

The first nationwide epidemiological survey of chronic recurrent multifocal osteomyelitis in Japan

日本初の慢性再発性多発性骨髄炎(CRMO)全国疫学調査
前田 由可子

【背景】慢性再発性多発性骨髄炎(Chronic recurrent multifocal osteomyelitis; CRMO)は、全身の骨組織に多発性・再発性の無菌性骨髄炎を呈する原因不明の疾患です。その炎症病態は自然免疫系の異常反応と考えられており、広義の自己炎症性疾患に分類されています。本疾患は指定難病に登録されていますが、本邦での全国疫学調査は行われておらず、患者数、臨床像、原因、予後は不明でした。

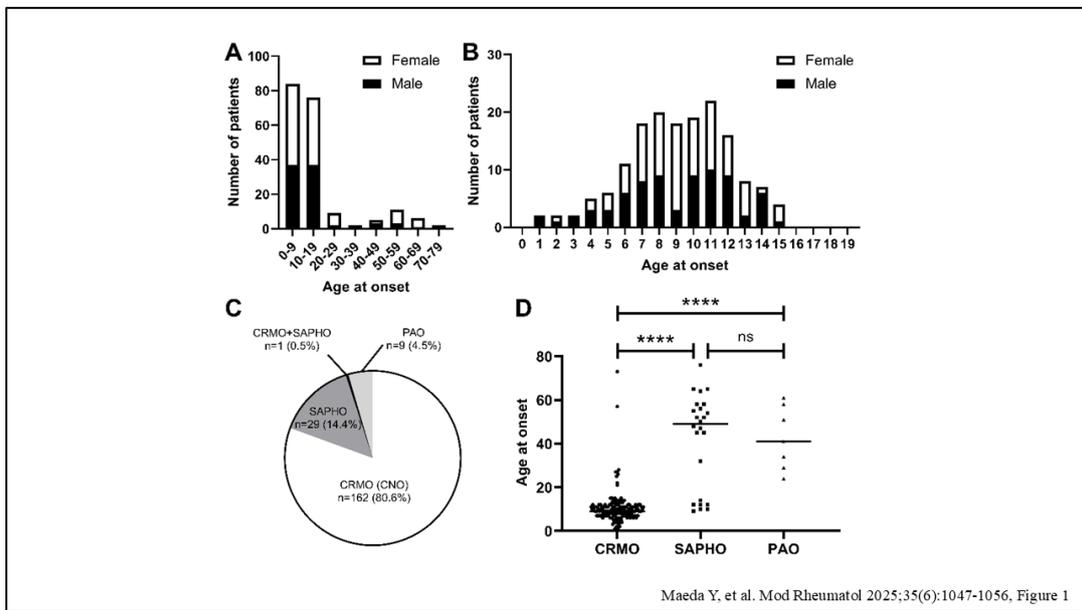
【目的】日本における CRMO の患者数、臨床症状、治療法とその効果、予後を調査することを目的として、本邦初の全国疫学調査を施行しました。一次調査は患者数の把握を、二次調査は臨床像の把握を目的としました。

【方法】一次調査では、2015年から2019年の間に選定施設の小児科、リウマチ科、整形外科および皮膚科で CNO/CRMO と診断された患者数を調査しました。続いて二次調査を行い、これらの患者の臨床像を評価しました。続いて、一次調査にて患者ありと回答した施設に対し、二次調査として患者の臨床像についてのアンケート調査を実施しました。

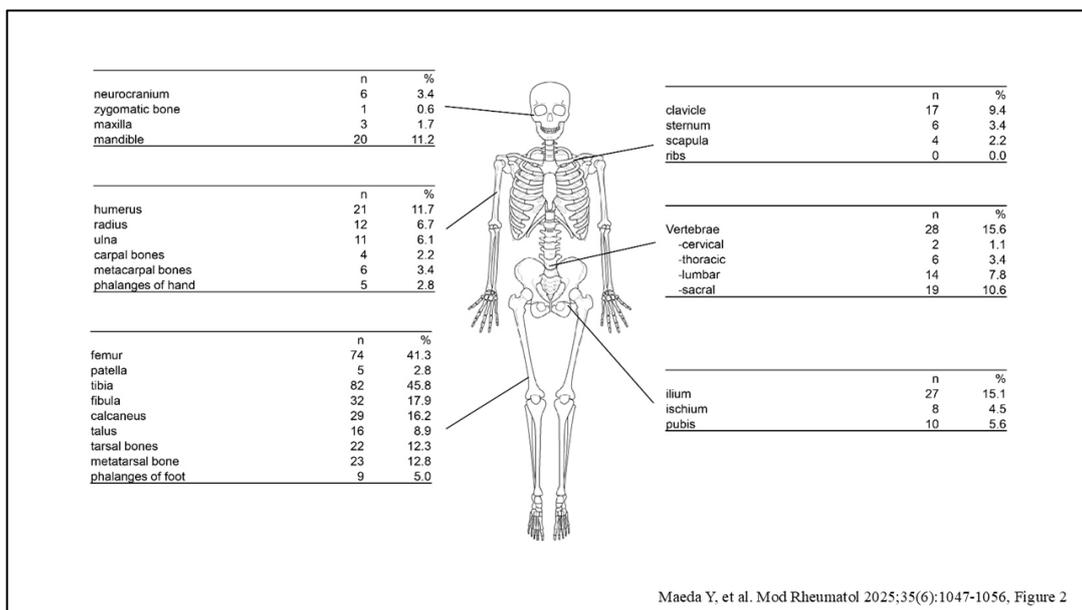
【結果】一次調査では 289 例が報告され、全国推計患者数は 434 例(95%信頼区間:367–501)と算出されました。二次調査では 205 例を解析しました。画像上の骨病変数の中央値は 3 で、最も頻度が高かった罹患骨は脛骨でした。腫瘍壊死因子(TNF)阻害薬は、非ステロイド性抗炎症薬(NSAIDs)やビスホスホネートと比較して有効性が高く、再発率も低い結果でした。また、トシリズマブおよびカナキヌマブに反応した症例も報告されました。さらに、早期診断は最終フォローアップ時点での無症状または薬剤不要の状態と関連していました。

【結論】本研究は、日本における初の全国規模の CNO/CRMO 疫学調査です。この世界的にも最大級の多施設研究によって、日本の CNO/CRMO に関する包括的な疫学データが明らかになりました。

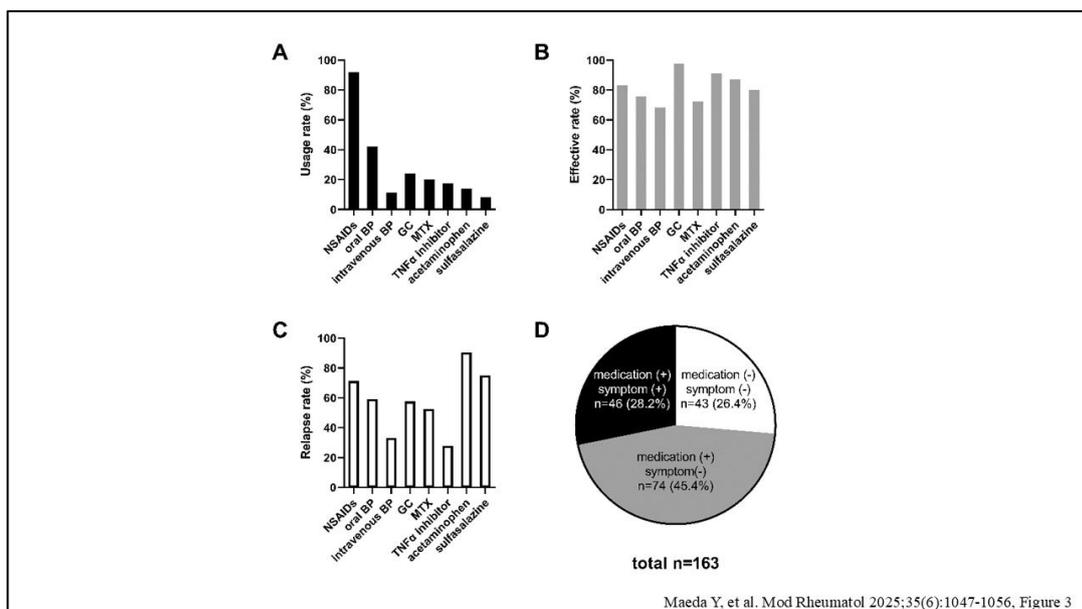
<https://doi.org/10.1093/mr/roaf045>



Maeda Y, et al. Mod Rheumatol 2025;35(6):1047-1056, Figure 1



Maeda Y, et al. Mod Rheumatol 2025;35(6):1047-1056, Figure 2



Maeda Y, et al. Mod Rheumatol 2025;35(6):1047-1056, Figure 3