

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患克服研究事業）
再発性多発性軟骨炎の診断と治療体系の確立
分担研究報告書

再発性多発性軟骨炎のアンケート調査

研究分担者 須賀 万智（聖マリアンナ医科大学予防医学教室・准教授）

研究要旨：再発性多発性軟骨炎（RP）の臨床像と診療の実態を明らかにすることを目的として、RP 診療に携わる専門医療機関を対象としたアンケート調査を実施した。本稿では、アンケート調査の計画・設計について説明した。

A. 研究目的

再発性多発性軟骨炎（relapsing polychondritis; RP）は軟骨組織の炎症・破壊を特徴とする原因不明の慢性疾患である。効果的な治療法を確立するためには、患者の分布と臨床像を理解すると共に、診療の実態を把握することが重要である。しかし、RP に関する疫学調査は、海外ではいくつか報告されているが、国内ではこれまで実施されていない[1,2]。日本における RP の臨床像と診療の実態を明らかにすることを目的として、本研究では、RP 診療に携わる専門医療機関を対象としたアンケート調査を実施した。本稿では、アンケート調査の計画・設計について説明した。

B. 研究方法

RP の臨床像と診療の実態を調べるアンケート調査を計画・設計した。具体的には、1) 属性、2) 症状・検査、3) 治療に注目し、これら情報を効率的に収集しうる調査対象と調査方法を検討した。

C. 研究結果

アンケート調査を計画・設計するうえで、日本の RP 患者の分布を推測しうるデータが存在しないため、調査対象は特定の地域に限定せず、RP 患者が受診する可能性がある専門医療機関すべてとした。調査方法は自記式郵送法による 2 段階調査とした。す

なわち、第 1 段階（1 次調査）で RP 患者の診療経験をたずね、調査時点で受診患者が存在すると回答した場合、第 2 段階（2 次調査）で、その詳細をたずねる。RP 患者は稀少であるため、調査票の回収率を上げて取りこぼしをできるかぎり減らすことが肝要であり、このような 2 段階調査が望ましいと判断した。

各調査の調査票を別紙に示した。

1 次調査は、受診患者を網羅的に把握しうるよう、質問数を絞り込み、往復はがきで送付とした。問 2 で性年齢別人数、問 3 で受診先（診療科）を尋ねる。

2 次調査は、1 次調査から把握された受診患者について詳細な情報を収集するもので、封書で送付とした。前半部分で、発症状況（②～③）、病変部位（④）、検査（⑤～⑦）、後半部分で、治療（⑧）、合併症（⑨）、予後（⑩）を尋ねる。治療については、参考まで、方法別に有効性を主観的に評価する欄を設けた。

D. 考察

RP の臨床像と診療の実態を調べるアンケート調査を実施するにあたり、調査対象と調査方法をどのように設定したかを説明した。このアンケート調査から、RP 患者がどこに所在するか、受診患者がどのような臨床像を呈して、どのような検査と治療を受けているかが明らかになる。調査結果は

日本の RP を理解するための基礎資料として有用な情報となるだろう。

ただし、このアンケート調査には、以下のような限界がある。

第 1 に、1 次調査で調査票を返送しない機関は受診患者がゼロなのか、調査協力が得られないのかを判断できない。このアンケート調査から有病率を算出することは困難である。

第 2 に、2 次調査で収集されるのは医師の記憶やカルテ情報に基づく情報であり、想起バイアスが生じうる。

第 3 に、2 次調査で収集されるのは受診患者の調査時点の情報であり、さらに追跡した場合には、追加（症状、検査、治療、合併症）や変更（転帰）が生じうる。

結果の解釈に注意すると共に、必要と目的に応じてさらに詳細な調査を追加することが検討される。とくに治療の有効性の評価は医師の主観で、明確な基準に基づくものでない。治療効果を比較検討するためには、評価基準の確立と、それに基づく臨床試験の実施が求められる。

E. 参考文献

[1] Gergely P Jr, Poór G.

Relapsing polychondritis. Best Pract Res Clin Rheumatol 2004; 18: 723-738.

[2] Rapini RP, Warner NB.

Relapsing polychondritis. Clin Dermatol 2006; 24: 482-485.

F. 研究発表

1. 論文発表 なし
2. 学会発表 なし

G. 知的所有権の取得など

1. 特許許可 なし
2. 実用新案登録 なし

【1次調査 調査票】

(Q1) これまでに再発性多発軟骨炎(RP)患者を診察・治療されたことがありますか？	
ない	・ ある ()人
(Q2) いま現在、先生が診察されている患者の中に RP 患者はいますか？	
いない	・ いる ()人
「いる」と答えた方は下の表の該当欄に人数を記入して下さい	
~19歳, 20~30歳代, 40~50歳代, 60~70歳代, 80歳以上	
男性 () () () () ()	
女性 () () () () ()	
(Q3) おもなご専門は？	
耳鼻科/内科/整形外科/皮膚科/その他 ()	
(Q4) Q2 でいま現在 RP 患者を診察されていると答えた先生には日本の RP の現状を明らかにする為に症状や経過等を教えて頂きたい。二次調査への参加協力をお願いいたします。調査票の送付先をご記入ください。	
医療機関名 ()	
住所 ()	
氏名 ()	
電話 ()	
E-mail ()	@ ()

【2次調査 調査票】

再発性多発性軟骨炎 (RP) のアンケート調査票

No.
県名:

※ ④～⑧については、全経過を通じて該当する項目の全てにチェックをお願いします。

① 発症時期 (西暦) _____ 年 _____ 月 _____ 日頃

最終診察日 (西暦) _____ 年 _____ 月 _____ 日

② 発症年齢と性別 満 _____ 歳 ・ 男性 / 女性

③ 初発症状 耳介軟骨炎 / その他 (_____)

④ 臨床症状 軟骨炎 (耳: 両側 / 左 / 右) [鼻: 鞍鼻 / 鼻中隔湾曲 / その他 (_____)]

蝸牛・前庭神経障害 [神経性感音性難聴 / 耳鳴 / めまい / その他 (_____)]

非びらん性関節炎 (血清反応陰性 / 血清反応陽性 / 不明)

[部位: 手指 / 足趾 / その他 (_____)]

眼病変 [結膜炎 / 上強膜炎 / ぶどう膜炎 / その他 (_____)]

気道軟骨炎 (気管・気管支 / 喉頭軟骨炎)

皮膚病変 (有 (_____) / 無)

心血管系病変 [大動脈瘤 / AR / その他 (_____)]

中枢神経障害 [有 (_____) / 無]

腎障害 [有 (_____) / 無]

⑤ 画像所見 有 [3D-CT MRI 単純 X-P その他 (_____)] / 無

⑥ 病理所見 有 (病理標本の採取部位: _____) [軟骨染色性変化 / 軟骨の分裂 /

単核球の浸潤 / その他 (_____)]

無 / 不明

→裏面へつづく

⑦ 検査所見 有 [CRP 陽性 / 赤沈亢進 / フェリチン高値 / MMP-3 高値 / 抗コラーゲン II 型抗体陽性

呼吸機能検査 (_____) / その他 (_____)] / 無 / 不明

⑧ 治療 非ステロイド系抗炎症剤

ステロイド (経口 / 静注 / パルス)

ミノマイシン

免疫抑制剤 [MIX 有効性: 有 / 無

エンドキサン 有効性: 有 / 無

シクロスポリン 有効性: 有 / 無

プログラフ 有効性: 有 / 無

イムラン 有効性: 有 / 無

プレディニン 有効性: 有 / 無

その他 (_____) 有効性: 有 / 無]

抗リウマチ療法 [インフリキシマブ 投与量: 3mg/kg 有効性: 有 / 無

エタネルセプト 投与量: 25mg/週 / 50mg/週 有効性: 有 / 無

アダリムマブ 投与量: 40mg/回 / 80mg/回 有効性: 有 / 無

トシリズマブ 投与量: 8mg/kg 有効性: 有 / 無]

その他の治療 [気管切開 / BIPAP (二相式気道陽圧)療法 / 気管内ステント 有効性: 有 / 無 / その他 (_____)]

⑨ 合併症 有 (_____) / 無 / 不明

⑩ 予後 治癒 / 改善 / 不変 / 悪化

死亡 [死亡原因: 呼吸障害 / 感染症 / 心疾患 / その他 (_____)]

以上