

200834002B

厚生労働科学研究費補助金  
難治性疾患克服 研究事業

難治性疾患に関する  
有効な治療法選択等のための  
情報収集体制の構築に関する研究

平成 18 年度～ 20 年度 総合研究報告書

研究代表者 工藤翔二

平成 21 (2009) 年 3 月

## 目 次

### I. 総合研究報告

難治性疾患に関する有効な治療法選択等のための情報収集体制の構築に関する研究  
工藤 翔二

### II. 3年間のまとめ

難治性疾患に関する有効な治療法選択等のための情報収集体制の構築に関する研究  
工藤 翔二

# I .総合研究報告書

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患克服研究事業研究事業）  
総合研究報告書

難治性疾患に関する有効な治療法選択等のための  
情報収集体制の構築に関する研究に関する研究

研究代表者 工藤 翔二

財団法人結核予防会複十字病院院長、日本医科大学名誉教授

研究要旨

難治性疾患の対象である 123 疾患については、近年の医学研究の進歩等によってその予後は改善しつつあるが、十分な横断的な情報収集体制はない。本事業では、各疾患の予後調査および対象疾患の実態把握のため、疾患横断的に統一的・横断的・客観的・定量的・定常的に評価するシステムについて調査検討を行なった、

研究分担者氏名	所属機関名及び所属機関における職名
永井正規	埼玉医科大学医学部公衆衛生学・疫学、教授
宮坂信之	東京医科歯科大学大学院医歯学総合研究課膠原病・リウマチ内科学分野、教授
木内貴弘	東京大学医学部附属病院大学病院医療情報ネットワーク研究センター、教授
名川弘一	東京大学大学院医学系研究科・医学部、教授
針谷正祥	東京医科歯科大学大学院医歯学総合研究科薬害監視学講座教授
伊藤高司	日本医科大学情報科学センター、准教授
吾妻安良太	日本医科大学内科学講座 呼吸器・感染・腫瘍部門 教授

## A. 研究目的

現在、特定疾患として指定されている難治性疾患は 123 疾患にのぼり、近年の医学研究の進歩に伴って予後は改善しつつあるが、一方で、個人調査票が作成される治療研究対象 45 疾患を除いて、疾患の横断的な治療効果の評価が十分でないという問題も指摘されており、事業の対象となっている疾患について研究成果や予後改善の程度、ADL 改善の程度、またどの程度医療費が使われているのか等について、統一的・横断的・客観的・定量的・定常的に評価するシステムを構築する必要がある。本研究は、難治性疾患患者の予後等の実態を客観的・定量的・体系的かつ組織的に把握することによって、難治性疾患患者への適切な医療の提供等を可能として難病医療行政に貢献するために、123 疾患の患者の横断的な情報収集のあり方と方法を検討し、将来のデータベース構築に資することを目的とした。

## B. 研究方法

### 1. 臨床研究班で実施されている情報収集の実態調査

123 疾患の登録システムのデータフォーマットを検討するため、実際に稼動している難治性疾患およびその他の登録システムの調査（郵送）を行ない、各システムの運用・セキュリティー・コスト・問題点等の項目の比較検討を行った。また、38 臨床研究班のうち、継続的にデータ収集を行っている臨床研究班に対するヒアリングを行い、現状調査を行った。

### 2. 登録システムにおけるデータセンターの検討

難治性疾患に限らず、臨床データや臨床個人調査票の登録システム等、様々な可能性を考慮して、既存 Web 登録システム (iR-net を利用した全国関節リウマチデータベース"NinJa"、静岡県版電子カルテシステムを利用した特定疾患受給者証の電子申請、JCRAC/DMC、都道府県における特定疾患の臨床調査個人票入力システム、多施設症例エントリーシステム、臨床試験データ収集 Web システム、特発性間質性肺炎の画期的治療法に関する臨床研究データセンター Web/RDC(Remote Data Capture)システム) の 7 つのデータセンターについて検討した。

### 3. 難治性疾患定点観測のデータフォーマットの検討

難治性疾患臨床研究班で独自に作成しているデータフォーマットについて検討した。

また、疾患横断的な治療効果の評価項目 (ADL/QOL および重症度) の指標について具体的な検討を行った。

### 4. 患者医療費負担額の抽出システムの検討

患者負担の医療費を病院の診療会計システムを利用して算出する目的で、ICD コードを改良して特定疾患に対応したものを試作し、これを用いて、日本医科大学附属病院の協力を得て、試験的に特定疾患患者の抽出が可能かどうかについて検討した。

### 倫理面への配慮

個人情報を含む資料は扱っておらず、倫理面では特段の問題はない。

## C. 研究結果

### 1. 臨床研究班で実施されている情報収集の実態

臨床班に対するアンケート調査（平成 19 年度）では、治療研究対象 45 疾患の個人調査票は臨床研究班 38 班中 16 班で 37 疾患 (82.2%) について活用されていた。また、研究班独自の患者登録は 37 班中 19 班（無記入 1 班）36 疾患で行われており、現在実施中は 24 疾患 (123 疾患の 19.5%) であった。登録方法は郵送・FAX 24 疾患、メール送付 5 疾患であり、Web 登録は 4 疾患であった。また、予後調査にかかわる追跡調査がなされているのは 15 疾患 (12.1%) に留まった。

### 2. 登録システムにおけるデータセンターの検討

臨床データや臨床個人調査票の登録システムにかかわる 7 つのデータセンターについて検討した結果、難治性克服研究においてデータ登録システムを選択する為には、予算をはじめ、入力の手数、項目数、データ数およびマネジメントシステム等、考慮すべき点を明確にする必要がある。また、登録システムにかかわるデータセンターは、予算が許せば C R O + I T ベンダー系の組み合わせも考慮されるが、恒久性・安定性、費用（研究費の 10% 程度）、データサイズ（既に 6,000 人程度の登録研究を実施）、モニタリング、研究特性などからみると、J C R A C の利用が適当であると結論された。

### 3. 登録すべき共通項目と疾患別項目の検討（平

成 18 年度)

登録すべき項目は、共通項目としては①疾患名、②患者の生年月、③性、④医療機関内整理番号、⑤対象疾患の（推定）発病年月のほか、初診時の情報として、⑥当該医療機関、⑦初診年月、⑧ADL（日常生活状況と Barthel Index）、⑨治療法、⑩重症度、最近診療時情報として、⑪最近診療年月、⑫重症度、⑬入院・通院の別、⑭ADL、⑮身体障害者手帳取得状況等である。また、研究班のモチベーションを高めるために、疾患別検査項目があるが、項目数が多くなると継続性が低下することを考慮して、10 項目以内に留めることが望ましいと判断された。

#### 4. 患者医療費負担額の抽出システムの検討

患者負担の医療費を病院の診療会計システムを利用して算出することを目的に、希少疾患のためにコードがない場合や、独自の病名が付けられている場合があるため、ICD コードを改良して特定疾患に対応したものを試作した。これを用いて、試験的に特定疾患患者の抽出が可能かどうかについて検討した結果、一応の把握はできるものの、いわゆる保険病名や疑い病名の除外、併存疾患医療費の除外、さらに院外処方分の把握等、病院施設の会計コンピュータを使って機械的に特定疾患医療費のみを抽出することは困難であった。

#### 5. 登録システムの維持と入力モチベーション

追跡調査を実施している臨床研究班 5 班（進行性腎障害に関する調査研究班、プリオン病及び遅発性ウイルス感染症に関する調査研究班、びまん性肺疾患に関する調査研究班、難治性肝・胆道疾患に関する調査研究班、特発性心筋症に関する調査研究班）及び日本における生物学的製剤使用調節リウマチ患者に関する疫学研究班を対象に、①登録システムの目的、②データ収集方法、③発生源での入力者、④紙ベースか Web ベースか、⑤参加施設数等、⑥データの管理体制、⑦データマネージメント方法、⑧統計担当の有無、⑨登録状況、⑩フォローアップ状況、⑪データの公表実績、⑫研究資金、⑬その他について、調査担当者を招いてヒアリング調査した。その結果、登録方法は研究班によって異なり、入力施設の負担と協力、個人情報保護法との関連（病院の許可、同意取得、データ管理等）などの問題点と追跡調査の困難性が明らかとなった。また、登録・追跡のモチベーションを上げるために、対象疾患にかかわる複数の自主的研究テーマの研究グループによる調査を統括集積して、対象疾患の基本項目の調査を進める方法が注目された。

#### D. 考察

1. 45 治療研究対象疾患について個人調査票の活用は 82%と進んでいるが、123 疾患全体では 20%、予後調査にかかわる追跡調査は 12%に留まっていた。
2. 現行登録システムは大部分が紙ベースによる登録であるが、将来的には Web ベース登録を推進する必要がある、JCRACの利用が選択肢として挙げられ、入力項目は全疾患共通項目とともに少数の疾患別項目の選定が必要である。
3. 登録システムの維持にかかわる問題点、特に追跡調査の困難性を克服するため、入力モチベーションを上げることが重要である。

#### E. 結論

難治性疾患の情報収集を Web オンライン登録システムによって行うことはほぼ可能であると判断された。登録システムの維持には、公的な常設組織による運営と、情報入力者である医師のモチベーションを高めるための環境作りを今後検討する必要がある。

#### F. 研究発表

1. 論文発表  
なし
2. 学会発表  
なし

#### G. 知的所有権の取得状況

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

## II.3 年間のまとめ

# 難治性疾患に関する有効な治療法選択等のための

## 情報収集体制の構築に関する研究

### <3年間のまとめ>

主任研究者 工藤 翔二

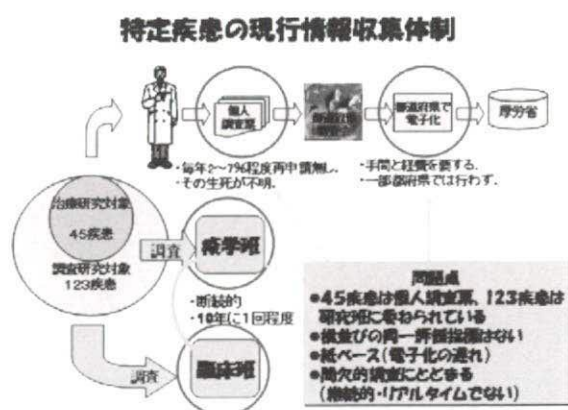
本報告は、1 特定疾患に関する調査研究ではなく、難治性疾患の情報収集体制をどのように構築すべきかに主眼を置いた横断的な研究である。

#### I. 現行の情報収集体制の実態調査と問題点

##### 1. 情報収集からみた現行の難病認定・更新システム

現在行われている特定疾患の情報収集の体制について検討した（図1）。

図1



特定疾患には、治療研究（医療費助成）

の対象となっている45疾患がある。これらについては、個人調査票が紙ベースで認定申請の際に提出され、その後は更新申請という形で提出されてくる。この個人調査票に基づいて都道府県の審査会で認定あるいは更新の可否が審議され、その後調査票は都道府県で電子化される。全体で約55万枚の紙ベースの調査票が、都道府県で電子化され、その電子化情報が厚生労働省のほうに集約される。この個人調査票システムの問題点の第1は、大体毎年2%から7%程度更新申請がないが、その理由が分からない点である。患者の病状が改善して来院しないためなのか、あるいは死亡したためなのかは、追跡システムが存在しないため不明となっている。もう1つの問題は、この紙ベースの調査票を電子化するためには、多大な労力と経費を要し、そのため未だす



すべての都道府県で電子化が行われているわけではない点である。

一方、特定疾患全体をみると、今述べた治療研究対象 45 疾患に調査研究対象 78 疾患が加わって、合計 123 の疾患が指定されているが、それらの情報収集は横断班である疫学研究班が各臓器分野の臨床研究班と協力して、あるいは臨床研究班が単独で行っている。しかし、当然ながら断続的であり、1 疾患当たりによれば 10 年に一回程度に留まらざるを得ない。

現在の情報収集体制の問題点をまとめると、第 1 に、45 疾患については個人調査票があるが、残りの 78 疾患は研究班に委ねられていること。第 2 に、123 特定疾患全体を網羅した横並びの、統一した重症度や QOL 等の評価基準がないこと。第 3 に、個人調査票も紙ベースで電子化が遅れていること。第 4 に、情報収集がリアルタイムではなく間欠的であり、しかも同一の患者の追跡調査ができないこと等の問題点がある

## 2. 「個人調査票」の活用について

まず、現在臨床研究班あるいは疫学班

等で、45 治療研究対象疾患の個人調査票が、研究班でどのくらい活用されているかについて調べた (表 1)。(資料 1)

表 1

### 治療研究(医療費助成)対象45疾患に関する調査個人票を利用した臨床疫学研究の現状

過去、現在を問わず、治療研究対象疾患(45 疾患)の中で、厚生省より個人調査票(電子媒体、紙媒体問わず)の提供を受けて、患者実態調査を行っている疾患がありますか？

#### 結果

**38班中 16班(42.1%)**  
**45疾患中 37疾患(82.2%)で利用**

(H19年度調査)

結果は、38 の臨床班のうち 16 班(42%)の班が個人調査票を活用していた。45 疾患でみると 37 疾患(82%)について、この個人調査票が利用されていた。

1 例を挙げると、先年ヨーロッパ呼吸器学会誌に掲載された、日本におけるサルコイドーシスの疫学調査がある(図 2)。

図 2

### 個人調査票を利用した臨床疫学研究の一例

Epidemiology of sarcoidosis in Japan

T. Morikubo\*, A. Azuma, M. Ohtsu\* and T. Maki\*

**日本人口の80%をカバー、1,027名の組織診断例(2004年)の分析、15年前の学会調査定数と比較**

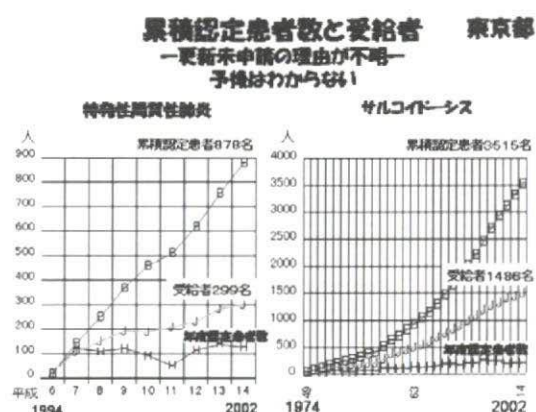
- 男性の比率が増加
- 病態年層分布は2層性。男性は20~30歳代、女性は50~60歳代がピーク
- 肺野病変例は減少、全身症候病変例が増加(特に女性)
- 初診病変型 肺4減少、眼・肺・皮膚病変増加
- 女性に多い：眼病変(ぶどう膜炎、視力障害)、皮膚病変(皮膚病変、皮下結節、結節性紅斑)、γグロブリン高値
- 男性に多い：肺野びまん性陰影、高カルシウム血症
- 海外に比べ、皮膚、心臓病が多い

KEYWORDS: Epidemiology

この論文は、日本の総人口の80%をカバーする都道府県の個人調査票を基礎にして、1,027人の組織診断例を分析した成績である。これを15年前の学会調査の成績と比較して、過去15年間に女性の比率が明らかに増加していること、発見の動機として検診発見が減少して自覚症状発見例が増加していること等、いくつかの特徴がこの疫学調査によって明らかになった。このように、個人調査票は必ずしも十分ではないが、有効に活用されている。

次に、個人調査票ベースは、前述のように、追跡システムがないという問題点がある。図3は東京都の特発性間質性肺炎とサルコイドーシスに関する資料である。

図3



特発性間質性肺炎で認定が行われるよ

うになってから東京都における2002年までの累積認定患者の数は878名だが、2002年年度末の受給者は299名と、579名の差がある。サルコイドーシスの累積認定患者数は3,500名を超えているが、受給者は約1500名である。この累積認定患者数と受給者の大きな差が、軽快・治癒による医療不要によるものなのか、あるいは他県への転居等の理由で病院に来なくなったのか、それとも死亡したのか、追跡が行われなかったために不明となっている。このように、個人調査票からは、疾患の予後を知ることはできない。

### 3. 研究班独自の患者登録システムについて

次に、臨床研究班で独自に患者登録システムを作っているところがあり、これがどの程度進んでいるかについて調査した(表2)。

表2

**臨床研究班独自の患者登録システム  
調査結果の概要**

**37班中 19班(無記入1班)  
36疾患(123疾患中の29.2%)**  
**現在実施中 24疾患(123疾患の19.5%)**  
**登録方法: 郵送・FAX 24疾患  
(重複あり) メール送付 5疾患  
Web登録 4疾患**  
**予後調査にかかわる追跡調査  
15疾患(12.1%)**  
(平成19年度調査)

**登録を完了する上での課題点**

- 主治医や病院の協力が得られない
- 入力協力がなかなか得られない(同意はされても入力が遅れる)
- 回答率を上げるための協力を要する。
- 班員からの登録のみであるため、症例数が限られている。
- 患者数の減少、回答率の不良
- 登録に手間取り、十分な協力が得られない
- 症例発生毎の報告とすると各施設の負担が大きくなるため、定期的にまとめて報告としているが、報告が途絶える施設がある。
- 他施設共同研究のため、患者登録のための連絡調整が難しい
- 国際登録のため、契約や日本語整備等の障害があり、十分に進んでいない。
- 二重登録あり。
- 倫理委員会を必ず通す必要がある場合がある(回答施設などで)
- IRBの手続き、同意取得の問題
- 個人情報保護のため個人を特定できず、追跡調査に支障をきたす。
- 個人情報保護
- データ入力を委託するだけの予算がない。
- コンピュータへの入力、解析に時間を要する
- データフォローアップなので、精度を上げるには人件費の面で多大な労力を要する
- コンピュータ故障(障害のため)あり、データ修復に手間取っている

37班(未記入が1班)のうち、過去に行った経験を含めると19班で36疾患について独自の患者登録が行われていた。123疾患を母数にすると、約3割の疾患を対象に患者登録が行われた経験があり、現在も24疾患について実施されていた。登録方法をみると、Web登録はわずか4疾患で、あとは郵送かFAX、あるいはメールでデータが収集されていた。また、予後調査にかかわる追跡調査がされていたのは123疾患のうち15疾患であった。

このような臨床研究班独自の患者情報の登録体制について、15項目にわたって調査した(結果の詳細は、平成19年度研究報告書に収載)

患者情報を登録する臨床研究班の側からすると、表3のように、さまざまな問題点があることがわかった。

表3

なによりも、主治医に人力・記人の協力を得ること大変さである。さらに、その入力・記入の協力を継続することの難しさである。また、個人情報保護のため問題点、とりわけ追跡調査には個人の特定が必要だが、センターでは特定できないため、支障をきたしているという意見もみられた。

一方、表4のように個人情報保護のために様々な工夫がなされていることもわかった。

表4

**患者の個人情報保護のために実施されている工夫**

- 連結可能匿名化
- 個人情報収集はしなかった
- 登録者の厳重保管
- 個人情報は各病院で管理し、登録の際には収集しない
- 氏名、IDなどは登録しない
- 個人名の消去、サンプリングによる管理
- 個人情報は中央に送らなれシステムになっている
- 個人名はもろろん、イニシャル、誕生日、住所を除外し、患者個人を特定できないように情報を限定
- 文部科学省・厚生労働省の疫学研究に関する倫理指針に基づいている。
- 特に行われていなかった。
- 研究グループ外に個人情報管理者を設置している。
- 二重の匿名化でアンケートの処理の際、施設名、患者名がわからないようにしている。
- 患者の氏名はイニシャル、住所などは記さない。
- 情報を符号化して運用、氏名を匿名化している
- 調査票に「氏名」と生年月日の「日」を記入しないこと、また調査票は郵送で提出すること。
- 個人を特定できる情報(患者ID、イニシャルなど)は登録しない。
- 匿名化、コード対照表は、アンケート実施施設にあり。
- コンピュータ登録の際に、施設ごとに新しく症例番号を定め、不連続匿名化を行っている。
- 匿名化している。

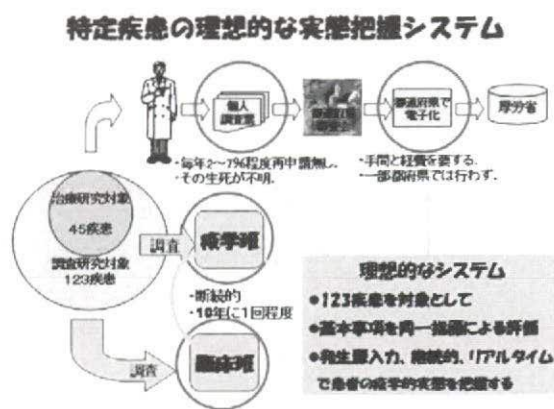
資料2<sup>ii</sup> 資料3<sup>iii</sup>

## II. 新たな情報収集体制について

### 1. 理想的な情報収集体制と現実可能な情報収集体制

私たちが実現しなければならない理想的な情報収集体制は一体どういうものだろうか（図4）。第1に123の特定疾患、

図4



これから更に増えて130疾患になると聞  
くが、その全疾患を対象とすること、第  
2に重症度やQOLなど基本的な事項に  
ついて同一指標による評価ができるよう  
な項目を含めること、第3にそれらの情  
報を発生源で入力すること、第4に継続  
的でリアルタイムに情報が得られるよう  
にすること。このような、特定疾患の患  
者さんの医学的情報を把握する体制を構  
築する必要があるのではないかというこ  
とである。

これらを踏まえて、初年度に私どもは、

かなり膨大な計画を立案したが、その遂  
行は現在の日本の疾病情報収集システム  
である「人口動態統計」などの発達段階  
を飛び越して、特定疾患のみの独自のシ  
ステムとして構築することは大変難しい  
ことがわかってきた。そこで、現在研究  
班独自で行われている既存の疾病登録シ  
ステムを応用拡大して、それを遂行する  
モチベーションを高めながら、特定疾患  
全体の情報収集システムにつなげていく  
ことが現実的ではないかという結論に至  
った。

### 2. オンライン疾患登録システムの応用可能性

現在さまざまな疾患について、疾病登  
録システムが、必ずしも特定疾患に限ら  
ないが、稼働している。その代表的なも  
のを取り上げて、ハード面、あるいは運  
用、セキュリティなどのソフト面、コス  
ト等について調査した（表5）。

表5

**既存の疾病登録システムの調査**  
**ーハード・運用・セキュリティ・コスト等ー**

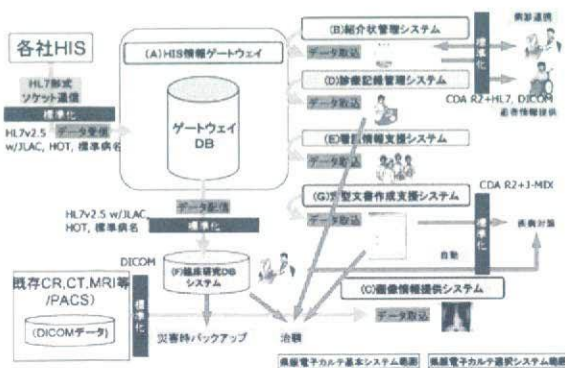
- 紙ベース→電子化、紙ベース・電子入力併用
- 都道府県における特定疾患の臨床調査個人票入力システム
  - 電子カルテと連動した特定疾患受給者証の電子申請(静岡県)
- Web登録**
- IR-netを利用した全国関節リウマチデータベース'NinJa'
  - 臨床研究支援システムJCRAC/DMC
  - 特発性間質性肺炎の多施設症例登録 Web/RDC (Remote Data Capture)システム (ナイフィックス)
  - 臨床試験データ収集Webシステム (タクト)
  - 臨床試験データ収集Webシステム (NTTデータ)
  - 特発性間質性肺炎の薬物的治療法に関する臨床研究データセンターWeb/RDC (Remote Data Capture)システム (ナイフィックス)

紙ベース、電子化、あるいは紙ベースと電子入力の併用、これについては前述の都道府県における特定疾患の臨床個人調査票の入力システムが現在存在する。

静岡県では、発生源(主治医)で直接、電子媒体に入力するという独自の方法が行われている(図5)。

図5

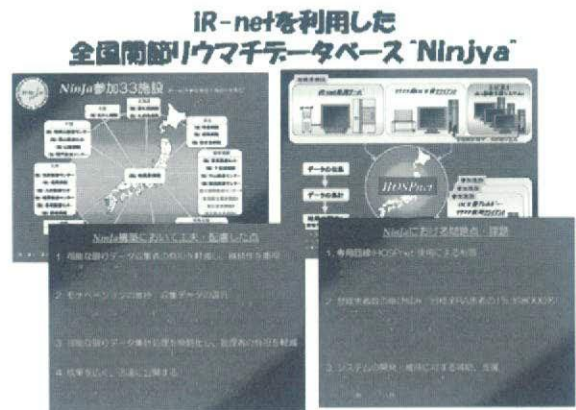
**静岡県版電子カルテシステム 概念図**



これは電子カルテと連動した特定疾患受給者証の電子申請である。このシステムでは個人情報保護の面から Web (インターネット) は利用しないで、CD-ROM を媒体としてやり取りするという、オフラ

イン方式を使っているが、電子カルテとの結合という面からは、将来発展の可能性はある。

オンラインの登録システムとしては、6つのシステムを検討した。代表的なものを示すと、1つはIRネットというものを利用した全国の関節リウマチのデータベース(NinJa)である(図6)。これは、国立病院機構の相模原病院がセンターになって、33の施設が専用回線で結ば



れている。ここでもセキュリティ等を考慮したさまざまなゲートがかけられており、現在運用されている。ただし、このシステムは、Web (インターネット) ではなく、専用回線を使って結ばれている。本システムでは、全国のリウマチ患者さんの1%の登録を目標としているが、患者登録数が4,000名辺りでやや頭打ち状

態となり、伸び悩んでいるとのことであ  
った。

次に、国立国際医療センターがセンタ  
ーになっている、ジェイクラックという  
システムがある（図7）。

これは臨床研究支援システムで、さま  
ざまな臨床研究の支援を、Web 登録を使  
って行っており、既に多くの全国レベル  
の他施設共同研究が、このシステムを使  
って進められている。

図7

### 臨床研究支援システム JCRAC/DMC

**公的なデータセンターの必要性**

- ・長期的アウトカムのための専任継続性
- ・対象疾患による医師の専門性
- ・継続的な研究デザインが必要
- ・中立性
- ・公開性

**JCRAC/DMCの紹介**

公的なデータセンター

JCRAC/DMCの成果1

**JCRAC/DMCが関与した研究一覧**

研究ID	研究名	実施機関	開始年	終了年	研究種別
001	特発性肺線維症に対するNアセチルシステインとサイクロスポリンAの比較試験	国立国際医療センター	2010	2015	比較試験
002	...	...	...	...	...

次に、特発性肺線維症に対するNアセ  
チルシステインとサイクロスポリンAの  
比較試験で用いられている登録システム  
がある（図8）。

図8

### Webシステムを用いた薬剤介入研究 (治療試験) (ナイフックス)

これと同様のシステムは、びまん性肺  
疾患調査研究班の間質性肺炎の登録シス  
テムとして現在、稼働している。これら  
のシステムは民間のCROとITベンダー  
に委託管理されている。

図9は、オンラインによる6つの患者  
登録システムについて、①技術レベル、

図9

### 各Web登録システムの特徴比較結果

区分	評価項目	民間企業 CRO系	民間企業 ITベンダー系	民間企業 CRO+ITベンダー	公評機関 JCRAC	公評機関 DMC
情報システムの技術レベル	システム運用・開発技術	△～×	○～△	○～△	○～△	○
	セキュリティ技術	△～×	○～△	○～△	○～△	○
情報システムのコスト	システム開発費	×	×	×	○	○
	システム維持費	×	×	×	○	○
データマネージメント機能等	データマネージメント 統計機能	○	×	○	○	△～×
	データマネージメント等コスト 統計機能	×	—	×	○～△	△～×
医学関係の知識/ノウハウ	医学知識	○～△	×	○～△	○	○
	医学研究のノウハウ	○～△	×	○～△	○	○
技術的な信頼の受付け	研究の受容性	○～×	○～×	○～×	○～△	○～△
運営、統括、柔軟性	運営、統括	○	○	○	○～△	△～×
	柔軟性	○	○	○	○～△	○～△
	データセンターの変更	○	○	○	△～×	○～△

②コスト、③データマネージメント機能、  
④データマネージメントのコスト、⑤医  
学関係の知識のノウハウ、⑥長期的な管  
理の安定性、⑦その他（意欲、熱意、柔  
軟性等々）の評価項目に従って検討した

結果である。資料 4<sup>19)</sup>

表 6

### まとめ

1. セキュリティを含め技術的には、Web登録システムの導入は可能なレベルにある。
2. システムとしてはCRO+ベンダー系が優れているがコスト面で難しい、総合的に見てJCRACが優れている。
3. システム維持は継続性からみて研究班(横断班)等ではなく、公的・常設の機関が行い、持続的かつ十分な予算が必要

以上をまとめると(表6)、現在の技術レベルからみると、セキュリティを含めてなお改善すべき点が残されているが、Webによる登録システムの導入は、ほぼ可能と判断してよいと結論された。システムとしてはCROとベンダー系が優れているが、コスト面で高く、総合的に見てジェイクラックのシステムが最もすぐれているのではないかとおもわれた。

最も重要な問題は、システムの維持管理をどこが行うのかという点である。システムの維持管理を臨床研究班や横断班(疫学班)が行うことは、管理の安定性等からみると適当ではない。研究班の事務局は班長が所属する大学教室で行っており、班長や教授が交代する毎に影響を受け、不安定となる。システムの維持管

理は公的で常設の機関が行い、そしてそれを維持するための持続的かつ十分な予算が必要という、当然の結論に至った。

3. 共通指標(特定疾患4条件と医療費負担)の情報収集について

特定疾患には共通する指標として4要件がある(表7)。第1に希少性、第2に原因が不明であること、第3に効果的な治療法が未確立であること、そして第4に生活面への長期に渡る支障があることの4項目である。

これらに關係する必要な情報のなかで、主治医を通して患者から得なければなら  
表 7

### 特定疾患の4要件にかかわる 必要共通情報

- ①希少性
- ②原因不明
- ③効果的な治療未確立  
重症度、予後
- ④生活面への長期にわたる支障  
障害の程度(身体的)  
QOL(どう感じているか)  
医療費負担

ない情報には、「治療法の未確立」と「生活面への長期に渡る支障」に關連する疾患の重症度、障害の程度(ADL)、QOL評価、医療費負担の程度などがある。

表 8

## 123疾患の統一入力項目

<b>基本情報(1)</b>	
氏名 性別 生年月日(満 歳) 住所 郵便番号 電話番号 出生都道府県 発病時在都道府県 発病年月 初診年月日 保険種別 家族歴	
<b>基本情報(2)</b>	
<ul style="list-style-type: none"> <li>●重症度(臨床研究班作成)</li> <li>●受診状況</li> <li>●身体障害認定 介護認定</li> <li>●身体的障害程度(Performance Status)</li> <li>●QOL評価(SF36v2)</li> <li>●生活状況 社会活動 日常生活</li> </ul>	
<b>+</b>	
●予後把握(別途対応検討)	●医療費負担状況把握(別途対応検討)
モチベーションを高める目的 <b>疾患別医学的指標</b> (治療法等10項目以内)	

共通情報

検討の結果、オンライン情報システムを構築する場合には、表8のように、このうちの幾つかを共通情報として、それに情報入力する医師のモチベーションを高める目的から疾患別に10項目以内の医学的項目を加えた入力項目で作ることが望ましい。ただし、重要な予後情報の把握と医療費負担情報の把握の方法については、別途検討する必要があるという見解に達した。

表9

<b>A</b>	
<b>B</b>	
<b>C</b>	<p>0 重症度が社会活動ができ、制限を受けることなく、発病前と同様にこなせる。</p> <p>1 軽度の症状があり、肉体的労働は制限を受けるが、歩行、軽労働や作業はできる。例入浴、家事、事務など。</p> <p>2 歩行や身の回りのことはできるが、時に少し介助が必要なこともある。軽労働はできないが、日中の50%以上はこなしている。</p> <p>3 身の回りにある程度のことはできるが、しばしば介助が必要で、日中の50%以上はこなしている。</p> <p>4 身の回りのこともできず、常に介助が必要で、毎日観察を必要としている。</p>
<b>D</b>	<p>身体機能</p> <p>S 日常生活動作(身体)</p> <p>36 身体痛み</p> <p>US 社会生活機能</p> <p>T 全体的健康感</p> <p>位 活力</p> <p>度 日常生活(認知・精神)</p> <p>点 心の健康</p>

A:ADL, B:IADL, C:PS, D:SF36V2

また、障害の程度やQOLに関する尺度に関して(表9)、障害の程度については

ADLやIADLのほかに、共通尺度としてパフォーマンス・ステータスを、QOLについてはSF36のVer.2を用いることが適当と判断された。

図10は、入力画面の試作画面だが、たたき台として生かすことができる。

図10



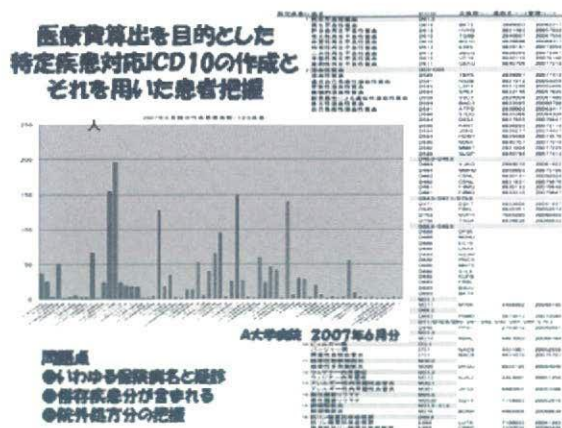
基本入力画面  
初期見本

次に、患者負担の医療費を病院の診療会計システムを利用して算出することは、大変難しいことが明らかになった。まず必要なことは、特定疾患患者の抽出である。疾患分類は世界的にICDコードによって統一されているが、特定疾患では希少疾患のためにコードがない場合があることや、独自の病名が付けられている場合があるため、ICDコードを改良して特定疾患に対応したものを試作した(資料5)。これを用いて、日本医科大学附属病院の協力を得て、試験的に特定疾患患者



の抽出が可能かどうかについて検討した。

図 11



その結果、図 11 のように、一応の把握はできるものの、いわゆる保険病名や疑い病名患者の除外、併存疾患医療費の除外、さらに院外処方分の把握等、病院施設の会計コンピュータを使って機械的に特定疾患医療費ののみを抽出することは大変難しいことがわかり、更なる検討が必要と思われる。

表 9

**まとめ**

- 難病疾患評価の指標として、QOLはSF-36、ADLはPSが候補となった。
- 重症度は各難病性疾患克服研究事業の研究班で利用されている重症度を元にする。
- 各項目の整合性をとり、横断的で定量的な指標として、QOL/ADLと組み合わせる利用可能か、今後検討する。
- データの観測方法は定点観測とする。
- 医療費負担は別途の調査とすべき。薬代の把握が難しい。

以上をまとめると(表 9)、難病疾患の評価の指標として、QOL は S F 36、ADL

はパフォーマンス・ステータスが候補になる。重症度については、平成 10 年度に当時の 121 疾患について各臨床研究班で作られているが、記載形式や重症度の整合性などの横断的な検討がされていないため改良が必要だが、たたき台として十分活用できる。さらに、情報収集は特定の病院施設で定点観測の形で行うこと、また、医療費負担については限られた施設で算出方法を別途検討して行うことが現実的であるという結論に至った。

**4. 情報収集の継続性と入力モチベーションについて**

情報収集体制において最も重要な問題は、前述のように、追跡調査、継続性にある。現在、表 10 に示すように、特定疾患を継続的に追跡調査している臨床研究班が 5 班あり、さらに研究班以外から 1 班を加えて、追跡調査、継続性に関して詳細を検討した。

表 10

**追跡調査を実施している  
臨床研究班5班、他1班に対するヒアリング調査  
H20.11.4**

- 進行性腎障害に関する調査研究班
- アトピー喘息及び遺伝性ウイルス感染症に関する調査研究班
- びまん性肺疾患に関する調査研究班
- 慢性性肝・胆道疾患に関する調査研究班
- 特発性心臓症に関する調査研究班
- 日本における生物学的製剤使用期間トウマチ患者に関する疫学研究班

**調査内容**

- ①登録システムの目的、②データ収集方法、③発生源での入力者、④紙ベースかWebベースか、⑤参加施設数等、⑥データの管理体制、⑦データマネジメント方法、⑧統計担当者の有無、⑨登録状況、⑩フォローアップ状況、⑪データの公表実績、⑫研究資金、⑬その他

患者情報の登録方法は研究班によって紙ベース、Web登録などは異なる。しかし、どの班もやはり入力の問題、個人情報保護法との関連の問題とともに、特に追跡調査の困難性を感じていた。

検討の結果、表11のように、オンライン登録システムの継続性・追跡性を担保するために必要な要件が挙げられました。

すなわち、①可能な限りデータ入力者の負担を軽減すること、②入力モチベ

表11

**経時的追跡・継続性からみた  
Web登録システムの要件**

1. 可能な限りデータ収集者の負担を軽減する
  - 1) 収集する情報量の制限: コア情報のみに限定する
  - 2) 入力画面を1画面に集約する
2. モチベーションの維持: 収集データの還元
  - 1) 各施設ごとに、入力されたデータがデータベース化され利用できる
  - 2) 日常診療でも利用できる機能を付加する
  - 3) データ提供施設はデータを利用した臨床研究を行い、成果を発表可能とする
3. 可能な限りデータ集計処理を簡略化し、管理者の負担を軽減
  - 1) 予め設定した統計解析処理を自動的に実行し、グラフ化する
4. 成果を広く、迅速に公開する
  - 1) ホームページを開設(英語版も併設)する
  - 2) 解析結果を公開(患者さん向けにすべてに訳語を添付する)
  - 3) 学会でのアース出版をする

ーションの維持をはかること、③可能な

限りデータ集計処理を簡略して管理者の負担を軽減すること、④成果を迅速かつ広く公開することなどである。

しかし継続性は、これらの要件をしてもなお難しいという事実がある。

表12

**フォローアップの困難さ**

(例)日本における生物学的製剤使用期間トウマチ患者に関する疫学研究班

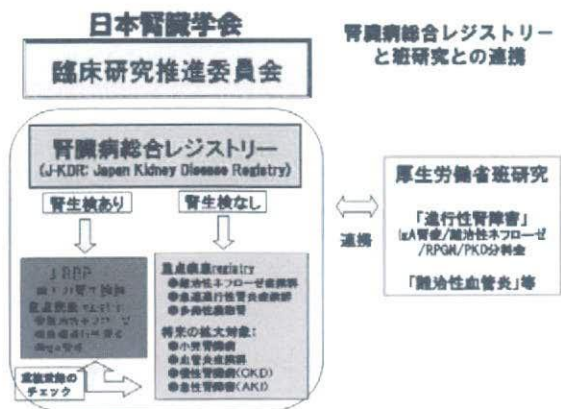
入力時期	入力可能患者数	入力済患者数	入力済%
初回	1,390	1,361	97.9
第1回経過	1,247	1,158	92.8
第2回経過	1,156	997	86.2
第3回経過	1,021	817	80.0
第4回経過	898	618	68.8
第5回経過	650	402	61.8
第6回経過	318	148	46.5

2008年10月31日現在

表12は、「関節リウマチに関する生物学的製剤の疫学研究班」の入力に関するデータであるが、初回は98%入力されているが、第2回、第3回と経過するに従って入力パーセントが低下して、第6回になると50%以下になっている。これは、入力のモチベーションを維持することの難しさを物語っている。

今回の私どもの調査の中で、「日本腎臓学会」と「進行性腎障害の研究班」の共同による、総合腎疾患登録システムがある(図12)。

図12



これは1つの疾患に関して複数の研究グループによる複数の小研究テーマに関する調査研究を集積して、それらの調査研究の中に共通した基本情報の項目を包含させて、それを収集するという積み上げ方式である。これは今後の研究班を主体とした情報収集のあり方として大変貴重なものではないかと評価した。

表13は、研究内容の一覧であるが、内容を見ると、研究課題はさまざまである。このさまざまなテーマによる調査研

進行性腎障害調査研究班（進行状況一覧(平成20年4月～)

分科会名	研究課題名	目標症例数	登録数(総数)	進捗状況	備考:2009年度中の公表予定など
IgA腎症	igA腎症におけるアズチオチン免疫抑制療法(AZT)の療効果検証(第3次)の多施設共同研究(研究班)	200	68(22)	111例以上の患者さんも必要登録未達成	評価の途、打ち切りも考慮
	igA腎症の重症化予防と予後に関する調査(第2次)の多施設共同研究(研究班)	500	268(12)	臨床研究は終了、前向き研究を開始	igA腎症診療指針(第3版)
	igA腎症における慢性腎臓病と、その予後に関する調査(第1次)の多施設共同研究(研究班)	500	40(1)	患者登録未達成、プロトコル変更	
EOPD(急速進行性慢性腎臓病)	AKI患者の予後に関する調査(第2次)の多施設共同研究(研究班)	126	12(1)	登録が滞り、協力施設を拡大中	
	AKI患者の予後に関する調査(第1次)の多施設共同研究(研究班)	...	...	終了し指針改定中	RPGN診療指針改訂版
難治性ネフローゼ症候群	日本透析学会(透析療法)の多施設共同研究(研究班)	可成り	...	キックオフ	
	難治性ネフローゼ症候群(第2次)の多施設共同研究(研究班)	58	20	登録開始延長	
多発性囊胞腎	難治性ネフローゼ症候群(第1次)の多施設共同研究(研究班)	10	...	調査中	
	データバンク構築プロジェクト(研究班)	可成り	...	調査中	
疫学調査	AKI患者の予後に関する調査(第2次)の多施設共同研究(研究班)	...	...	調査中	
	腎臓病登録ネットワーク構築(研究班)	...	(130)	集計中	年度末にデータ公表

究の中の共通調査項目を、特定疾患の調

査として生かすという方法である。

資料

6<sup>vi</sup>, 7<sup>vii</sup>, 8<sup>viii</sup>, 9<sup>ix</sup>, 10<sup>x</sup>, 11<sup>xi</sup>, 12<sup>xii</sup>, 13<sup>xiii</sup>

### III. 結論 (表14)

表14

- #### 結 論
- 45治療研究対象疾患について個人調査票の活用は82%と進んでいるが、123疾患全体では20%、予後調査にかかわる追跡調査は12%に留まっていた。
  - 現行登録システムは大部分が紙ベースによる登録であるが、将来的にはWebベース登録を推進する必要がある。JC RACの活用が選択肢として挙げられ、入力項目は全疾患共通項目とともに少数の疾患別項目の選定が必要。
  - 登録システムの維持には公的常設組織による運営と追跡調査の困難性を克服するためのモチベーションを高める方が重要。
  - 行政的必要性と研究者の研究意欲をいかに結びつけるかが鍵となるが、123全疾患を網羅することは困難。
  - 最終的には、情報発生源に対するインセンティブを伴う特定疾患登録システムの確立が必要。

45の治療研究対象疾患に関しては、個人調査票の活用は82%と進んでいるが、123疾患全体では20%、予後調査にかかわる追跡調査は12%に留まっている。現行の登録システムは、大部分が紙ベースによる登録であるが、将来的にはオンラインWebベース登録を推進する必要がある、技術的にはほぼ可能であると判断される。方法としては、ジェイクラックの利用が選択肢として挙げられ、入力項目については全疾患の共通項目とともに少数の疾患別項目の選定が必要である。

登録システムの維持には、公的な常設組織による運営と、追跡調査の困難性を克服するためのモチベーションを高める方が極めて重要である。そのためには、行政的における必要性和研入力者である医師の研究意欲、これをいかに結びつけるかが鍵となっている。

当面は腎臓学会と研究班の合同で行われている「総合腎疾患登録システム」のような積み上げ方式を、研究班が主体となって行ってゆくことが、最も現実的な方法と思われるが、医師主体の入力作業には研究成果につながるインセンティブが必要であり、123 疾患の全てを網羅し、継続性をもって情報収集することは相当の困難を伴う。最終的には、継続的な情報発生源入力と学才的な情報解析とを切り離して考える必要があり、国の既存疾病統計（「人口動態統計」等）と結合させながら、相当額の予算を投じて国のシステムとして永続的に確立する必要があると思量する。

---

<sup>i</sup> 資料 1：患者登録システムに関する質問票調査への御協力のお願い

<sup>ii</sup> 資料 2：患者登録システムに関する質問票調査 集計概要

---

<sup>iii</sup> 資料 3：患者登録システムに関する質問票調査 集計表

<sup>iv</sup> 資料 4：各 Web 登録システムの特徴比較結果

<sup>v</sup> 資料 5：特定疾患-ICD10 コード変換表

<sup>vi</sup> 資料 6：進行性腎障害に関する調査研究班資料

<sup>vii</sup> 資料 7：プリオン病および遅発性ウイルス感染症に関する調査研究班資料

<sup>viii</sup> 資料 8：びまん性肺疾患に関する調査研究資料-1

<sup>ix</sup> 資料 9：びまん性肺疾患に関する調査研究資料-2

<sup>x</sup> 資料 10：難治性の肝胆道疾患に関する調査研究班資料

<sup>xi</sup> 資料 11：特発性心筋症に関する調査研究班資料

<sup>xii</sup> 資料 12：特発性心筋症に関する調査研究班, CCMM ケースカード

<sup>xiii</sup> 資料 13：日本における生物学的製剤使用関節リウマチ患者に関する疫学研究資料