

厚生労働科学研究費補助金（がん対策推進総合研究事業）
（分担研究報告書）

全国がん登録の利活用に向けた学会研究体制の整備とその試行、臨床データベースに基づく
臨床研究の推進、及び国民への研究情報提供の在り方に関する研究

研究分担者 川井 章・国立がん研究センター中央病院骨軟部腫瘍リハビリテーション科 科長

研究要旨（骨軟部腫瘍臨床データベースの現状と将来）

我が国における唯一の骨軟部腫瘍臨床データベースである全国骨軟部腫瘍登録を本研究班の統一フォーマットに従って分析した。全国骨軟部腫瘍登録は、他の臓器がん登録と同じく学会主導による医師の自主性・献身に依存したシステムであり、その疾患背景、財政的背景などから、現時点では第三者組織への登録・データ分析の委託を行うことは具体化していない。今後、より質が高く、現場の負担も少ない臨床データベースとするため、全国がん登録との効果的な連携を検討してゆきたいと考えている。

A．研究目的

「全国がん登録」を、さまざまな学会が実施している“臓器がん登録”と結び付け、臨床研究、推奨医療の評価・提案を推進することを目的とした本研究において、『骨軟部腫瘍臨床データベース』に関する検討を行った。

B．研究方法

日本整形外科学会ならびに国立がん研究センターが1960年代より行ってきた全国骨腫瘍登録、1985年より開始した全国軟部腫瘍登録は、登録事務局を国立がん研究センター中央病院に置き、日本整形外科学会の資金援助を受けて継続的に実施されている全国臓器がん登録の一つである。2015年は骨腫瘍5,030例、軟部腫瘍7,601が全国から登録されている。研究分担者は2006年より登録事務局を担当し、現在使用されているPCを用いた電子化登録システムを導入、登録の取り纏めを行っている。本研究では、この全国骨軟部腫瘍登録を本研究班の統一フォーマットに従い、分析を行った。（倫理面への配慮）

本研究は、既に匿名化され登録・公表されたデータを用いた研究であり、被検者である骨軟部腫瘍患者に及ぼす影響はないと考えられるが、ヘルシンキ宣言等の精神を尊重し、倫理面への配慮を十分に行って実施する。

C．研究結果

『骨軟部腫瘍臨床データベース』は、本研究ではSub Group 2およびSub Group 3に参加した。

【Sub Group 2】

1．通年登録の実施

全国骨軟部腫瘍登録は、年1回事務局から全国の骨軟部腫瘍診療施設に過去1年間の新規症例の登録依頼を行って情報収集を行う形であり、通年登録は実施していない。現在、WEB化登録システムを作成中であり、WEB化登録システム移行後は通年登録可能となる予定である。

2．登録先組織・データ分析組織

第三者組織への委託は行っていない。現時点で委託は計画していない。希少がんである骨軟部腫瘍を対象とし、経済的にも十分な余裕のない全国骨・軟部腫瘍登録が、登録・データ分析を第三者組織に委託することのメリット・デメリットに関する検討が十分行われていないため。

3．2014年以降の論文発表・ガイドラインへの活用実績

2014年以後、全国骨・軟部腫瘍登録を用いた研究は、10篇の英語論文がPeer-review Journalに掲載されている（表1）。研究成果は“デスモイド診療ガイドライン(2019)”および“軟部腫瘍診療ガイドライン第3版(2020)”に引用されている。

表 1 . 2014 年以降の論文発表

| No. | Author | Title | Journal | Year |
|-----|---------------------|--|---|------|
| 1 | Opura K, et al. | Statistics of bone sarcoma in Japan: Report from the Bone and Soft Tissue Tumor Registry in Japan. | J Orthop Sci 2017 Jan; 22(1):151-163 | 2017 |
| 2 | Opura K, et al. | Statistics of soft-tissue sarcoma in Japan: Report from the Bone and Soft Tissue Tumor Registry in Japan. | J Orthop Sci 2017 Jul; 22(4):752-761 | 2017 |
| 3 | Nagano A, et al. | Primary bone sarcomas in patients over 40 years of age: A retrospective study using data from the Bone Tumor Registry of Japan. | Jpn J Clin Oncol 2017; 47:1055-1059 | 2017 |
| 4 | Nakamura T, et al. | Analysis of the patients with soft tissue sarcoma who received additional excision after unplanned excision: report from the Bone and Soft Tissue Tumor Registry in Japan. | Jpn J Clin Oncol 2018 Oct 14;119:900-905. | 2018 |
| 5 | Okamoto M, et al. | The status quo of treatment and clinical outcomes for patients over 80 years of age with high-grade soft tissue sarcoma: report from the soft tissue tumor registry in Japan. | BMC Musculoskelet Disord 2018 Aug 18; 19:12297 | 2018 |
| 6 | Fukushima T, et al. | Descriptive epidemiology and outcomes of bone sarcomas in adolescent and young adult patients in Japan. | BMC Cancer 2018 May 31; 18(1):614 | 2018 |
| 7 | Tsuda Y, et al. | The outcomes and prognostic factors in patients with osteosarcoma according to age: a Japanese nationwide study with focusing on the age differences. | Cancer Med 2018 Apr;7(4):1560-1571 | 2018 |
| 8 | Alba H, et al. | Clinical outcomes of radio-hyperthermia-chemotherapy for soft tissue sarcoma compared to a soft tissue sarcoma registry in Japan: a retrospective matched pair cohort study. | Int J Clin Oncol 2019 July 22 (Epub ahead of print) | 2019 |
| 9 | Nishida Y, et al. | Clinical features and treatment outcome of desmoid-type fibromatosis: based on a bone and soft tissue tumor registry in Japan. | BMC Cancer 2019 Jul 4; 19(1):657. | 2019 |
| 10 | Sekimoto M, et al. | Development of nomograms for prognostication of patients with primary soft tissue sarcomas of the trunk and extremity: report from the Bone and Soft Tissue Tumor Registry in Japan. | | |

4 . 公表

全国骨軟部腫瘍登録の結果は、全国骨腫瘍登録一覧表および全国軟部腫瘍登録一覧表として取り纏め、全国の登録施設、大学医局、国会図書館などに寄贈し公表している。

5 . 学術団体内での規定

全国骨軟部腫瘍登録は、日本整形外科学会骨軟部腫瘍委員会の管轄する事業として行われている。明文化された規定はない。

【Sub Group 3】

1 . 外科治療以外の症例登録

薬物治療あるいは放射線治療のみが行われた症例も登録されている。

2 . 登録者

多くの施設では臨床医（整形外科医）が登録を行っている。但し医師以外の代行者が登録作業を行うことを禁止はしていない。

3 . 登録悉皆性

可能な限り、全症例の登録をお願いしている。しかし、あくまでも各診療施設・臨床医へのお願いであり、強制力はない。

4 . インセンティブ

登録データを取り纏めた全国骨腫瘍登録一覧表、全国軟部腫瘍登録一覧表の提供、全国骨軟部腫瘍登録のデータを用いた研究提案の権利ならびにデータの提供などがインセンティブとなっている。

5 . 継続期間

全国骨腫瘍登録は1960年代から50年間以上継続実施されている。現在の電子登録システムによる登録は2006年からの14年間。

6 . 論文発表

2014年以後、全国骨・軟部腫瘍登録を用いた研究は、10篇の英語論文が

Peer-review Journal に掲載されている(表1)。

7 . 公表

全国骨軟部腫瘍登録の結果は、全国骨腫瘍登録一覧表および全国軟部腫瘍登録一覧表として取り纏め、全国の登録施設、大学医局、国会図書館などに寄贈し公表している。ホームページ等での公表はされていない。

8 . ガイドライン等の活用実績

登録を用いた研究成果は“デスマイド診療ガイドライン(2019)”“軟部腫瘍診療ガイドライン第3版(2020)”に引用されている。

9 . 前向き研究としての治療法の比較

なし

10 . 9の研究による論文発表

なし

11 . 円滑な登録のために実施していること

登録事務局によるサポート

D . 考察

現在の全国骨軟部腫瘍登録は、希少がんである骨軟部腫瘍においてエビデンスを構築してゆくためには、多施設の協力が不可欠であるという“知恵”と“協力”によって成り立っている。まさしく診療施設と事務局の医師の無償の負担に依存したシステムであり、その円滑な登録実施・質の向上のためには、これらの負担を軽減することが最も重要かつ効果的と考えられる。

全国骨軟部腫瘍登録においては、その疾患背景、財政的背景などから、現時点では未だ第三者組織への登録・データ分析の委託を行うことは具体化していない。今後、より質が高く、現場の負担も少ない臨床データベースとしてゆくため、全国がん登録との効果的な連携を検討してゆきたいと考えている。

E . 結論

『骨軟部腫瘍臨床データベース』の現状と課題について研究を行った。

F . 健康危険情報

特になし

G . 研究発表

1. 論文発表

Asano N, Matsuzaki J, Ichikawa M, Kawauchi J, Takizawa S, Aoki Y, Sakamoto H, Yoshida A, Kobayashi E, Tanzawa Y, Nakayama R, Morioka H, Matsumoto M, Nakamura M, Kondo T, Kato K, Tsuchiya N, Kawai A, Ochiya T. A serum microRNA classifier for the diagnosis of sarcomas of various histological subtypes. Nat Commun 2019; 10(1):1299.

Nakagawa M, Nakatani F, Matsunaga H, Seki T, Endo M, Ogawara Y, Machida Y, Katsumoto T, Yamagata K, Hattori A, Fujita S, Aikawa Y, Ishikawa T, Soga T, Kawai A, Chuman H, Yokoyama N, Fukushima S, Yahiro K, Kimura A, Shimada E, Hirose T, Fujiwara T, Setsu N, Matsumoto Y, Iwamoto Y, Nakashima Y, Kitabayashi I. Selective inhibition of mutant IDH1 by DS-1001b ameliorates aberrant histone modifications and impairs tumor activity in chondrosarcoma. Oncogene 2019; 38(42):6835-6849.

Kobayashi E, Naito Y, Asano N, Maejima A, Endo M, Takahashi S, Megumi Y, Kawai A. Interim results of a real-world observational study of eribulin in soft tissue sarcoma including rare subtypes. Jpn J Clin Oncol 2019; 49(10):938-946.

Nishida Y, Kawai A, Toguchida J, Ogose A, Ae K, Kunisada T, Matsumoto Y, Matsunobu T, Takahashi K, Nishida K, Ozaki T. Clinical features and treatment outcome of desmoid-type fibromatosis: based on a bone and soft tissue tumor registry in Japan. Int J Clin Oncol 2019; 24(11):1498-1505.

Sekimizu M, Ogura K, Yasunaga H, Matsui H, Tanaka S, Inagaki K, Kawai A. Development of nomograms for prognostication of patients with primary soft tissue sarcomas of the trunk and extremity: report from the Bone and Soft Tissue Tumor Registry in Japan. BMC Cancer 2019; 19(1):657.

2. 学会発表

なし

H . 知的財産権の出願・登録状況

1. 特許取得 なし

2. 実用新案登録 なし

3. その他 なし