

平成 25 年度厚生労働科学研究費補助金（がん臨床研究事業）
分担研究報告書

小児がん登録と長期フォローアップのための情報システム構築
（主任研究者 黒田 達夫 慶應義塾大学小児外科教授）

分担研究者	瀧本 哲也	国立成育医療研究センター研究所 小児がん疫学臨床研究センター登録データ管理室長
	池田 均	獨協医科大学越谷病院 小児外科 教授
	松田 智大	国立がん研究センター がん対策情報センター がん統計研究部 地域がん登録室室長
研究協力者	箕輪 純子	小児がん疫学臨床研究センター登録データ管理室
	岡本 和子	小児がん疫学臨床研究センター登録データ管理室

研究要旨 小児がんの登録から長期フォローアップ情報までをシームレスに収集するシステムを構築するために、小児がん中央機関が拠点病院と連携して果たすべき役割として、小児がんの登録については、日本小児血液・がん学会登録を一次登録として小児がん特有のより詳細な項目を小児がん中央機関が拠点病院から収集すること、小児がん研究グループのデータセンターと連携し、臨床研究に参加した患者についての情報も同意を取得したうえで収集できる体制の構築を目指すこと、そしてこれら在全国がん登録データと連携させること、また小児がん経験者の長期フォローアップについては、小児がん中央機関-拠点病院（地区ブロック）-診療施設からなるネットワークで小児がん経験者との長期にわたる接触のあり方や、収集すべきフォローアップ情報を明確化したうえで情報を小児がん中央機関に集約し、長期的合併症に対する検査スケジュールや治療法/対処法、さらに就学や就職支援のためのガイドライン等を作成し、改良・公表していく体制を構築すべきと考える。これらの活動はおのずと小児がん診療の集約化にもつながっていくと考えられる。

A. 研究目的

本分担研究では、小児がんの登録から長期フォローアップ情報までをシームレスに収集するシステムを構築するために、小児がん中央機関が拠点病院と連携して果たすべき役割について、小児がん領域で現在実施されている日本小児血液・がん学会登録による「20歳未満に発症する血液疾患と小児がんに関する疫学研究」（以下、学会登録）の実態、および昨年度までの厚生労働科学研究費補助金研究（がん臨床研究事業）の

結果等をふまえて、具体的に提言することを目的とする。

B. 研究方法

学会登録、および小児がんの長期フォローアップ体制の現状、および成人領域も含めた全国がん登録の法制化や現在進行中の各地区の小児がん拠点病院を中心とした診療連携のための地区ブロック構築の動き等もふまえて、小児がん中央機関が小児がんの登録、臨床試験や観察研究から長期フォ

ローアップに至る流れを連結させるために果たすべき役割について考察する。

(倫理面への配慮)

学会登録における情報収集は、「疫学研究に関する倫理指針」に準拠して実施している。収集する患者情報には、登録対象者を直接識別できるような個人情報(実名、カルテ番号、住所の詳細等)は含まないが、小児がんの登録業務を担当する者には、個人情報の取扱いにかかわる教育を行うとともに、データベースは外部のネットワークに接続しないイントラネットで管理し、登録内容の閲覧・修正については職員に固有のユーザーID・パスワードを必須とした。また、症例登録に先立って登録者の所属施設長からの承認を確認している。

C. 研究結果

1. 学会登録の現状と今後の小児がん登録のあり方について

2009年12月以来、日本小児血液・がん学会の委託を受けて学会登録の実務を国立成育医療研究センターの小児がん登録室で行っている。これまでの累積登録症例数は、2008年は固形腫瘍 895 例、造血器腫瘍 1153 例、2009年は固形腫瘍 972 例、造血器腫瘍 1123 例、2010年は固形腫瘍 958 例、造血器腫瘍 1157 例、2011年は固形腫瘍 1000 例、造血器腫瘍 1038 例、2012年は固形腫瘍 876 例、造血器腫瘍 951 例である。疾患の細分類などのより詳細な登録情報については学会誌等に別途報告されるためここではふれないが、本邦における造血器、固形腫瘍の新規登録例数はそれぞれ年間約 1000 例前後で推移しており、年間 2000~2500 例と考

えられる小児がんの新規発症例数からは 80%以上の捕捉率と考えられる。

ただし現行の学会登録の内容は小児がんの病態に直接関連する項目は少なく、治療に関連する項目も全くない、カタログ情報に近いものであるため、小児がんの実態解明に関する研究にはあまり役立たない。この点については、昨年法制化された全国がん登録も同様である。したがって小児がん特有の詳細な項目を収集して集計し、小児がんの実態解明に役立てるシステムの構築は小児がん中央機関の役割のひとつと考えられる。その一方で、小児がん診療施設の負担軽減のために、現行の学会登録との重複をなるべく避ける必要がある。また今後、全国がん登録が実際に開始されれば、小児がんも含めたがんの疾患頻度とその年次変化については、ほぼすべて把握されることになると考えられる。したがって、小児がん中央機関が把握する小児がん関連情報に悉皆性を求める必要は乏しいと考えられる。

以上より、小児がん特有の詳細な項目については、学会登録とは別に、小児がん中央機関が拠点病院から収集すべきと考えられる。この際、学会登録との不整合を避けるために、学会登録のカタログ情報を一次登録として、登録例についてより詳細な情報を収集するのが現実的と思われるが、もとより学会との調整が必要である。現在、小児がん拠点病院 15 施設からの登録例が全学会登録例の約 1/4~1/3 程度を占めていることを考慮すれば、悉皆性はないが年間数百例の情報の収集が見込まれるため、毎年累積していけば有用な情報となり得ると考えられる。

2. 小児がん登録と臨床研究との連携

現在、小児がん領域で臨床試験を実施している全国規模の研究グループは7つあり、いくつかの研究グループでは対象疾患について独自の症例登録を実施している。しかし、臨床試験の登録も含むグループ独自の登録は、学会登録や全国がん登録とはもちろん独立している。したがって、臨床試験（あるいは介入のない観察研究）で得られた臨床情報を研究グループ外の登録に直接提供する方策はない。例えば国立成育医療研究センターでデータ管理を実施している小児固形腫瘍観察研究では、現在オンライン登録システムを構築しているが、観察研究のために入力した臨床データの一部を、あくまでも施設の責任で学会登録に移行させることができるようにシステム上の便宜を図ることまでが限界である。臨床試験登録例のデータについては、このような連結も存在していない。

一方、ドイツでは登録と臨床試験が連結しており、小児がん登録が臨床試験の入り口の役割を果たしている。

すなわち、小児がん患者を診断した施設は登録センターに診断名を伝え、登録センターから腫瘍に固有の登録フォームを受け取るが、施設で記入された登録フォームは登録センターではなくがん種に応じたスタディセンターに返送され、そこで記載内容に関するクリーニングが実施される。このため、小児がんの登録が臨床試験に直結するのみならず、登録データの質もきわめて高いものとなっている。このようなシステムには、もちろん法的なうらづけが必要であるが、小児がん登録と研究グループの臨床

試験データセンターとが連携できれば、本邦でも研究グループ登録や臨床試験/観察研究の登録時に同意を得ることによってデータの移動は難しくないと考えられる。

3. 小児がん経験者の長期フォローアップ

小児がんの罹患や治療に伴う長期的な合併症として、低身長、二次性徴不全、不妊などの内分泌系の異常、心、腎、肺、神経系、聴力などの各種臓器の機能不全、二次がんなどの肉体的な障害に加えて、認知機能障害や社会的問題などがあり、これらがさらに就学や就職に影響することが知られている。このような長期的合併症の実態の把握および対策は、小児がん克服後の期間が長い小児に特有の事項であり、成人がんにはない問題であるにもかかわらず、情報を系統的に収集するシステムが本邦には存在しない。その一方で、長期フォローアップには、小児がん経験者とのようにして長期にわたって接触を継続するか、小児がん経験者にとってどのような利益があるのか、また膨大な情報の中からどのような情報を選択して収集するか等の問題点がある。

これらの問題を解決するためには、小児がん中央機関-小児がん拠点病院(地区ブロック)-診療施設からなるネットワークを形成し、各地域において診療施設と当該地域の拠点病院が連携して小児がん経験者との接触を維持するとともに、小児がん中央機関に長期フォローアップ情報を集約する体制を構築する必要がある。そのうえで、学会や研究グループと協議して、小児がんの長期合併症の実態把握のために真に必要な情報や、小児がん経験者の就学・就職に係る問題点等を明確にしたうえで、長期的合

併症の早期発見のための検査スケジュールや治療法についてのガイドライン、就学や就職支援のためのガイドライン等を作成し、患者本人を含む一般に公開するとともに、経時的に改良していくべきと考えられる。さらに、1, 2で述べたような体制が構築できていれば、小児がん発症時の登録データや臨床試験（観察研究）のデータも連結して利用することが可能になると思われる。

D. 考察

小児がんは年間 2000～2500 例の希少疾患であるが、小児の疾患による死亡率の最上位を占めている。現在、がん対策推進基本計画に則って小児がん中央・拠点病院の整備が進んでいるが、このような希少疾患であるからこそ、小児がん中央機関が拠点病院と連携して、小児がん患者の登録および長期フォローアップのような安定した経済的基盤を要する活動を行うことは合理的である。このために小児がん中央機関と小児がん拠点病院、さらに拠点病院と個々の診療施設の長期フォローアップ部門/担当者からなる協議会を設置することが望ましい。

しかしながら、問題点はいくつか考えられる。例えば、すべての小児がん患者が小児がん中央・拠点病院を受診するわけではないため、悉皆性が担保されず、また患者からは受診医療機関によって待遇が異なるような印象を与える可能性がある。これについては今後、小児がん患者の拠点病院への集約化を進める過程で解決策を見出していく必要があるが、当面は事業ではなく、モデルケースとして研究ベースで実施していくほかはないと思われる。しかし、それでも最終的にすべての小児がん患者を対象と

する形に近づく第一歩としての意義は大きいと考えられる。

小児がんの登録については法制化された全国がん登録との連携が必要である。登録患者の突合には、登録漏れの防止だけではなく、全国がん登録例の一部ではあるとはいえ、詳細な臨床情報との連結が可能になるという意義がある。

一方、臨床試験や観察研究はあくまでも競争的研究資金による研究活動であるため、小児がん登録や長期フォローアップのシステムのような事業の性格の強い活動との連携は必ずしも容易ではないと思われる。それでも、小児がん経験者にとっての利益という視点から、小児がん研究グループのデータセンター等と連携し、臨床研究に参加した患者についての情報を、同意を取得したうえで収集できる体制の構築を目指すべきと考える。

小児がんの長期フォローアップにおいては、患児の転居、主治医の転勤や退職、あるいは大学進学や就職などによってフォローアップ中に外来受診が途絶える危険性が高い。「疾患別晩期合併症に関する情報の集約・発信」は、小児がん中央機関に期待される役割のひとつに挙げられていることから、小児がん経験者本人からのインフォームドコンセントを取得したうえで、実名による追跡を実施できる体制の整備を行うべきである。

以上に述べたような活動は、小児がん診療の集約化にも自然につながっていくことが期待される。

E. 結論

小児がんの登録から長期フォローアップ

情報までをシームレスに収集するシステムを構築するために、小児がん中央機関は小児がん登録や長期フォローアップ情報の収集において、拠点病院（および個々の診療施設）と連携した体制を構築すべきと考えられる。

F. 健康危険情報

なし

G. 研究発表

1. 論文発表

- 1) 佐藤聡美, 瀧本哲也: 小児がん経験者の認知機能アセスメント. 日本小児血液・が

ん学会雑誌 50(3), 386-391, 2013.

2. 学会発表等

該当なし

H. 知的財産権の出願・登録状況

1. 特許取得

該当なし

2. 実用新案

該当なし

3. その他

該当なし