旨を明示して実施した。なお調査委託に際し、業者との契約書に守秘義務条項を加えることで、個人情報保護に努めた。本調査に関わる調査計画書は東邦大学医学部倫理委員会で審議され、平成 29 年 11 月 15 日に承認された(承認番号 A17076)。

C．研究結果と考察

対象となる診療科数は内科 1,566、外科 1,102、小児科 851、小児外科 222、特別階層病院 32 の合計 3,741 であった。この選定された病院に対し、2017 年 12 月 11 日より調査開始し、2017 年 1 月 1 日～12 月 31 日(過去 1 年間)の受療患者数について報告を依頼する。翌年 2018 年の 1 月 26 日を第一回締切、2 月に再依頼(督促)を実施し、3 月に第一回集計の作業を実施する予定である。

実査については東邦大学と CRO(Clinical Research Organization)との間で業務を分担し、効率的に実施した。病院抽出、有病者数推計など疫学に関わる作業は大学内で実施し、人手・時間のかかる発送準備、発送、データ入力業務はアウトソーシングする形で業者委託した。現在、発送作業が終わり返送を待つ段階であるがスムーズに実施されている。なお発送までの費用(印刷代・郵送費)が全体費用に占める割合は 30-40%であった。この費用はウェブ調査の導入により(特に印刷費・返送に係る郵送費)必要なくなり、経費削減に繋がると思われた。ウェブによる入力ページは、初期のページ作成後、維持費用による複数調査への対応が可能という利点をもつ。今回 CRO の受託を入れた全国疫学調査を実施したが、今後ウェブ調査を含めた新しい調査技術の導入が、費用削減の観点からも期待される。

D．引用文献

1. 中村好一、川村孝、福島若葉、橋本修二、難病の患者数と臨床疫学像把握のための全国疫学調査マニュアル第 3 版、平成 29 年度厚生労働科学研究費補助金難治性疾患等政策研究事業難治性疾患の継続的な疫学データの収集・解析に関する研究班(主任研究者中村好一)。

E．研究発表

1. 論文発表(書籍を含む)

- 特になし
- 2. 学会発表
特になし

F．知的財産権の出願・登録状況(予定を含む)

1. 特許取得
特になし
2. 実用新案登録
特になし
3. その他
特になし

表 本調査における大学、CRO（受託業者）の業務区分

業務	大学	CRO
研究計画		
倫理委員会申請		
病院抽出(リスト作成)		
部材作成・修正		
郵便局との交渉	(返送)	(発送)
発送準備		
発送		
データ入力		
督促の準備	(電話)	(郵便)
督促(郵便)		
督促(電話)		
データ修正		
推計		
結果報告		

付録 病院抽出(リスト作成)に用いた SAS プログラム

```
proc surveyselect data=naika out=naika_select
  method=srs
  rate=(0.05
    0.10
    0.20
    0.40
    0.80
    1.00)
  reps=1
  outall
  seed=123;
  strata kibo;
run;
```