

厚生労働科学研究費補助金（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

本邦における慢性再発性多発性骨髄炎（CRMO）の実態調査

研究協力者：石川秀樹（京都府立医科大学大阪研究室）  
研究協力者：八角高裕（京都大学大学院医学研究科発達小児科学）  
研究協力者：西小森隆太（久留米大学医学部小児科）

研究要旨：原因不明の自己炎症性骨疾患である慢性再発性多発性骨髄炎（Chronic Recurrent Multifocal Osteomyelitis：CRMO）診療の標準化に向けたガイドライン作成等を目的とし、本邦に於ける頻度、発症年齢、病変部位、合併症、治療、予後に関する情報収集を目的とした全国調査実施に向け、収集対象データと調査対象病院の選定、及び倫理委員会による研究承認の取得に向けた準備を行った。

A．研究目的

非細菌性骨髄炎（Nonbacterial Osteomyelitis：NBO）は、非特異的な無菌性骨髄炎と周囲の骨吸収像を認める病態であり、NBO病変が全身の骨組織に慢性・再発性・多発性に出現する病態を慢性再発性多発性骨髄炎（Chronic Recurrent Multifocal Osteomyelitis：CRMO）と呼ぶ。稀な疾患と考えられており、本邦に於ける発症頻度は不明であるが、近年学会での報告が散見される様になっている。CRMOには、掌蹠膿胞症・関節炎・尋常性乾癬・炎症性腸疾患など他の炎症性疾患を合併する場合があります、特に成人領域から報告が多いSAPHO（synovitis, acne, pustulosis, hyperostosis and osteitis）症候群の一症状としてNBO病態を認める場合がある。両疾患は炎症病態の一部を共有する類縁疾患と考えられるが、小児領域ではCRMO、成人領域ではSAPHOという呼称が用いられる傾向があり、臨床現場に混乱を招いている。治療面ではNSAIDsが第一選択とされており、無効例にはbisphosphonate製剤や抗TNF製剤が用いられているが、それぞれの有効性評価は行われていない。

以上を背景とし、診療の標準化に向けたガイドライン作成等に役立てることを目的として、CRMOの全国疫学調査を行い、本邦での実態を把握する事を本研究の目的とした。

B．研究方法

本研究は、既存の情報を用いた臨床医へのアンケートによる後向観察研究であり、厚生労働省の難治性疾患政策研究事業「自己炎症性

疾患とその類縁疾患の全国診療体制整備、移行医療体制の構築、診療ガイドライン確立に関する研究」の分担研究として行う。「全国疫学調査マニュアル」に従い施行し、調査対象は本邦でCRMOと診断された患者で、一次調査（患者数の把握）と二次調査（臨床像の把握）の二部から構成される。一次調査の対象患者は2015年1月1日から2019年12月31日に対象施設を受診した全患者（入院・外来、新規・再来のすべて）を対象とする。調査項目は、男女別の患者数である。はがきで対象施設となる医療機関（協力機関）へ送付し、回収する。患者数1以上の対象施設に順次二次調査票を発送する。対象患者の主治医は、診療録をもとに、一次調査票、二次調査票を記載する。情報は研究開始時より匿名化する。調査対象診療科は、小児科、リウマチ科、整形外科、皮膚科とする。各診療科それぞれを、全国病院データをもとに病床数により層別化し、大学病院・こども病院・500床以上の病院層は100%の抽出率、400～499床の病院層は80%、300～399床の病院層は40%、200～299床の病院層は20%の抽出率とする。199床以下の病院層は調査対象としない。

（倫理面への配慮）

この研究は患者臨床情報を収集する疫学研究であり、人を対象とする医学系研究に関する倫理指針に則り、京都大学医の倫理委員会の承認を受けて行われる予定である。

C．研究結果

本研究は令和2年度に行われる予定であり、

本年度は収集対象とするデータと調査対象病院の選定、及び倫理委員会による研究承認の取得に向けた準備を行い、間もなく実際の調査が開始される予定である。

#### D．考察

CRMO の全国疫学調査に向けた準備が整い、令和2年度より実際の調査が開始される予定である。調査を通じて本邦に於ける CRMO の頻度、発症年齢、病変部位、合併症、治療、予後に関する情報が集積され、診療の標準化に向けたガイドライン作成等に反映される事が期待される。

#### E．結論

CRMO の全国疫学調査に向けた準備を行い、令和2年度より実際の調査が開始される予定となった。

#### F．研究発表

- 1．論文発表  
なし
- 2．学会発表  
なし

#### G．知的財産権の出願・登録状況 (予定を含む)

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