

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

研究代表者：中村好一（自治医科大学地域医療学センター公衆衛生学部門）

研究要旨：難病の疫学研究として、難病の疾患担当の研究班と協力の上、各種難病の疫学調査を実施し、特に「頻度」、「危険因子」、「予後」の3項目に重点を置いてその実態を明らかにした。また、今後の難病疫学の研究の方向性を検討した。

A．研究目的

個別の疾患を担当する研究班との協力により、各種難病について、特に「頻度」、「危険因子」、「予後」を明らかにする疫学研究を実施する。また、過去3年間の研究成果を通じて今後の難病疫学の課題の抽出とその対応の検討を行う。

B．研究方法

「頻度」、「危険因子」、「予後」の3つの研究課題分野に本研究班の研究分担者の中でも難病の疫学研究に造詣が深く実績もある研究者を統括リーダーとして配置（頻度：福島若葉大阪市立大学大学院教授、危険因子：三宅吉博愛媛大学大学院教授、予後：川村孝京都大学教授）し、個々の研究分担者/研究協力者が個別の疾患を担当する研究班（以下、「個別疾患研究班」）と協力の上、課題に関する研究を進めた。また、個別疾患研究班からの担当する難病に関する疫学研究の希望があった場合には適切な疫学者を本研究班の研究協力者に加えて、本研究班と個別疾患研究班の共同研究を進めた（疾患によっては、本年度は次年度以降の研究計画の検討にとどまったものもある）。

これらに加えて、全国難病疫学調査を実施する際の倫理上の課題を整理し、その対応策を検討した上でマニュアルを作成した。

図1に研究班の研究の流れを、図2に研究班の組織（体系）を示す。

（倫理面への配慮）

国の「人を対象とする医学系研究に関する倫理指針」などの各種法令や倫理指針に照ら

し合わせ、必要がある研究は当該倫理指針に従って実施した。個人情報の匿名化、データの守秘管理を徹底すると共に、倫理指針で求められている場合には研究実施機関の倫理審査委員会の承認を得た上で実施した。

C．研究結果と考察

難病の頻度調査については、「甲状腺クリーゼ」（三宅吉博研究分担者）、「IgG関連硬化性胆管炎とIgG4関連自己免疫性肝炎」（森満研究協力者）、「難治性聴覚障害」（牧野伸子研究協力者）、「特発性大腿骨頭壊死症」（福島若葉研究分担者）、「色素性乾皮症」（石川鎮清研究協力者）、「小児四肢疼痛発作症」（和田恵子研究協力者）、「プリオン病」（小佐見光樹研究協力者）、「重症筋無力症およびステッフパーソン症候群」（栗山長門研究協力者）、「巨細胞性血管炎および高安動脈炎」（佐伯圭吾研究協力者）、「強直性脊椎炎」（松原優里研究協力者）、「多発性白質硬化症」（阿江竜介研究協力者）、「Stevens-Johnson症候群、中毒性表皮壊死症および表皮水疱症」（黒澤美智子研究協力者）、「スモン」（橋本修二研究協力者）、「IgG4関連疾患」（石川秀樹研究協力者）、「運動失調症」（大西浩文研究協力者）、「慢性再発性多発性骨髄炎（CRMO）」（石川秀樹研究協力者）、「特発性間質性肺炎」（中村幸志研究協力者）、「多発性硬化症および視神経脊髄炎関連疾患」（中村幸志研究協力者）を実施した（担当者は当該研究の本研究班の代表者のみを記載している）。

危険因子に関する研究として「クローン病」（大藤さと子研究協力者）、「潰瘍性大腸炎」（大藤さと子研究協力者）を対象とした研究を実施した。

疾病登録を含む予後の解明に関しては、「甲状腺クリーゼ」（三宅吉博研究分担者）、「スティーブンス・ジョンソン症候群、中毒性表皮壊死症」（黒澤美智子研究協力者）、「プリオン病」（小佐見光樹研究協力者）等を対象に実施した。

国の「人を対象とする医学系研究に関する倫理指針」と「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」に従って難病の全国疫学調査を実施する際の倫理的問題点（特に、調査協力医療機関における倫理審査の必要性の有無と対象患者の同意の取得の有無の必要性）を検討し、一定の

手順を踏めば倫理審査委員会の審査と個々の患者の同意取得を行わなくても国の倫理指針に抵触しないことを確認した。

D. 知的財産権の出願・登録状況
(予定を含む)

1. 特許取得
該当なし
2. 実用新案登録
該当なし
3. その他
該当なし

図1. 難病疫学研究班における研究の流れ

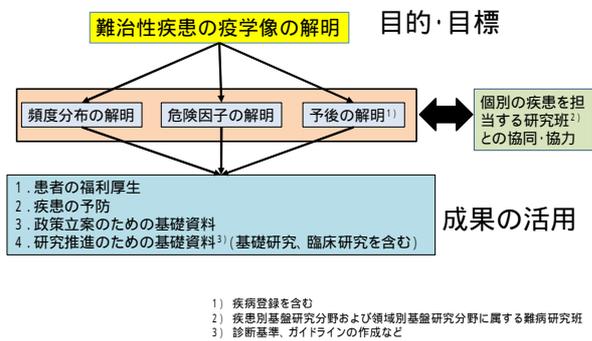


図2. 難病疫学班の組織(体系)図

