

厚生労働科学研究費補助金 難治性疾患等克服研究事業（難治性疾患克服研究事業）  
分担研究報告書

新生児横隔膜ヘルニアにおける医療の質改善に向けた取り組み

**研究分担者** 田口 智章 九州大学大学院医学研究院 小児外科学分野 教授  
**研究協力者** 永田 公二 九州大学大学院医学研究院 小児外科学分野 助教

**研究要旨**

**【研究目的】** 先行研究である平成 23 年度難治性疾患克服研究事業「新生児横隔膜ヘルニア重症度別治療指針の作成に関する研究」を基に、本邦における新生児横隔膜ヘルニアの治療実態が明らかとなり、本研究の今後の方向性が明らかとなった。すなわち、（ ）疾患多様性のある本疾患における重症度を層別化して定義し、重症例に対する社会保障制度を確立すること、（ ）治療方針を均一なものにするための診療ガイドライン作成、（ ）先行研究の長期予後調査およびデータ収集を円滑にするための症例登録制度の確立、（ ）治療効果の客観的評価・検証のための前方視的研究体制の構築が本研究の目的である。

**【研究方法】**（ ）診断方法、重症度分類を作成する。（ ）治療経験が豊富な 13 施設から研究協力者を募り、Minds の協力の下に診療ガイドライン作成の手引き 2007 を参考にし、準備を進めたが、2014 年の改訂を視野に置いて、2013 年 12 月からは Minds 2014 診療ガイドライン作成の手引き（暫定版）を参考にした。（ ）先行研究の長期症例調査票を作成し、協力施設 9 施設における追跡調査を行った。また、症例登録制度について検討した。（ ）前方視的研究の研究概要・研究体制構築を議論する。

**【研究結果】**（ ）小児慢性特定疾患治療研究事業「診断の手引き」によせて診断基準と重症度分類を作成した。最重症、重症、軽症に分類し、重症例のみを小児慢性特定疾患の対象と定めた。また、同様に「疾患の概要」を作成した。（ ）ガイドライン作成の骨格となる SCOPE を作成し、各研究者に重要と思われる全 30 の CQ を設定した。CQ の構造式である PICO を設定したが、CQ には、診断やモニタリングに関するクリニカルクエスションも含まれていたため、系統的文献検索に適さないと判断し、CQ のスリム化を行っている。（ ）先行研究や本年度の長期フォローアップ調査の症例調査票を利用した登録制度の確立に Excel ファイルを修飾してデータを活用することとした。（ ）国立成育医療研究センターにおける本症に対する胎児治療の早期安全性比較試験に協力すること、前方視的研究体制を構築することを確認した。

**【結論】** 先行研究で示された本邦の先天性横隔膜ヘルニアにおける診療実態を基に、患者・家族に対してより良い医療を提供するために主要課題 4 項目について議論を行った。疾患多様性を有し、稀少性の高い本症における医療の均てん化は喫緊の臨床課題であるが、より質の高い医療を提供するための素地は整備されていないと言える。今後、来年度を目標に「先天性横隔膜ヘルニア診療ガイドライン」作成を継続するとともに、その他の主要課題に関しても研究を継続することが必要であると考えられた。

## (新生児横隔膜ヘルニアグループ)

### 研究分担者

田口智章

九州大学大学院医学研究院  
小児外科学分野 教授

奥山宏臣

兵庫医科大学  
小児外科 教授

早川昌弘

名古屋大学医学部附属病院  
総合周産期母子医療センター 病院教授

金森 豊

国立成育医療研究センター  
臓器・運動器病態外科部外科 医長

稲村 昇

大阪府立母子保健総合医療センター  
小児循環器科 副部長

中村知夫・五石圭司

国立成育医療研究センター  
周産期センター新生児科 医長・医員

吉田英生

千葉大学大学院医学研究院  
小児外科学分野 教授

増本幸二

筑波大学医学医療系  
小児外科 教授

川滝元良

神奈川県立こども医療センター  
新生児科 部長

漆原直人

静岡県立こども医療センター  
小児外科 科長

木村 修

京都府立医科大学  
小児外科学分野 特任教授

## A. 研究目的

先行研究で明らかになった本邦における新生児横隔膜ヘルニアの治療実態として、施設間で疾患重症度の差異があること、治療成績に格差があることが明らかになった。即ち、年間経験症例数の多い施設では重症例が多い傾向にあること、生存率が比較的高い傾向があることが明らかになった。また、生存退院症例の約10%に在宅医療が必要となる現状も明らかになり、これらの症例に関する追跡調査や重症例に対する社会保障制度の確立、施設間格差の解消も喫緊の課題と考えられた。

本研究の目的は、新生児横隔膜ヘルニアにおける上述のような診療の質改善に向けた取り組みを行うことである。

## B. 研究方法

### 1. 研究体制

本研究を実施するにあたり、分担研究者に加え、以下の研究協力者の参加を得た。

#### 【研究協力者】

左合治彦（国立成育医療研究センター周産期・母性診療センター センター長）、渡邊稔彦（国立成育医療研究センター臓器・運動器病態外科部外科）、濱 郁子、井上毅信（国立成育医療研究センター周産期センター 新生児科）、高安 肇（筑波大学医学医療系 小児外科）、照井慶太（千葉大学大学院医学研究院 小児外科）、豊島勝昭、岸上真、玉置祥子（神奈川県立こども医療センター 新生児科）福本弘二、矢本真也（静岡県立こども病院 小児外科）、田中靖彦、長澤真由美（静岡県立こども病院 新生児科）、古川泰三（京都府立医科大学 小児外科）、横井暁子（兵庫県立こども病院 小児

外科) 近藤大貴、伊藤美春、服部哲夫(名古屋大学医学部附属病院 総合周産期母子医療センター)、阪 龍太(兵庫医科大学小児外科)、田中智彦(大阪府立母子保健総合医療センター 小児循環器科)、田附裕子、(大阪府立母子保健総合医療センター 小児外科)、永田公二、江角元史郎(九州大学病院 小児外科)、吉田雅博(日本医療機能評価機構 EBM 医療情報部)、森倫太郎(国立成育医療センター 成育政策科学研究部)

## 2. 主要課題(4項目)

) 疾患多様性のある本疾患における重症度を層別化して定義し、重症例に対する社会保障制度を確立する

) 治療方針を均一なものにするための診療ガイドラインを作成する

) 先行研究の長期予後調査およびデータ収集を円滑にするための症例登録制度の確立

) 治療効果の客観的評価・検証のための前方視的研究体制の構築

## 3. 研究の対象と方法

) 小児慢性特定疾患治療研究事業に対して、「先天性横隔膜ヘルニア」の新規申請に向けて、申請書書式を参考に「診断の手引き」と「疾患の概要」を作成する。

) 「先天性横隔膜ヘルニア」診療ガイドライン作成に向けて下記の 12 施設の協力を得た。【九州大学病院、大阪大学病院、兵庫医科大学病院、名古屋大学病院、国立成育医療研究センター、大阪府立母子保健総合医療センター、筑波大学病院、千葉大学病院、静岡県立こども病院、神奈川県立こども病院、兵庫県立こども病院、京都府立医科大学病院】

日本医療機能評価機構 EBM 医療情報部の協

力の下に、診療ガイドライン作成の手引き 2007 を参考にして準備を進めたが、2014 年の改訂を視野にいて、2013 年 12 月からは Minds 2014 診療ガイドライン作成の手引き(暫定版)を参考にした。

) 長期予後調査を実施するにあたり、下記の 9 施設の協力を得た。

【九州大学病院、大阪大学病院、兵庫医科大学病院、名古屋大学病院、国立成育医療研究センター、大阪府立母子保健総合医療センター、筑波大学病院、千葉大学病院、兵庫県立こども病院】

今回、本多施設共同研究に参加する施設において、2006 年 1 月 1 日~2010 年 12 月 31 日に出生した新生児のうち、先天性横隔膜ヘルニアと診断されて手術を受け、生存退院した全患児を対象とした。

調査手順: 2011 年の全国調査の対象となった生存退院例について、1 患児につき 1 部の症例調査票(case report form; CRF)を、連結可能匿名化のための症例番号を付与して、研究事務局が各調査実施施設に送付する。2013 年 9 月~10 月の間に、各調査実施施設の責任医師が中心となって、全対象児の診療録を元に CRF へのデータ記入を行う。各調査実施施設の責任医師は、データを記入した CRF の原本を研究事務局に郵送するとともに、CRF のコピーをとって自施設で保管する。研究代表者への CRF の送付は、2013 年 10 月末日までに完了する。調査項目は、a) 症例の転帰、b) 修正 1 歳 6 ヶ月時の所見、c) 暦 3 歳時の所見、d) 暦 6 歳時の所見を対象とした。

) 多施設共同研究の前段階として、どのような研究体制でどのような研究が実施可能かについて議論を重ねた。

## C. 研究結果

### ) 診断基準と重症度分類

小児慢性特定疾患治療研究事業「診断の手引き」によせて診断基準と重症度分類を作成した。最重症、重症、軽症に分類し、重症例のみを小児慢性特定疾患の対象と定めた。(資料 1-1) また、同様に「疾患の概要」に関する文章を作成した。(資料 1-2)

### ) ガイドライン作成

日本医療機能評価機構 EBM 医療情報部の協力の下、診療ガイドライン作成に取り掛かった。まず、研究協力施設から先天性横隔膜ヘルニアに関する重要臨床課題を 40 作成し、これらを 5 つのパートに分類した。当初、研究協力者は診療ガイドライン作成に関与した経験が少なく、推奨治療を作成する方針で進んでいた。その後、科学的根拠に基づく診療ガイドライン作成の全体像が明らかになるにつれて、専門家の意見を主体として推奨治療を作成するのではなく、系統的文献検索 (systematic review) を用いて、エビデンスレベルの高い論文を網羅的に検索し、診療の根拠を検証した上で推奨治療を決定する方針となった。さらに Minds から出版されている診療ガイドライン作成の手引 2007 を参考にして、ガイドライン作成の骨格となる SCOPE を作成した。(資料 1-3) さらに重要臨床課題の絞り込みを行い、5 つのパート分類、30 の臨床課題 (Clinical Question : CQ) を下記のように作成した。

### パート 1. 出生前診断～分娩

- CQ1 . CDH の胎児診断例における重症度評価法にはどのような方法があるか？
- CQ2 . 出生前診断例における適切な分娩方法、分娩時期は？

CQ3 . CDH の胎児診断例における母体ステロイド投与の有効性は？

CQ4 . 出生直前に鎮静剤、筋弛緩剤を投与すること (胎児麻酔) は有用か？

### パート 2. 出生後の管理～stabilize まで

CQ5 . 出生直後のバッグ & マスク換気は、その後の予後に悪影響を及ぼすのか？

CQ6 . 出生直後に経鼻胃管を挿入することは胸腔内臓器の腸管ガス減少に有効か？

CQ7 . 肺合併症をおこさないための人工呼吸器設定はどのようなものか？

CQ8 . Gentle ventilation とはなにか？これを行うことで改善される指標はなにか？

CQ9 . NO の投与開始基準と減量もしくは中止基準はなにか？

CQ10 . 呼吸・循環動態などの全身状態の評価に必要なモニタリングと数値目標はなにか？

CQ11 . 一般所要量の肺サーファクタント投与は CDH 患児の呼吸状態の改善に有効か？

CQ12 . Stabilization 期間中の全身管理はどのようにすべきか？ (気管内吸引の回数や浣腸など)

CQ13 . 血管内容量負荷に用いるべき最適な輸液製剤や投与量はどのようなものか？

CQ14 . 全身性ステロイド投与は呼吸循環状態の改善に有効か？

CQ15 . 術前後の呼吸・循環管理において、最適な鎮静剤、鎮痛剤、筋弛緩剤の使用方法はどのようなものか？

### パート 3. 病態別管理

CQ16 .CDH の PPHN を増悪させる因子は何か？

CQ17 .CDH の PPHN の治療として有効な治療はなにか？

CQ18 .CDH の PPHN の重症度評価方法はなにか？

CQ19 .CDH の遠隔期肺高血圧に有効な治療はなにか？

CQ20 .横隔膜ヘルニアの管理に効果的な循環作動薬は何か？

CQ21 .横隔膜ヘルニアの循環管理に必要なモニタリング(心臓超音波検査を含む)の指標は何か？

CQ22 .CDH に対する適切な輸液管理、(経静脈・経管)栄養管理とはなにか？

#### パート4. 侵襲的治療 (ECMO と手術)

CQ23 .CDH 治療において ECMO は有用か？

CQ24 .CDH において術前安定化の指標はなにか？

CQ25 .CDH では待機手術は早期手術に比べて有用か？

CQ26 .CDH において推奨されて初回手術法(経腹 or 経胸、糸、人工膜、付加手術)はなにか？

CQ27 .CDH における内視鏡手術の適応と有効性はなにか？

#### パート5. 手術後から退院、長期フォローアップ

CQ28 .CDH 根治術後の適切な GER 評価法と治療はなにか？

CQ29 .術後に留意すべき中長期合併症とはなにか？

CQ30 .退院後の CDH 患者における理想的なフォローアップ体制とは？

これらの CQ に対して、文献検索のための検索式となる PICO の設定を試みたが、CQ 内

容にリサーチクエスチョンが混在していること、診断やモニタリングに関する CQ が混在していること、診療ガイドライン作成の手引 2014 (パブリックコメント用暫定版) が掲載され、ガイドライン作成方法自体も改訂がなされる可能性が高いことから、更なる PICO の設定確認、CQ のスリム化を検証する必要があることが明らかとなり、現在検証中である。

#### 長期フォローアップ調査、症例登録制度

(資料 1-4、資料 1-5)

研究協力施設から回答が得られた長期フォローアップ調査の結果を下記に示す。

	有り	無し	総数	発生頻度 (%)
ヘルニア再発	21	161	182	11.5
主治医判断 発達遅延 (1.5 歳)	38	107	145	26.2
歩行遅延 (1.5 歳)	21	120	141	14.9
発語遅延 (1.5 歳)	30	112	142	21.1
聴力障害 (1.5 歳)	13	120	133	9.8
視力障害 (1.5 歳)	1	138	139	0.7
てんかん (1.5 歳)	4	142	146	2.7
脳性麻痺 (1.5 歳)	3	140	143	2.1
在宅酸素	21	148	169	12.4
気管切開	3	167	170	1.8
人工呼吸	3	166	170	1.8
肺高血圧薬	17	153	170	10.0
利尿薬・循環作動薬	9	161	170	5.3
GERD 手術	18	151	169	10.7
GERD 内科治療	40	128	168	23.8
腸閉塞	21	146	167	12.6
胃瘻・経管栄養	25	145	170	14.7
漏斗胸	18	150	168	10.7
側弯	24	142	166	14.5
胸郭変形	14	152	166	8.4
停留精巣 (男)	15	72	87	17.2

先行研究から3年ないし7年が経過して得られた長期フォローアップデータである(資料1-4)より詳細な報告は他稿に譲るが、今後、症例毎のデータをもとにさらなる疾患の発症要因、危険因子に関する検討を加えていく方針である。

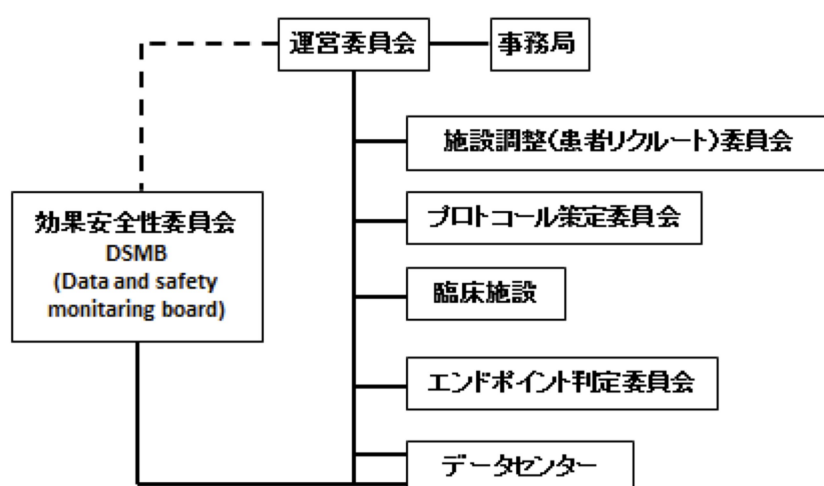
### 前方視的研究

当初、前方視的研究に関しては、エビデンスレベルの高い研究を考慮した randomized controlled trial (RCT) を念頭に救命率の低い重症例に限って多施設共同研究を行う方針であった。しかしながら、本邦における倫理的問題、施設毎の治療方針の差異もあり、これを統一してさらに倫理的価値観に配慮した上で研究を進めていくことに困難が生じる可能性があった。軌を一にして研究協力施設である国立成育医療研究センター周産期センターでは2013年10月から胎児治療の早期安全性試験(3年間実施予定)が開始されることとなった。

研究の趣旨は先天性横隔膜ヘルニアに対する胎児治療(胎児鏡下バルーン気管閉塞術)の有効性を検証する研究であり、既に欧州を中心に多国間多施設間で臨床研究が開始されている。本研究班ではこの研究に協力する方針を固めた。また、多施設共同研究試験の組織体制のプロトタイプを想定した。

今後の方向性としては、前方視的研究内容をRCTに固執するのではなく、症例集積試験や前後比較試験といったより研究課題として比較的取り組みやすい研究を計画するべきであると考えられた。本研究内で治療ガイドラインに関する議論を重ねるうちに施設内における治療方針の差異が徐々に是正され、全ての研究協力施設が同意可能な緩やかな統一 protocol が出来上がる事が望ましいと考えられた。

### 多施設共同試験の組織体制のプロトタイプ



(折笠 秀樹: The Lipid 14 (1) p26-30, 2003 より改変)

## D. 考察

新生児先天性横隔膜ヘルニアは、疾患の稀少性と多様性のために、各施設の症例経験数が少なく、治療方針が各施設によって異なることから疾患概要や治療方針が混沌としていた新生児外科疾患である。先の全国調査により集計された過去5年間、614例の先天性横隔膜ヘルニアの短期予後は、全体の生存率が75.4%、isolated CDHの生存率が84.0%と比較的良好であったものの、退院時に在宅医療が必要でなかった症例は、おのおの64.5%と76.5%と約10%に在宅医療が必要な状態での退院であった。

このような現状を踏まえ、今後の方針として、医療の質向上を目指すための主要課題4項目（疾患重症度の定義と社会保障制度の確立、診療ガイドライン作成、長期予後調査と症例登録制度の確立、前方視的研究体制の構築）を定め、議論を重ねてきた。

まず、小児慢性特定疾患治療研究事業に対して日本小児科学会の小児慢性特定疾患委員会が1) 要望状況の確認、2) 対象基準の整理、3) 診断（カテゴリーA, B, C）、4) 診断についての資料を収集していた。「先天性横隔膜ヘルニア」に関する「診断の手引き」と「疾患の概要」を作成し、新規申請を行った（資料1-1、資料1-2）。この申請が委員会に承認されれば、厚生労働省に対して要望書が提出されることとなる。

次に、医療の質向上をめざして診療ガイドライン作成に取り組んだ。診療ガイドライン作成グループは、全国調査で症例経験数の多かった施設から研究協力者を募り、日本医療機能評価機構 EBM 普及推進事業（Minds）の推奨する方法に準拠した方法で取り組んでいる。現在、ガイドライン作成の骨格的調書

である SCOPE の作成を完了し、重要臨床課題の作成と系統的文献検索の構造式である PICO を設定している段階である（資料1-3）。2014年度より、「診療ガイドライン作成の手引」が改訂されることもあり、今後はこれらの改訂内容も吟味した上で、さらに議論を重ね、来年度の制定を目指している。

さらに、先行研究の対象に関する長期予後について、研究協力施設9施設の協力を得て、追跡調査を行った（資料1-4）。結果、横隔膜欠損に起因する合併症である再発のみならず、成長発達、消化器症状や骨系統の合併症を発症する率が高いことが明らかになった。この研究の詳細は他稿に譲るが、特に重症例に関しては、長期にわたる多診療科と連携した上での経過観察や、症例に応じた公的支援策の導入の検討が必要であると思われた。今後も継続的な症例の追跡調査が必要と考えられたため、研究班においては、自主的活動として症例登録精度を検討していく方針となった（資料1-5）。

最後に、前方視的研究について、欧米では既に出生前診断された中等症および重症 CDH に対する胎児治療（TOTAL trial）が開始されている。この trial では、出生後も統一プロトコルを用いた治療がおこなわれているが、この trial に参加するためには施設内条件として、年間経験症例数6例以上の high volume center であり、かつ胎児鏡手術を行っているなどの施設条件がある。本邦において、これらの基準を満たす施設は国立成育医療研究センターのみである。2013年10月から、国立成育医療研究センターでは胎児治療に関する早期安全性試験が開始され、3年間で10例の重症 CDH に対する胎児鏡下バルーン気管閉塞術が行われる予定である。この研

究では、胎児期に診断されたCDHのうち、肝脱出かつ胃の位置が北野分類 Grade3 以上の isolate CDH が対象となる。研究協力施設では、早期安全性試験に協力していく方針とした。

前方視的研究は、RCT のみならず、症例集積試験や前後比較試験といった研究課題がある。比較的取り組みやすい研究としては、サーファクタント投与やシルデナフィル投与、HF0 などの薬剤もしくは治療の有効性を検証する研究が考えられる。これらの研究計画には、新たに委員会グループを設置し、統計家などの専門家を入れて、研究を推進する必要性があると考えられた。

## E . 結論

先行研究で示された本邦の先天性横隔膜ヘルニアにおける診療実態を基に、患者・家族に対してより良い医療を提供するために主要課題 4 項目について議論を行った。疾患多様性を有し、稀少性の高い本症における医療の均てん化は、喫緊の臨床課題であるが、より質の高い医療を提供するための素地は今のところ整備されていないと言える。今後、来年度を目標に「先天性横隔膜ヘルニア診療ガイドライン」作成を継続するとともに、その他の主要課題についても研究を継続することが必要であると考えられる。

## F . 研究発表

### 1. 論文発表

1) Nagata K, Usui N, Kanamori Y, Takahashi S, Hayakawa M, Okuyama H, Inamura N, Fujino Y, Taguchi T. The

current profile and outcome of congenital diaphragmatic hernia: A nationwide survey in Japan. J Pediatr Surg 48: 738-744, 2013

2) Hayakawa M, Ito M, Hattori T, Kanamori Y, Okuyama H, Inamura N, Takahashi S, Nagata K, Taguchi T, Usui N. The effect of hospital volume on the mortality of congenital diaphragmatic herina in Japan. Pediatr Int 55(2): 190-196, 2013

3) Takahashi S, Sago H, Kanamori Y, Hayakawa M, Okuyama H, Inamura N, Fujino Y, Usui N, Taguchi T. Prognostic Factors of Congenital Diaphragmatic Hernia Accompanied by Cardiovascular Malformation. Pediatr Int 55(4): 492-497, 2013

4) Usui N, Nagata K, Hayakawa M, Okuyama H, Kanamori Y, Takahashi S, Inamura N, Taguchi T. Pneumothoraces as a fatal complication of congenital diaphragmatic hernia in the era of gentle ventilation. Eur J Pediatr Surg 24(1): 31-38, 2014

5) Usui N, Okuyama H, Kanamori Y, Nagata K, Hayakawa M, Inamura N, Takahashi S, Taguchi T. The lung to thorax transverse area ratio has a linear correlation with the observed to expected lung area to head circumference ratio in fetuses with



- congenital diaphragmatic hernias. J Pediatr Surg In Press, 2014
- 6) Shiono N, Inamura N, Takahashi S, Nagata K, Fujino F, Hayakawa M, Usui N, Okuyama H, Kanamori Y, Taguchi T, Minakami H. The outcome of patients with congenital diaphragmatic hernia and having indications for a Fontan operation: Results of a national survey in Japan. Pediatr Int In press, 2014
- 7) Kohashi K, Nakatsura T, Kinoshita Y, Yamamoto H, Yamada Y, Tajiri T, Taguchi T, Iwamoto Y, Oda Y. Glypican 3 expression in tumors with loss of SMARCB1/INI1 protein expression. Hum Pathol 44(4):526-533, 2013
- 8) Teshiba R, Tajiri T, Sumitomo K, Masumoto K, Taguchi T, Yamamoto K. Identification of a KEAP1 Germline Mutation in a Family with Multinodular Goitre PLOS ONE 8(5) : 1-8, 2013
- 9) Yoneda A, Usui N, Taguchi T, Kitano Y, Sago H, Kanamori Y, Nakamura T, Nosaka S, Oba MS. Impact of the histological type on the prognosis of patients with prenatally diagnosed sacrococcygeal teratomas: the results of a nationwide Japanese survey. Pediatr Surg Int 29(11) : 1119-1125, 2013
- 10) Watanabe Y, Kanamori Y, Uchida K, Taguchi T. Isolated hypoganglionosis: results of a nationwide survey in Japan. Pediatr Surg Int 29(11) : 1127-1130, 2013
- 11) J M Rumbajan, Maeda T, Souzaki R, Mitsui K, Higashimoto K, Nakabayashi K, Yatsuki H, Nishioka K, Harada R, Aoki S, Kohashi K, Oda Y, Hata K, Saji T, Taguchi T, Tajiri T, Soejima H, Joh K Comprehensive analyses of imprinted differentially methylated regions reveal epigenetic and genetic characteristics in hepatoblastoma BMC Cancer In press, 2013
- 12) 宗崎良太、木下義晶、臼井規朗、左合治彦、左勝則、米田光宏、中村知夫、野坂俊介、金森豊、斉藤真梨、北野良博、田口智章。胎児診断された仙尾部奇形腫の胎児治療の適応と予後 小児外科 45(1) : 74-79, 2013
- 13) 木下義晶、手柴理沙、江角元史郎、永田公二、田口智章。当科における腹壁破裂の治療戦略 日本周産期・新生児医学会雑誌 49(1) : 40-42, 2013
- 14) 臼井規朗、早川昌弘、奥山宏臣、金森豊、高橋重裕、稲村昇、藤野裕士、田口智章。新生児横隔膜ヘルニア全国調査からみた治療方針の収束化と施設間差異。日本周産期・新生児医学会雑誌 49(1) : 149-152, 2013
- 15) 田口智章、林田真、松浦俊治、副島雄二。肝移植後の門脈閉塞に対するRex shunt手術。小児外科 45(11): 1253-1258, 2013

16) 田口智章、永田公二、木下義晶。特集 胎児期・新生児期外科治療の進歩. 新生児外科治療 - 日本の現状 - 周産期医学 43(12) : 1509-1517, 2013

17) Ochiai M, Kinjo T, Takahata Y, Iwayama M, Abe T, Ihara K, Ohga S, Fukushima K, Kato K, Taguchi T, Hara T. Survival and Neurodevelopmental Outcome of Preterm Infants Born at 22-24 Weeks of Gestational Age. Neonatology 105 : 79-84, 2014

## 2. 学会発表

1) Nagata K, Taguchi T, et al. The intact discharge predictors and associated risk of mortality and morbidity in neonates with isolated left congenital diaphragmatic hernia - a report from a nationwide survey in Japan-46<sup>th</sup> Pacific Association of Pediatric Surgeons, Hunter Valley, Australia, April 7-11, 2013

2) Usui N, Nagata K, Taguchi T, et al. Pneumothoracies as a fatal complication of a congenital diaphragmatic hernia in the era of gentle ventilation. 14<sup>th</sup> European Pediatric Surgical Association. Leipzig, Germany, June 5-8, 2013

3) Usui N, Taguchi T, et al. Relationship between the L/T ration and the O/E LHR in fetuses with congenital diaphragmatic hernia

CDH Workshop 2013

4) Nagata K, Taguchi T, et al. The current profile and the future perspectives of congenital diaphragmatic hernia - A nationwide survey in Japan. CDH Workshop 2013

## G . 知的財産の出願・登録状況

なし