

厚生労働科学研究費補助金(難治性疾患政策研究事業)

難治性小児消化器疾患の医療水準向上  
および移行期・成人期の QOL 向上に関する研究  
( 20FC1042 )

令和 2 年度 総括・分担研究報告書

研究代表者 田口 智章

令和 3(2021) 年 3 月

## 目 次

・ 総括研究報告	1
難治性小児消化器疾患の医療水準向上 および移行期・成人期の QOL 向上に関する研究 田口 智章	2
・ 分担研究報告	19
1 . ヒルシュスプルング病類縁疾患 松藤 凡、武藤 充、中島 淳、金森 豊、吉丸 耕一郎	21
2 . ヒルシュスプルング病 家入 里志、小幡 聡	24
3 . 乳幼児巨大肝血管腫 黒田 達夫	34
4 . 非特異性多発性小腸潰瘍症 内田 恵一、松本 主之	37
5 . 総排泄腔遺残症・外反症・MRKH 症候群 加藤 聖子、木下 義晶、江頭 活子、浅沼 宏	41
6 . 難治性下痢症 虫明 聡太郎、新井 勝大、水落 建輝、虻川 大樹、工藤 孝広 (資料 1) 難治性下痢症診断アルゴリズム (資料 2) 『難治性下痢症診断アルゴリズムとその解説』 ver. 5 (資料 3) 難治性下痢症診断アルゴリズム簡易版 (資料 4) 難治性下痢症診断アルゴリズムの開設 (簡易版)	45
7 . 仙尾部奇形腫 田尻 達郎、臼井 規朗 (資料 1) 乳児仙尾部奇形腫の長期予後に関する全国アンケート調査 (資料 2) 乳児仙尾部奇形腫患者の長期予後に関する全国アンケート調査 (含む EUPSA 仙尾部奇形腫再発調査) 二次調査票 (資料 3) DATE TRANSFER AGREEMENT	95

(資料4)論文：その他の胎児疾患と胎児治療	胎児疾患	仙尾部奇形腫
(資料5)論文：仙尾部奇形腫		
8. 短腸症		118
奥山 宏臣、仁尾 正記、松浦 俊治		
9. 腹部リンパ管疾患		123
藤野 明浩、木下 義晶、野坂 俊介		
(資料1) Japanese Clinical Practice Guidelines for Vascular Anomalies 2017		
(資料2) 腹部リンパ管腫(リンパ管奇形)の臨床像について 全国調査の 結果から		
10. 胃食道逆流症		180
八木 實		
11. 食道閉鎖症		183
越永 従道、藤代 準		
12. 高位・中間位鎖肛		185
淵本 康史、廣瀬 龍一郎		
13. ASEAN 諸国への啓発と疫学研究		187
猪股 裕紀洋、松浦 俊治、吉岡 秀人		
14. ナショナルセンター(成育)との連携		189
小林 徹、金森 豊、新井 勝大、掛江 直子、窪田 満、松本 公一、 義岡 孝子		
15. 新規治療適応疾患の抽出		191
大賀 正一、吉丸 耕一郎		
16. 小児歯科・口腔医学からの難病対策		193
岡 暁子		
. 研究成果の刊行に関する一覧表		195

・ 研究成果の刊行物・別刷	209
・ 資料	255
1. 班会議	257
[全体]	
厚労科研 第1回 班会議 議事録	
厚労科研 第2回 班会議 議事録	
AMED 第1回 班会議 議事録	
[ヒルシュスプルング病類縁疾患]	
H類縁レジストリー運営検討会議	
2. 研究班名簿	275

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患政策研究事業）

総括研究報告書

難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究

（20FC1042）

研究代表者 田口 智章 福岡医療短期大学 学長

## 研究要旨

小児期に発症し、その経過が移行期・成人期に及ぶ難治性消化管疾患が存在する。いずれの疾患についても病気の理解や診療体制の構築、診断・治療などあらゆる局面において多くの問題が存在する。したがって、これらの疾患に適切な医療政策を施行していただくためには、研究班を中心とした小児期から成人期を含む実態調査や疾患概要・診断基準・重症度分類・診療ガイドラインの整備に加えて、全国規模での診療提供体制の構築が急務である。

我々は先行する研究班（H23、H24-H25、H26-28、H29-R1厚労科研）において、全12疾患・カテゴリー（H類縁、H病、乳幼児巨大血管腫、難治性下痢症、非特異性多発性小腸潰瘍症、総排泄腔遺残・総排泄腔外反症・MRKH症候群、仙尾部奇形腫、短腸症、腹部リンパ管腫、胃食道逆流症、食道閉鎖症、高位・中間位鎖肛）について、調査の試行、診断基準・重症度分類・ガイドラインの整備とともに、学会や国民・患者への疾患の普及・啓発を積極的に促し、診療提供体制の構築に向けた種々の活動を行った。

上記経緯を踏襲し、移行期・成人期も含めた調査の遂行、診断基準・重症度分類・ガイドラインの整備とともに、関連する学会や国民・患者への啓発をすすめ、診療提供体制の構築・強化、さらにはこれまで十分に整備できなかった症例登録制度や長期フォローアップ体制の構築、移行期および成人期医療の整備を行うことを目標として、本研究班が発足した。

初年度である令和2年度は、ガイドライン策定のためのSRや推奨文の作成、ガイドライン改定に向けたSR、診断や分類に関する新たな提言と学会承認取得、取得した長期フォローアップデータの詳細な解析、といった疾患の置かれた状況に応じた着実な進捗を果たすことができた。

また、非特異性多発性小腸潰瘍症では小児と成人とで同一の新たな診断基準を策定し一元的なデータリポジトリを作成して症例を蓄積するとともに、移行期医療に関する手引き等の作成を行っていること、総排泄腔遺残・総排泄腔外反症・MRKH症候群では患者会を主体とした意見交換を踏まえて、小児・成人を問わずあらゆる年代の患者に対し、複数の診療科・複数の職種による包括的な医療提供方法を考案していること、など小児と成人を一体的に研究・診療できる体制づくりに向けたあらたな取り組みを開始した。

より良い研究を遂行するための体制強化を目的として、国立成育医療研究センターの有する臨床・研究・政策機能との連携体制強化についての議論を開始したこと、小児難治性消化管疾患に対する歯科医療および口腔衛生の問題抽出についてのプロジェクトを企画したこと、などこれまでとは異なる試みを行った。

分担研究者

田口 智貴	福岡医療短期大学		学長
松藤 凡	聖路加国際大学	聖路加国際病院 小児外科	統括副院長
武藤 亮	鹿児島大学	学術研究院歯学部医学系小児外科学分野	講師
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	診療部長(主任)
百丸 耕一朗	九州大学	大学院医学研究院小児外科学分野	講師
家入 里志	鹿児島大学	学術研究院歯学部医学系小児外科学分野	教授
小橋 駿	九州大学	大学病院 小児外科	助教
黒田 達夫	慶應義塾大学	医学部小児外科	教授
内田 恵一	三重大学医学部附属病院	医学部附属病院	准教授
加藤 聖子	九州大学	大学院医学研究院 生殖病態生理学分野	教授
木下 義昌	新潟大学	小児外科	教授
江頭 活子	九州大学	大学病院 産婦人科	臨床講師
浅沼 宏	慶應義塾大学	医学部	准教授
吉明 聡太郎	近畿大学医学部奈良病院	小児科	教授
新井 勝大	国立研究開発法人 国立成育医療研究センター	器官病態系内科部 消化器科	診療部長
水森 達雄	久留米大学	小児科	講師
舩川 大樹	宮城県立こども病院	総合診療科・消化器科	副院長兼科長
工藤 孝広	順天堂大学	小児科	准教授
田尻 達郎	京都府立医科大学	小児外科	教授
臼井 規明	大阪母子医療センター	小児外科	診療局長
奥山 宏臣	大阪大学	大学院医学系研究科 小児成育外科	教授
仁尾 正和	東北大学	大学院医学系研究科	教授
松浦 俊治	九州大学	大学病院 総合産婦科母子医療センター	准教授
藤野 明浩	国立研究開発法人 国立成育医療研究センター	臓器・運動器病態外科部外科	診療部長
野坂 俊介	国立研究開発法人 国立成育医療研究センター	放射線診療部	統括部長
八木 亮	久留米大学	外科学講座小児外科部門	主任教授、久留米大学病院長
越永 從道	日本大学	医学部 小児外科	教授
藤代 華	東京大学	医学部附属病院	教授
瀧本 廣史	慶應義塾大学	医学部小児外科	特任教授
廣瀬 龍一郎	福岡大学病院	呼吸器・乳腺内分泌・小児外科	准教授
風花 和子	埼玉医科大学病院	大学病院	教授
掛江 直子	国立成育医療研究センター	生命倫理研究室・小児慢性特定疾病情報室	室長・スーパーバイザー
窪田 満	国立成育医療研究センター	総合診療部	統括部長
森 正樹	九州大学	大学院医学研究院 消化器・総合外科	教授
桐野 浩輔	九州大学	大学病院	助教
松本 公一	国立研究開発法人国立成育医療研究センター	小児がんセンター	センター長
盛一 享徳	国立研究開発法人 国立成育医療研究センター	研究所 小児慢性特定疾病情報室	室長
北岡 有喜	独立行政法人国立病院機構京都医療センター	医療情報部 兼 臨床研究センター	部長 兼 室長
小林 徹	国立研究開発法人国立成育医療研究センター	臨床研究センター データサイエンス部門	部門長
小田 義直	九州大学	大学院医学研究院 形態機能病理学	教授
藤岡 幸子	国立成育医療研究センター	病理診断部	統括部長
増本 幸二	筑波大学	医学医療系	教授
米倉 竹夫	近畿大学医学部奈良病院	小児外科	教授
上野 泰久	大阪大学医学部附属病院	移植医療部	特任准教授
大賀 正一	九州大学	大学院医学研究院 生殖発達医学分野	教授
猪股 裕紀洋	独立行政法人労働者健康安全機構 熊本労災病院	病院	院長
岡 暁子	学校法人福岡学園 福岡歯科大学	成長発達歯学講座 成育小児歯科学分野	准教授
玉井 浩	大阪医科大学	小児科	名誉教授
中村 友彦	長野県立こども病院	新生児科	病院長

## A．研究目的

小児期から移行期・成人期に至る希少難治性消化器疾患では、治療に難渋して長期的な経過をたどる症例が多く、患者のQOLが長期にわたり著しく脅かされている。これらの疾患に対し適切な医療政策を施行していくためには、実態の把握と診断基準や診療ガイドラインの整備、長期フォローアップ体制や小児期・移行期・成人期を包括した診療体制の構築などが急務となっている。

先行研究班（H23, H24-H25, H26-28, H29-31厚労科研）による継続的な活動により、複数の診療ガイドラインが完成し（ヒルシウスブルング病類縁疾患、腹部リンパ管腫、仙尾部奇形腫）、ヒルシウスブルング病類縁疾患の重症3疾患、ヒルシウスブルング病の重症型、乳幼児肝巨大血管腫、非特異性多発性小腸潰瘍が指定難病に、仙尾部奇形腫が小慢に指定された。以後、対象疾患を増やして当該分野における難治性疾患を網羅的に扱い、疾患毎の取り組みと横断的な議論を重ねてきた。

本研究班では上記経緯を踏襲し、移行期・成人期も含めた調査、診断基準・重症度分類・ガイドラインの整備とともに、関連する学会や国民・患者への啓発をすすめる、診療提供体制の構築・強化をはかる。同時に、これまで十分に整備できなかった学会や家族会などと連携した登録制度や長期フォローアップ体制の構築、移行期および成人期医療の整備にも特に注力する。

各年度の目標として、R2年度に情報収集や症例の分析や診断基準・重症度分類・ガイドラインの整備をすすめるとともに、疾患登録とコンサルテーションシステムおよび長期フォローアップ体制構築について重点的な議論を行い、モデルとなる疾患を選びデザインを考案する。R3年にはモデル疾患の体制構築を実際に開始する。R4年には疾患毎に各種体制の考案と実装を行う。期間を通じて学会や患者会と連携した啓発活動と情報提供を積極的に行う。また、本研究班で得られた情報や仕組みから新しい臨床研究を創出する。

小児期から移行期・成人期に至る難治性消化器疾患を系統的に網羅しており横断的な意見交換が可能である点、小児科・小児外科・産婦人科・成人外科の4領域から班員を構成することで広い啓発活動や学会承認を容易にする点、移行期・成人期まで包含する登録体制やフォローアップ体制を整備する点は、極めて独創的であると考え。『小児と成人を一体的に研究・診療できる体制づくり』を目指す。

## B．研究方法

難治性消化器疾患12疾患について疾患グループを作る。グループ毎に必要な課題解決に向けて調査や情報収集を行い、症例の分析や診断基準・重症度分類・ガイドラインの整備をすすめる。また、疾患横断的な9つのグループが情報提供や検証を行い、臨床研究の質を向上させる。以下、具体的に体制と計画を提示する。

疾患グループ（下線はリーダー）：

1. ヒルシウスブルング病類縁疾患（指定難病） 松藤、中島、武藤、金森、吉丸  
慢性特発性偽性腸閉塞症 CIIP  
巨大膀胱短結腸腸管蠕動不全症 MMIHS  
腸管神経節細胞僅少症 Hypoganglionosis
2. ヒルシウスブルング病（指定難病） 家入、小幡

3. 乳幼児肝巨大血管腫（指定難病） 黒田
4. 非特異性多発性小腸潰瘍症（指定難病） 内田
5. 総排泄腔遺残症・外反症・MRKH 症候群（指定難病） 加藤、木下、江頭、浅沼
6. 難治性下痢症（指定難病、小慢） 虫明、新井、水落、虻川、工藤

指定難病：無 リポ蛋白血症、多発性内分泌腺腫症(MEN)、

Schwachman-Diamond 症候群、潰瘍性大腸炎、クローン病

小慢指定：微絨毛封入体症、腸リンパ管拡張症、早期発症型炎症性腸疾患、

自己免疫性腸炎、乳糖不耐症、ショ糖イソ麦芽糖分解酵素欠損症、

先天性グルコース・ガラクトース吸収不良症、エンテロキナーゼ欠損症、

アミラーゼ欠損症、ミトコンドリア呼吸鎖異常症腸症

未指定の難治疾患：特発性難治性下痢症

7. 仙尾部奇形腫（小慢） 田尻、白井
8. 短腸症（小慢） 奥山、仁尾、松浦
9. 腹部リンパ管腫（症）（小慢） 藤野、木下、野坂
10. 胃食道逆流症 八木、川原
11. 食道閉鎖症 越永、藤代
12. 高位・中間位鎖肛 淵本、廣瀬

疾患横断的グループ（下線はリーダー）：

1. 小児・成人を一体的に研究・診療できる体制づくり 尾花、掛江、窪田、中島、森
2. 患者登録・コンサルトシステム・長期フォローアップ体制の構築、PHR との連携  
桐野、木下、松本、盛一、北岡
3. ナショナルセンター(成育)との連携 小林、掛江、盛一、窪田、義岡、松本、金森、新井
4. 中央病理診断 小田、義岡
5. 臨床研究支援・立ち上げ 小林、桐野
6. 倫理的支援 掛江
7. 小腸リハビリ・栄養・小腸移植 奥山、増本、米倉、上野、松浦
8. 新規治療適応疾患の抽出 大賀、吉丸
9. ASEAN 諸国への啓発と疫学研究 猪股、松浦、吉岡
10. 小児歯科・口腔医学からの難病対策（岡）

調査の実施・情報の収集と結果の解析：

情報の収集が必要な場合はR2年度に調査項目の設定および倫理審査委員会の通過やすみやかな情報収集を行う。既存の情報についてもR2年度に結果の解析を行い、新たな課題設定を行う。疾患毎に、疾患の理解や分類、疾患概念の確立、診断基準や重症度分類の作成、難病や小慢指定、ガイドライン作成や改定といった目標設定を明確にし、R3-4年度は疾患毎に上記の設定目標に沿った形での作業を進めていく。

### 疾患概要・診断基準・重症度の整備、診療ガイドライン作成および改訂準備：

各疾患における設定目標に準じて、疾患概要・診断基準・重症度分類等を整備し関連学会の承認を得る。現在既に診療ガイドライン作成または改定に取り組んでいる疾患については、R2-3年度にMindsの指導を受けガイドライン作成や改定を進め、R4年度に完成する。

### 疾患登録とコンサルトシステム・長期フォローアップ体制の構築：

モデルとなる疾患を選出し、十分な議論のもとで疾患登録および長期フォローアップのための戦略を練る。小児がん領域ですでに実装されつつあるフォローアップ体制（PHRや自己管理アプリ）を参考にして体制構築を試み、続いて比較的同様の戦略が適応可能な疾患についても体制構築を実装していく。R2年度はモデル疾患の選出と戦略考案、R3年度はモデル疾患での実装と問題点の抽出、R4年に適応可能なその他の疾患での実装へと移行する。

### 臨床研究支援・立ち上げ：

新規治療の適応疾患を横断的に抽出すること、国内ではデザイン困難な観察研究について症例数の多いASEAN諸国で行うことを検討すること、本研究班で得られた情報や仕組みを横断的に複数の視野から検討することにより、本研究領域における新たな臨床研究を提案する。

#### （倫理面への配慮）

本研究は申請者または各グループ代表の施設の倫理委員会の承認の元に実施する。

情報収集は患者番号で行い患者の特定ができないようにし、患者や家族の個人情報の保護に関して十分な配慮を払う。

また、患者やその家族のプライバシーの保護に対しては十分な配慮を払い、当該医療機関が遵守すべき個人情報保護法および臨床研究に関する倫理指針に従う。

なお本研究は後方視的観察研究であり、介入的臨床試験には該当しない。

## C．研究結果

### 疾患グループ

#### 1. ヒルシュスプルング病類縁疾患

##### 【指定難病および小慢の状況】

指定難病99：慢性特発性偽性腸閉塞症、指定難病100：巨大膀胱短小結腸腸管蠕動不全症、指定難101：腸管神経節細胞僅少症

小児慢性特定疾病：12. 慢性消化器疾患：14. ヒルシュスプルング(Hirschsprung)病及び類縁疾患（38．慢性特発性偽性腸閉塞症、39．巨大膀胱短小結腸腸管蠕動不全症、40．腸管神経節細胞僅少症）

ヒルシュスプルング病類縁疾患（H類縁）は、小児期から移行期・成人期にまたがる希少難治性消化管疾患である。本疾患群のうち重症な3疾患は難病に指定され、重篤な消化管蠕動不全により長期わたって治療が必要である。しかし、原因不明で根治的な治療法は確立していない。

今年度は、AMED研究班と連携して、今後の情報収集体制、フォローアップ体制について議論を行った。

臨床情報に紐づく病理組織標本と中央病理診断体制、遺伝子診断の体制とゲノムレポジトリの確立を目指し、そのための情報基盤整備をすすめていくこととなった。

上記の体制構築をすすめるとともに、重症度に相関するあらたな客観的評価尺度の開発を行うこと、長期フォローアップ症例に関する問題点の抽出をすすめていくこととした。

また、シネMRI（動画MRI）を用いた腸管蠕動の評価に関する後ろ向き研究を成人領域で行い、診断や治療に影響し得る特徴的な所見の有無や程度について検討した。

## 2. ヒルシュスプルング病

### 【指定難病および小慢の状況】

指定難病291：ヒルシュスプルング病(全結腸型又は小腸型)

小児慢性特定疾病：12. 慢性消化器疾患：14. ヒルシュスプルング(Hirschsprung)病及び類縁疾患（37. ヒルシュスプルング(Hirschsprung)病）

ヒルシュスプルング病（H病）は肛門から連続性に腸管の神経節細胞が欠如した先天性疾患で、新生児期から小児期まで急性の腸閉塞や重症便秘として発症する。H病の診断ならびに治療方法について一定のコンセンサスは得られているものの、いまだ各施設において統一されていないというのが現状である。

今年度は全国調査から得られた情報より、本邦におけるエビデンスを整理するとともに、昨年度までに策定したCQ案やSCOPE案をもとにシステムティックレビューを行い、ガイドライン推奨文の案文作成を行った。

## 3. 乳幼児巨大肝血管腫

### 【指定難病および小慢の状況】

指定難病295：乳幼児肝巨大血管腫

小児慢性特定疾病：12. 慢性消化器疾患：15. 肝巨大血管腫（42. 肝巨大血管腫（乳幼児難治性肝血管腫））

肝血管腫は、無症状で偶然に診断されるものも含まれば、小児で最も頻度の高い肝の腫瘍性病変とされる。その中でも特にびまん性に病変のある症例では重篤な病態を呈することが多く、肝血管腫の中でも臨床的に独立した一群であることが提唱され、この疾患概念は徐々に支持を拡げてきた。

今年度は、ガイドライン改定に向けた新たなCQをもとに、システムティックレビューを昨年度より継続した。近年あらたな治療法として着目されるプロプラノロール、mTOR阻害剤の有用性についてのレビューを追加で行ったが、肝血管腫に対する上記新規薬剤の有用性について、エビデンスレベルの高い報告は同定できなかった。

今年度は、隔年で開催しているリンパ管腫研究班との合同シンポジウムの開催が新型コロナウイルス感染拡大により中止を余儀なくされた。Web会議システム等によるあらたな開催方法の検討を行った

#### 4. 非特異性多発性小腸潰瘍症

##### 【指定難病および小慢の状況】

指定難病290：非特異性多発性小腸潰瘍症

小児慢性特定疾病：12. 慢性消化器疾患：5. 非特異性多発性小腸潰瘍症（18. 非特異性多発性小腸潰瘍症）

非特異性多発性小腸潰瘍症は、回腸中下部に浅い多発性の潰瘍と潰瘍瘢痕の混在した病変を認め、潜在性あるいは顕性出血による高度な貧血を特徴とする小腸潰瘍症である。成人領域・小児領域いずれにおいても非常に稀少かつ難治性の疾患である。

本年度はあらたな診断基準案の作成を行った。本疾患の原因である *SLCO2A1* 遺伝子検査を、かずさDNA研究所で行う見通しとなり（保険適応外）、遺伝子診断を盛り込んだあらたな診断基準案改定案を作成する予定である。

加えて、成人と小児で同一の診断基準とする見込みであること、成人研究班と共同でデータベースを拡充・維持していくこと、トランジション体制の確立に向けた成人研究班との密な連携と本研究班での3つの取り組み、診断基準案の改定、データベースの作成と充実、移行期医療に関する手引き等の作成を行っていること、などトランジション体制確立に向けたアクションを開始した。

#### 5. 難治性下痢症

##### 【指定難病および小慢の状況】

指定難病97：潰瘍性大腸炎、指定難病96：クローン病、指定難病264：無リポ蛋白血症、指定難病65：原発性免疫不全症候群（Scwachman-Diamond症候群）

小児慢性特定疾病：12. 慢性消化器疾患：

1. 難治性下痢症（1. 乳糖不耐症、2. ショ糖イソ麦芽糖分解酵素欠損症、3. 先天性グルコース・ガラクトース吸収不良症、4. エンテロキナーゼ欠損症、5. アミラーゼ欠損症、6. リパーゼ欠損症、7. 微絨毛封入体病、8. 腸リンパ管拡張症）、
4. 炎症性腸疾患（自己免疫性腸症を含む。）（14. 潰瘍性大腸炎、15. クローン(Crohn)病、16. 早期発症型炎症性腸疾患）、17. 自己免疫性腸症（IPEX症候群を含む。））

小児慢性特定疾病の疾病分類「12. 慢性消化器疾患」の大分類「1. 難治性下痢症」を対象としており、それには8項目の告示疾病が含まれている。しれらび疾病の中に一次性、成因不明でかつ難治で成人期に移行しうる希少疾患、すなわち“特発性難治性下痢症”があること、そしてこれを定義して診断方法を確立し、将来難病指定すべきであることが、先行する班研究により明らかとなった。

本年度の研究では、令和元年度に作成した『難治性下痢症の診断アルゴリズムとその解説』、およびその『簡易版』を出版・公開するために日本小児栄養消化器肝臓学会ガイドライン委員会の審査プロセスを経て内容の修正加筆を行い、改訂版を作成した。

#### 6. 総排泄腔遺残・総排泄腔外反症・MRKH症候群

### 【指定難病および小慢の状況】

指定難病293：総排泄腔遺残、指定難病292：総排泄腔外反症

小児慢性特定疾病：12. 慢性消化器疾患：16. 総排泄腔異常症（43. 総排泄腔遺残、44. 総排泄腔外反症）

総排泄腔遺残・総排泄腔外反症・MRKH症候群は、主に女児を主体とした消化管・泌尿器・生殖器にまたがる形態異常である。総排泄腔遺残・総排泄腔外反症については、先行する研究において全国調査で概要が把握され小児慢性特定疾患・難病指定を達成することができた。またMRKH症候群も含めてCQを設定しガイドラインの策定がなされた。先行研究により全体像は把握されたものの、本疾患群はバリエーションがあるために多診療科、多職種が長期に関わる包括的オーダーメイド型診療が必要である。

今年度は情報を集約するための新規レジストリー構築デザインの検討を継続し、直腸肛門研究会のレジストリーとの連携を継続しつつ、疾患特異的な情報収集を徹底するための方策について議論を重ねた。また、小児外科系、泌尿器科系、産婦人科系の学会や研究会で意見交換を積極的に行い、有意義な情報共有ができた。加えて、今年度は患者交流会や市民公開講座が積極的に行われた。全国的な患者のネットワークや情報の共有網の整備が進んでいるものと思われる。このような中から患者の声を抽出し、小児・成人を問わずあらゆる年代の患者に対し、複数の診療科・複数の職種による包括的な医療提供方法を考案していく方針とした。

## 7. 仙尾部奇形腫

### 【指定難病および小慢の状況】

小児慢性特定疾病：11. 神経・筋疾患：2. 仙尾部奇形腫（4. 仙尾部奇形腫）

仙尾部奇形腫とは、仙骨の先端より発生する奇形腫であり、時に巨大となり、多量出血、高拍出性心不全やDICの原因となり、致命的となることがある。また急性期を脱し、腫瘍切除に至っても、長期的にみて再発、悪性転化や排便障害・排尿障害・下肢の運動障害などが発症する症例もある。しかし、本疾患ではその希少性から、これまで明確な診療指針がなく、適正な医療政策のために、適切な重症度分類や診断治療ガイドラインの確立が急務であった。先行研究において仙尾部奇形腫診療ガイドライン作成グループが結成され、平成26年から28年の間に「重症度分類に基づく診療ガイドラインの確立と情報公開」を行った。

本年度は、国内日本小児外科学会認定施設・教育関連施設(A・B)の本症症例に対するアンケート調査を準備した。本アンケートは国内の調査であると同時に、長期予後に関する国際共同研究の枠組みの中で行われるものである。本年度は調査用紙の設定、国際共同研究の事務局とのData transfer agreementを取り交わし、日本小児外科学会に全国規模の学術アンケート調査の承認を経て、研究代表者施設である京都府立医科大学の医学研究倫理審査委員会への申請を行い、承認を得た。

現在、一次調査票を国内日本小児外科学会認定施設・教育関連施設(A・B)計192施設に送付し、回答を収集中である。

また、仙尾部奇形腫のガイドラインや予後の広報のため、著書や総説の執筆を行った。

## 8. 短腸症

### 【指定難病および小慢の状況】

小児慢性特定疾病：12. 慢性消化器疾患：13. 短腸症（37. 短腸症）

短腸症は、先天性に腸が短いか後天性に小腸の大量切除を余儀なくされた結果生じる腸管不全である。多くは小児期から成人期をこえて中心静脈栄養に依存し長期的医療ケアを必要としている。また、生命にかかわる重篤な合併症を生じるリスクを常に抱えている。2015年1月に短腸症は小児慢性特定疾患に認定されたが、指定難病には現在認定されておらず、また短腸症に関する身体障害者手帳の交付基準の見直しも必要な状況にあるなど短腸症患者および家族支援体制は十分とは言い難い。

今年度は、「短腸症」の診断基準および重症度区分を作成し、日本外科代謝栄養学会で承認を受けた。また、令和3年度実施分の疾病追加要望書類を作成し厚生労働省 難病対策課に提出した。

近年、諸外国における腸管リハビリテーションプログラムの広まりとともに、短腸症診療における種々のエビデンスが積み重ねられつつある。このような状況を鑑み、本邦における診療ガイドライン作成のためのスコープを作成し、CQ案を設定し、文献検索を行った。

## 9. 腹部リンパ管疾患

### 【指定難病および小慢の状況】

指定難病277：リンパ管腫/ゴーハム病

小児慢性特定疾病：16. 脈管系疾患：1. 脈管奇形（6. リンパ管腫、7. リンパ管腫症）

当分担当研究は、主に小児において重篤な消化器通過障害、感染症、貧血、低タンパク症等を生じることがある疾患である、腹部（腹腔内、後腹膜）に病変をもつリンパ管疾患のリンパ管腫（リンパ管奇形）、リンパ管腫症・ゴーハム病、そして乳び腹水を研究対象としている。これらはいずれも稀少疾患であり難治性である。

今年度は、難病助成対象の拡大へ向けて症例調査研究データのまとめ等を通して再び提言する準備を開始した。2017年に改訂発行した「血管腫・血管奇形・リンパ管奇形診療ガイドライン2017」の改訂版作成が厚労科研秋田班の統括にて開始され、腹部リンパ管疾患部を本研究班にて担当することとなった。該当する2つのCQに対して、システマティック・レビューの準備を行った。

これまで3回行った「小児リンパ管疾患シンポジウム」令和2年9月に開催する予定であったが、新型コロナウイルス感染拡大の社会状況を考慮し中止とした。

## 10. 胃食道逆流症

### 【指定難病および小慢の状況】

未認定

胃食道逆流（GER）とは非随意的な胃から食道への胃内容物の逆流のことであり、そのうちなんらかの

症状や病的状態が惹起される状況が胃食道逆流症(GERD)と定義されている。健常小児においては4か月以下の乳児で約50%、1才以下では5・10%に嘔吐を主症状とするGERDがみられるが、成長と共に改善していくと報告されている。一方で重症GERDを高率で発症する疾患が存在し、食道閉鎖症、先天性横隔膜ヘルニア、重症心身障がい児などでは内科的・外科治療が必要となることが多い。診断基準は施設により異なり、治療法も一定ではない。難治性GERD症例も存在すると考えられるが実態は不明である。

今年度は、平成29～令和元年度の田口班研究において施行した、小児難治性 GERD患者の現状調査の成果について、内容をまとめるとともに、学会等での報告を行った。特に、小児難治性GERDの小児慢性特定疾患、難病指定に向けて、対象となるスペクトラムが存在するか検討を行った。真の難治性GERDの可能性のある症例は、先天性食道閉鎖症、重症心身障がい児、先天性心疾患が全体の85.4%を占める41症例であった。小児難治性GERDに対する医療政策を考えるにあたり、特に先天性食道閉鎖症に合併する症例の扱いについて重点的に議論することとなった。

## 11. 先天性食道閉鎖症

### 【指定難病および小慢の状況】

未認定

先天性食道閉鎖症は、各施設における経験症例数に限りがあり、特に重篤な症状を呈する比較的稀な症例の経験症例数はさらに限定される。少なくなってくる。このため、多施設の経験症例を集計することによって、本症の病態・診断・治療の現状、そして長期予後を把握し、今後の治療成績向上につなげることが望ましいと考える。

本研究班では、平成30年度から令和元年度に行った他施設共同アンケート調査より、病型別の治療成績、根治術時期による長期治療成績（長期合併症）、根治術式別の長期治療成績（長期合併症）経験症例数別（施設別）の治療成績、予後不良症例の詳細な情報が明らかとなった。

今年度は、上記に加え 就学状況を調査結果より検討した。特別支援学級に通学している症例はどの年代を通して存在し、6～15%程度であった。またその問題点として普通学級での医療的ケア時の受け入れの問題、重症例における在宅人工呼吸管理、栄養管理の問題、学習障害による就学困難などの問題点が明らかとなった。多発奇形や栄養状態との関連を今後さらに情報収集することとした。

## 12. 高位・中間位鎖肛

### 【指定難病および小慢の状況】

未認定

高位・中間位鎖肛は小児期から移行期・成人期に至る希少難治性消化管疾患であり、失禁、難治性便秘など長期的な経過をとる。高位・中間位鎖肛では指定難病の4条件を満たしているが難病や小慢に指定されていない。したがってこれらの疾患に適切な医療政策を施行していただくためには、研究班を中心とした小児期から成人期を含む実態調査と疾患概要・診断基準・重症度分類・診療ガイドラインの整備が急務である。

本研究班では、1975年より40年間、4000例以上の病型診断を行ってきた直腸肛門奇形研究会の年次登録から年齢は2020年1月1日において6歳、12歳、18歳の患児を抽出して予後調査を行った。

本年度は、収集されたデータから、排便機能についての解析を行った。本疾患の患者では、成人になっても客観的排便機能のスコアがやや低いことが判明した。術式による明らかなスコアの低下は認めなかった。排便機能スコアの低下に影響を与える因子を同定する必要性が検討された。

#### D．考察

厚生労働行政の重要な課題として健常な子供を生育することは国民の関心と期待が高く、一人の健常児を成長させ生産人口になると経済効果は一人当たり5億円といわれる。消化器の希少難治性疾患は各施設の症例数が少なく、診断法と治療法が確立されておらず試行錯誤している症例が多い。本研究により全国調査のデータに基づく難病や小慢の重症度の階層化が確立されれば、難病や小慢の対象とすべき重症例がクリアに抽出できる。

またガイドライン整備による治療の標準化・均てん化により試行錯誤による医療資源を投入しなくても済むようになる。つまり軽症例では無駄な医療資源を節約でき、逆に重症例では早い時期に高度な治療を導入し生命予後やQOLを改善でき医療資源を有効に使える可能性がある。このようにガイドライン整備が医療経済の節約・有効利用につながる。また研究班の情報集約による早期診断早期治療による intact survivalの増加につながり国民経済を支える就労人口増につながる。

本研究では指定難病や小慢の対象疾患になるべき10疾患をピックアップし、対象疾患の検討に貢献し、小児期・移行期・成人期にまたがる患者さんが、どこかの診療科に相談したらいいか困らないような診療提供体制も構築し医療難民がなくなるように貢献できる。また患者登録とフォローアップ体制の構築により長期予後が明らかとなり次のガイドラインの改訂に寄与する。

#### E．結論

完成したガイドラインの普及やガイドライン完成に向けた作業、ガイドライン改定に向けた方針策定、診断や分類に関する提言、現状調査や長期フォローアップデータの収集とおよび問題点の抽出、といった疾患の置かれた状況に応じた着実な進捗を果たすことができた。

トランジションに向けた具体的取り組みに着手したこと、横断的グループを通じた有機的な研究体制強化に関する議論が開始されたこと、の2点は研究班における今後の研究においても極めて重要なアクションであったと考える。

総じて、個々の希少な疾患に対してどのような形で情報を集積していくかという問題が常に存在した。特に長期予後に対する悉皆性の高い情報収集は本研究班を通じてもかなり困難であることがわかった。情報収集の方法を含め新たな戦略を考える必要がある。

#### F．健康危険情報

該当する情報はなし

#### G．研究発表

## 1. 論文発表

### 1) 国内

大河原一真、永吉絹子、永井俊太郎、田口智章、小田義直、中村雅史.

Hirschsprung病術後37年目に発症した再建腸管憩室内大腸癌の1例

日臨外会誌 81(11):2290-2296,2020

田口智章、吉丸耕一郎、小幡 聡.

特集 【必携】専攻医と指導医のための新生児診療到達目標

疾患別到達目標 消化器疾患, 腹部疾患

Hirschsprung病

周産期医学.50(4):613-616,2020

田口智章、吉丸耕一郎.

Hirschsprung病及びその類縁疾患の概念と歴史

日本臨床外科学会雑誌,81(10):1925-1938,2020

田口智章、南レイラ、川尻 望、森沙耶香、吉丸耕一郎、高橋良彰、山座孝義、水田祥代.

小児難治性疾患に対する再生医療を用いた新規治療の開発 -主に脱落乳歯幹細胞に着目して-

福岡医学雑誌,111(3):113-123,2020

田口智章

13.消化器疾患、肝疾患 Hirschsprung病

今日の小児診療指針 第17版

水口 雅、市橋 光、崎山 弘、伊藤秀一 総編集

株式会社医学書院:459-460,2020年12月1日発行

### 2) 海外

Iwanaka T, Yamaza T, Sonoda S, Yoshimaru K, Matsuura T, Yamaza H, Ohga S, Oda Y, Taguchi T.

A model study for the manufacture and validation of clinical-grade deciduous dental pulp stem cells for chronic liver fibrosis treatment.

Stem Cell Research & Therapy.11(1);134-153,2020

Terui K, Hayakawa M, Amari S, Masumoto K, Okazaki T, Inamura N, Urushihara N, Toyoshima K, Uchida K, Furukawa T, Okawada M, Yokoi A, Okuyama H, Taguchi T.

Risk factors for pneumothorax associated with isolated congenital diaphragmatic hernia: results of a Japanese multicenter study.

Pediatr Surg Int. 36(6): 669-677,2020

Harada N, Yoshizumi T, Matsuura T, Taguchi T, Mori M.

Usefulness of microsurgical back table angioplasty for multiple hepatic arteries in living donor liver transplantation.

Annals of Gastroenterological Surgery. 4(6):735-740,2020

Hiyama E, Hishiki T, Watanabe K, Ida K, Ueda Y, Kurihara S, Yano M, Hoshino K, Yokoi A, Takama Y, Nogami Y, Taguchi T, Mori M, Kihira K, Miyazaki O, Fuji H, Honda S, Iehara T, Kazama T, Fujimura J, Tanaka Y, Inoue T, Tajiri T, Kondo S, Oue T, Yoshimura K.

Outcome and Late Complications of hepatoblastomas Treated Using the Japanese Study Group for Pediatric Liver Tumor 2 Protocol.

Journal of Clinical Oncology. 38(22):2488-2498,2020

Wada S, Ozawa K, Sugibayashi R, Suyama F, Amari S, Ito Y, Kanamori Y, Okuyama H, Usui N, Sasahara J, Kotani T, Hayakawa M, Kato K, Taguchi T, Endo M, Sago H.

Feasibility and outcomes of fetoscopic endoluminal tracheal occlusion for severe congenital diaphragmatic hernia: A Japanese experience.

Journal of Obstetrics and Gynaecology Research. 46(12):2598-2604,2020

Yamoto M, Ohfuji S, Urushihara N, Terui K, Nagata K, Taguchi T, Hayakawa M, Amari S, Masumoto K, Okazaki T, Inamura N, Toyoshima K, Uchida K, Furukawa T, Okawada M, Yokoi A, Kanamori Y, Usui N, Tazuke Y, Saka R, Okuyama H on behalf of Japanese Congenital Diaphragmatic Hernia Study Group.

Optimal timing of surgery in infants with prenatally diagnosed isolated leftsided congenital diaphragmatic hernia: a multicenter, cohort study in Japan.

Surg Today, Published: 10 October 2020

Terui K, Tazuke Y, Nagata K, Ito M, Okuyama H, Hayakawa M, Taguchi T, Sato Y, Usui N.

Weight gain velocity and adequate amount of nutrition for infants with congenital diaphragmatic hernia.

Pediatric Surgery International, Published 28 nov: 2020

## 2. 学会発表

### 1) 国内

小幡 聡、宗崎良太、伊崎智子、武本淳吉、吉丸耕一郎、松浦俊治、田口智章。

細径ポートを用いた腹腔鏡下腎盂形成術時における尿管ステント留置の工夫。第22回  
Needlescopic Surgery Meeting、令和2年2月1日、高知

伊崎智子、小幡 聡、入江敬子、宮田潤子、吉丸耕一郎、田口智章。

当科におけるモビコール投与の実際。第50回日本小児消化管機能研究会、令和2年2月15日、金沢

近藤琢也、古野 渉、鳥井ヶ原幸博、吉丸耕一郎、河野 淳、松浦俊治、伊崎智子、田口智章。

症例から見た腸管リハビリテーションにおけるチーム医療の重要性。第32回日本腸管リハビリ  
テーション・小腸移植研究会、令和2年8月8日、大阪

松浦俊治、河野雄紀、内田康幸、高橋良彰、吉丸耕一郎、吉岡秀人、林田信太郎、猪股裕紀洋、  
田口智章。

アジア途上国における小児肝移植実現への道のり。第57回日本小児外科学会学術集会、令和2年9  
月19日-21日、東京（web開催）

鳥井ヶ原幸博、近藤琢也、伊崎智子、吉丸耕一郎、松浦俊治、田口智章。

ECMO下に根治術を行い救命しえた特殊型先天性食道閉鎖（Kluth分類Type 3）の1例。第57回日  
本小児外科学会学術集会、令和2年9月19日-21日、東京（web開催）

高橋良彰、内田康幸、梶原啓資、小幡 聡、吉丸耕一郎、松浦俊治、伊崎智子、中尾慎吾、渡辺  
ゆか、多久佳祐、豊村大亮、松岡若利、鉄原健一、賀来典之、田口智章。

脳症を伴い大腸亜全摘まで至った超早期発症炎症性腸疾患（VE0-IBD）の一例。第57回日本小児外  
科学会学術集会、令和2年9月19日-21日、東京（web開催）

吉丸耕一郎、内田康幸、松浦俊治、梶原啓資、鳥井ヶ原幸博、河野雄紀、近藤琢也、高橋良彰、  
田口智章。

超音波ガイド下右第9第10肋間静脈經由奇静脈中心静脈カテーテル留置の経験。第57回日本小児  
外科学会学術集会、令和2年9月19日-21日、東京（web開催）

小幡 聡、吉丸耕一郎、松浦俊治、田口智章。

ヒルシュスプルング病と直腸肛門奇形に対する腹腔鏡手術の現状と課題。第47回日本小児栄養  
消化器肝臓学会、令和2年10月23日-25日、Web開催

吉丸耕一郎、内田康幸、高橋良彰、松浦俊治。

左右肋間静脈經由奇静脈中心静脈カテーテルを超音波ガイド下に留置した経験。第47回日本小  
児栄養消化器肝臓学会、令和2年10月23日-25日、Web開催

2) 海外

Obata S, Kondo T, Kono J, Takemoto J, Yoshimaru K, Matsuura T, Izaki T, Taguchi T.

Over 10 years' Experience and the Utility of Muscle-sparing Axillar Skin Crease

Incision for Pediatric Thoracic Surgery. PAPS2020, November 8-12, WEB開催, 2019

H . 知的財産の出願・登録状況

なし

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患政策研究事業）

分担研究報告書

## ヒルシュスプルング病類縁疾患

松藤 凡 聖路加国際大学 聖路加国際病院 統括副院長  
中島 淳 横浜市立大学大学院医学研究科肝胆膵消化器病学 教授  
武藤 充 鹿児島大学学術研究院医歯学域医学系小児外科学分野 講師  
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 部長  
吉丸 耕一郎 九州大学大学院医学研究院小児外科学分野 講師  
桐野 浩輔 九州大学大学院医学研究院小児外科学分野 助教

研究協力者

大久保 秀則 横浜市立大学大学院医学研究科肝胆膵消化器病学 助教

### 【研究要旨】

ヒルシュスプルング病類縁疾患は、小児期から移行期・成人期にまたがる希少難治性消化管疾患群である。このうち腸管神経節細胞僅少症：Isolated hypoganglionosis、巨大膀胱短小結腸腸管蠕動不全症：Megacystis Microcolon Intestinal hypomotility syndrome (MMIHS)、慢性特発性偽性腸閉塞：Chronic Intestinal Pseudo Obstruction (CIPO) の3疾患は、これまでの研究班活動により指定難病として認可された。本研究では、先行研究により完成したヒルシュスプルング病類縁疾患ガイドライン内容をさらに学術的に深め、実用性、汎用性を高めること、移行期・成人期も含めた長期予後を把握すること、関連学会や国民・患者への疾患啓発をすすめる診療提供体制の構築・強化をはかること、学会や家族会などと連携した登録制度や長期フォローアップ体制を構築することをめざす。

### A．研究目的

従来から、直腸に神経節細胞が存在するにもかかわらずヒルシュスプルング病と類似した病像を示す希少な疾患群があることは知られ、本邦ではヒルシュスプルング病類縁疾患と称されてきた。この疾患概念は時代とともに変化し、類義語が多く存在し整理されていない、定義、分類、診断基準、重症度、治療方針、予後などに関するコンセンサスがなされていない、希少疾患であり、1施設当たりの症例数が少ない、多施設共同研究による実態調査が必要な疾患群であるという問題点を抱えていた。これらを解決すべく、我々はヒルシュスプルング病類縁疾患診療ガイドラインを策定公開し普及を行ってき

た。国内外において広く疾患概念のコンセンサスを得ることは出来たが、全国調査症例の詳細解析、追跡調査、重症例の抽出と現状の把握、長期フォロー体制の確立等の課題はまだ残っている。加えて、前述のように本疾患群は、小児期から移行期・成人期にまたがる希少難治性消化管疾患であり、『小児と成人を一体的に研究・診療できる体制』を創出してゆくことが求められている。これら課題への取り組みを本班の研究目的とした。

### B．研究方法

1) 前回全国調査症例から重症例の抽出、成人期への移行症例の抽出を行い、長期フォ

ローのための疾患レジストリの体制準備、診断・治療におけるエビデンスの創生をめざす。中央病理診断と遺伝子診断のための枠組みをつくり、全国の医療機関から検体と患者情報を取得する。3～4施設から個々のヒルシュスブルグ病類縁患者について広く多彩な詳細情報を収集し、ベイズ統計モデリング等の統計学的手法を用いてスコアリングシステムを取り入れた重症度客観評価指標の策定にあたる。

- 慢性特発性偽性腸閉塞：Chronic Intestinal Pseudo Obstruction (CIPO) について腸管蠕動の観点から病態の特徴評価するため、シネMRI（動画MRI）を用いた後ろ向き研究をまずは、成人の分野から着手した。2011年4月から～2020年6月までに腹部膨満症状で横浜市立大学病院を受診した患者のうち、Rome基準により過敏性腸症候群（IBS）と機能性ディスぺプシア（FD）が否定的、および厚労省診断基準で慢性偽性腸閉塞症（CIPO）が否定的、さらに水素呼吸試験で小腸内細菌異常増殖症（SIBO）が否定的な原因不明の小腸ガスによる腹部膨満患者9名を対象とし、シネMRIの特徴を健常者およびCIPO患者と比較した。

#### （倫理面への配慮）

- 研究班母体である九州大学において倫理審査を経て行う。令和3年に予定されている「人を対象とする医学系研究に関する倫理指針」の改定を待ち、一括した倫理審査による他機関共同研究の枠組みを設定予定である。
- 非侵襲的・レトロスペクティブな研究であり同意取得は行わない方針とした

#### C. 研究結果

- 研究のスキームについてWeb会議を通じて検討を行った。議事内容を別途示す。令和3年度に具体的なデータ収集、統計解析、評価基準策定を実行する。
- 平均小腸径は24.7mmで、健常者11.1mmと比べ拡張傾向であったがCIPO患者43.4mmよりは明らかに拡張が軽度であった。一方収縮率は54.8%で、健常者73.0%に比べて低かったが、CIPO患者17.1%と比べて収縮は保たれていた。なお、健常者で見られるような完全収縮（腸管径=0mm）は見られず、どの症例も不完全な収縮ばかりであった。

#### D. 考察

- 重症度の客観評価指針作成については、対象疾患が稀少であるため、網羅的な患者情報の取得による後ろ向き研究をデザインした。交絡因子の影響を排除したデータ解析が可能な手法を選択したい。レジストリ構築に至り、今後機能してゆけば、遺伝子解析研究等の介入研究にも利用可能ではないかと想定される。また同様な仕組みを他の疾患へ拡張応用することもできると考えられる。
- 原因不明の小腸ガス貯留患者では、小腸収縮運動が不十分でありガス輸送能力が低いことが病態の1つと考えられた。

#### E. 結論

- 現行ガイドラインにおけるエビデンス積み上げの第一段として、重症度の客観評価基準について統計学的手法を用いた策定試行を計画した。この手法の有用性が確認できれば、他の小児希少疾患へも応用可能ではないかと考えられる。
- 腹部膨満症の鑑別疾患として、原因不明の小腸ガス貯留も一つのdisease entityとして考慮する必要がある。今後ガスがどこから来るのかを解明することが今後の課題と考えられる。

#### F. 研究発表

- 論文発表
  - Ohkubo H, Takatsu T, Yoshihara T, Misawa N, Ashikari K, Fuyuki A, Matsuura T, Higurashi T, Yamamoto K, Matsumoto H, Odaka T, Lembo AJ, Nakajima A. Difference in Defecation Desire Between Patients With and Without Chronic Constipation: A Large-Scale Internet Survey. Clin Transl Gastroenterol. 2020 Sep;11(9):e00230. doi: 10.14309/ctg.000000000000230.
- 学会発表
  - 山田洋平、工藤裕実、三宅和恵、藤田拓郎、沓掛真衣、森禎三郎、田原和典、藤野明浩、藤村匠、黒田達夫、義岡孝子、金森豊. Isolated hypoganglionosis14名における腸管神経節細胞の分布と現状管理について. 第32回日本腸管リハビリテーション・小腸移植研究会、大阪、2020.8.8.
  - 大久保秀則(演者)/中島淳(シンポジウム3)「小腸検査法の進歩：小腸内視鏡、カプ

セル内視鏡、SIBO Leaky gut」(S3-1)シネMRIを用いた原因不明の小腸ガスによる腹部膨満症の病態考察．第58回日本小腸学会学術集会，愛知( J P タワー名古屋ホール&カンファレンス)．2020年10月24日．

- 3) Ohkubo H. Nakajima A. The 4th Joint Session between JDDW-KDDW-TDDW. Rising Star. Research progress of Chronic intestinal pseudo-obstruction (CIPO) in Japan and future perspective. Nov.5, 2020. Kobe.

#### G . 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

## ヒルシュスプルング病

家入 里志 鹿児島大学学術研究院医歯学域医学系小児外科学分野 教授

小幡 聡 九州大学病院 小児外科 助教

### 【研究要旨】

ヒルシュスプルング病（H病）は肛門から連続性に腸管の神経節細胞が欠如した先天性疾患で、新生児期から小児期まで急性の腸閉塞や重症便秘として発症する。H病の診断ならびに治療方法について一定のコンセンサスは得られているものの、いまだ各施設において統一されていないというのが現状である。このため、各施設においてこれらの症例を詳細に検討することは困難であり、多施設の経験症例を集計することによって、H病の病態・診断・治療の現状を把握し、今後の治療成績向上につなげることが望ましいと考える。本研究の目的は、かつて厚生労働研究でとりあげられたことのないH病の全国調査を、本疾患を網羅できると考えられる日本小児外科学会認定施設・教育関連施設対象に実施し、本疾患の診断・治療ガイドラインまで進めることである。今回全国アンケート調査二次調査まで終了し詳細な解析を行なった。この解析結果を元にガイドライン作成へ向けたSCOPE, CQを作成し、システマティックレビューを行い、ガイドライン推奨文を作成した。

### A．研究目的

ヒルシュスプルング病（H病）は肛門から連続性に腸管の神経節細胞が欠如した先天性疾患で、新生児期から小児期まで急性の腸閉塞や重症便秘として発症する。H病の診断ならびに治療方法について一定のコンセンサスは得られているものの、いまだ各施設において統一されていないというのが現状である。特に根治手術の術式に関しては、これまでに多数の術式が考案され、年代毎に変遷してきたが、それぞれに長所短所があるため、各施設において施行術式が異なっている。H病は発生頻度が比較的低い疾患であるため、各施設での経験症例数のみでは、手術前後の合併症や長期予後に関する検討が不十分である恐れがある。また、H病患者では、敗血症を伴う重篤な腸炎を発症し、不良な転帰を辿ることもあり、診断までのプロセスならびに手術前後の管理についても留意すべき点がある。さらに、小腸広域に病変が及ぶ病型では機能的短腸症となり、外科的治療の他に厳重な栄養管理を要し、臓器移植の適応となること

がある。遺伝子・染色体異常、合併奇形を伴うような症例もあり、比較的治療法が確立されている疾患ではあるが、治療に難渋することも少なくない。各施設におけるH病経験症例数はそれほど多くはなく、重篤な症状を呈する比較的稀な症例の経験症例数はさらに少なくなってくる。このため、各施設においてこれらの症例を詳細に検討することは困難であり、多施設の経験症例を集計することによって、H病の病態・診断・治療の現状を把握し、今後の治療成績向上につなげることが望ましいと考える。また本研究を詳細に解析することにより、病型別の治療成績、根治術時期による治療成績（短期・長期合併症）、根治術式別の治療成績（短期・長期合併症）経験症例数別（施設別）の治療成績、予後不良症例の詳細な解析、を明らかにする。本研究の目的は、かつて厚生労働研究でとりあげられたことのないH病の全国調査を、本疾患を網羅できると考えられる。日本小児外科学会認定施設・教育関連施設対象に実施し、本疾患の診断・治療ガイドライ

ンまで進めることである。

## B. 研究方法

治療に難渋あるいは救命できない症例の特徴を抽出し、診断と治療のガイドラインを立案する。なお調査票の郵送、回収やデータの管理、統計解析については九州大学で行う。

現状調査をもとにガイドライン作成へ向けたCQ, SCOPE を作成する。

システマティックレビューをもとにガイドライン推奨文を作成する。

### (倫理面への配慮)

全国調査の実施にあたっては九州大学大学院医学研究院の倫理審査の承認を得て、また日本小児外科学会学術先進検討委員会の許可を得た後に行った。調査票は匿名化して個人情報保護に配慮し、集積されたデータは九州大学に一元管理保管した。

## C. 研究結果

1) ヒルシュスプルング病短腸症候群 (HDSBS) 小腸型で無神経節腸管の範囲がトライツ靱帯から75cmより口側に及びいわゆる短腸症候群となった症例に関して2008-2012年の症例を検討した7)。2008-2012年において短腸症候群となった症例は11例で全体の0.9%であった。発生率としては456,412出生に1例であり、男女比は2.7:1、家族発生は18.2%と全体の 期全体の7.1%と比較して高く、合併奇形も27.3%と 期全体の18.9%より高い結果であった。11例に関して詳細に検討してみると、全例に空腸瘻が造設され、うち7例に2期手術が施行され、その内訳は上行結腸パッチ:4例、Duhamel:1例、Ziegler's procedure:1例、Serial transverse enteroplasty (STEP):1例という結果であった。4例には2期目の手術は施行されていない。予後に関しては11例中7例(63.6%)が生存しており、その内訳は2期手術が施行されたものが6例、施行されず空腸瘻で管理されているのが1例であった。死亡症例は4例で、内訳は2期手術が施行されたものが1例、施行されず空腸瘻のみのものが3例で、死因は敗血症と肝不全であった。死亡症例の4例全例が無神経節腸管の範囲がトライツ靱帯より口側30cm以内に及び症例であり、本症短腸症候群でも最重症に相当すると考えられた。

## 2) T A E P Tにおける粘膜剥去部位

期ではTAEPTによる根治手術が49.6%と約半数の症例に行なわれていたが、粘膜剥去部位の開始部位は施設により異なっている。2008-2012年の調査項目に粘膜剥去部位の開始部位を追加して短期合併症を検証した。1087例中必要な手術項目の記載の確認が可能であった338例のT A E P T症例を対象とした。さらに粘膜剥去部位の開始部位の不明な11例を除外した327例を粘膜剥去部位の開始部位が歯状線から5mm以上口側の155例をA群、5mm未満の172例をB群とした。術後1ヶ月時点での短期合併症を両群で比較した。腸炎(8.4% vs.7.6%, p=0.84)、腸閉塞(1.3% vs.3.5%, p=0.29)、肛門狭窄(5.8% vs.2.3%, p=0.16)、失禁(3.9% vs.2.9%, p=0.76)、便秘(3.2% vs.1.7%, p=0.48)、汚染(0.6% vs.0.6%, p=1.00)と有意差を認めなかったが、直腸粘膜脱はA群にはなかったがB群のみに7例(4.1%)と有意差をもって認めていた。

3) T A E P Tを含むSoave術後の長期排便機能 鹿児島大学では本症に対して従来は回復のSoave-伝田法を行っていたが、1990年代後半より経肛門手術に変更した。その際に粘膜剥去の開始部位や筋筒切開の方法は変更せずに手術アプローチのみの変更とした。Soave術後の長期的な排便機能に対してアプローチの違いが影響を与えるかどうかに関して検討を加えた。期間は1984年から2015年でその間の110例の本症を対象とした。男女比は86:24であった。1984年~1998年まで行われたSoave-伝田法72例中に詳細の判明した70例をS D群、1998年以降の経肛門手術が行われた38例中詳細の判明している37例をT A群とした。無神経節腸管の範囲に関してはS D群(S状結腸以下:57、左右結腸:12、全結腸:2、不明1例)でT A群(S状結腸以下:30、左右結腸:7、全結腸:1例)と両群合わせてS状結腸以下で79.1%を占めていた。手術成績を比較すると手術時日齢はS D群 $404.7 \pm 826.7$  vs. TA群 $: 159.0 \pm 252.1$  (p<0.05)、手術時体重はS D群 $7624.9 \pm 4375.4$  vs. TA群 $: 5751.7 \pm 1826.8$  (p<0.05)、出血量はS D群 $13.5 \pm 9.8$  vs. TA群 $: 4.5 \pm 4.1$  (p<0.05)、在院日数はS D群 $24.0 \pm 8.3$  vs. TA群 $: 17.8 \pm 7.2$  (p<0.05)、手術時間はS D群 $: 225.8 \pm 107.0$  vs. TA群 $: 265.9 \pm$

108.4 (p=0.07) という結果であった(表8)。合併症全体ではSD群:36(52.2%) vs. TA群:7(18.9%)(p=0.01)とTA群で有意に低い結果となった。術後長期的な排便機能に関しては、3才時、5才時、7才時、9才時、11才時の排便期機能を直腸肛門奇形研究会の排便スコアを用いて評価した。排便回数、汚染に関しては各年齢で両群間に有意差を認めなかったが、便秘に関してはTA群がSD群に比して9歳の時点で排便回数が少なく、失禁に関してはTA群がSD群に比して3歳、9歳、11歳の時点で有意に低い結果となった。総合スコアでは両群間に有意差を認めなかった。

- 4) CQ案とSCOPR,及び診断アルゴリズムを作成(図)
- 5) システマティックレビューをもとにしたガイドライン推奨文を作成

CQ1: 診断はどのようになされるか?

推奨: 腹部膨満、嘔吐、便秘などの腸閉塞症状を呈し、器質的な異常を認めない場合には消化管造影検査を行う。Caliber changeが認められた場合には、直腸粘膜生検もしくは消化管全層生検を行うことを推奨する。

推奨の強さ: 1 エビデンス: B

CQ2: 腸炎に薬物療法は推奨できるか?

推奨: ヒルシュスプルング病に対する術前の薬物治療として、現時点で推奨できる薬物はない。術後排便機能の改善を目的として漢方薬(大建中湯)、プロバイオティクスの有効性が報告されているが、現時点で推奨できる十分なエビデンスはない。

推奨の強さ: 2 エビデンス: D

CQ3-1: チューブ減圧療法は有用か?

推奨: ヒルシュスプルング病に対して病型に応じてチューブ(経肛門的)留置による減圧が有効な例があり、症例ごとに検討されることが提案される。

推奨の強さ: 2 エビデンス: C

CQ3-2: ストーマ造設は有用か?

推奨: ヒルシュスプルング病に対するストーマ造設は病型によって有効な例があり、症例ごとに検討されることが提案される

推奨の強さ: 2 エビデンス: C

CQ3-3: 洗腸は有用か?

推奨: ヒルシュスプルング病に対する洗腸は病型によって有効な例があり、症例ごとに検討されることが提案される

推奨の強さ: 2 エビデンス: C

CQ4: 栄養療法は推奨できるか?

推奨: ヒルシュスプルング病に対する栄養療法として経腸栄養療法と静脈栄養療法を実施することを推奨する。

推奨の強さ: 1 エビデンス: B

CQ5-1: 術式はSwenson, Soave, Duhamelのいずれがよいか?

推奨: ヒルシュスプルング病にたいして無神経節腸管の外科的切除は機能的腸閉塞症状を改善するので行うことを推奨する。

Duhamel法: Duhamel法でのヒルシュスプルング病根治術は、全結腸型を含むすべての病型に適応となる。

Swenson法: Swenson法でのヒルシュスプルング病根治術は、人工肛門の有無に関係なく、無神経節腸管の範囲が全結腸に及ぶ症例までが手術適応となる。

Soave法: Soave法でのヒルシュスプルング病根治術は、アプローチの違いから経肛門法と prolapsing techniqueによる肛門外法の2法が報告されている。

全結腸型を含むすべての病型に手術適応となる。大部分の症例で手術は一期的に施行されており、小腸病変が15 cm以内の症例では一期的根治術が可能であるとされている。ただし、開腹法や経肛門的では、無神経節腸管の範囲が直腸から横行結腸にとどまる症例で比較検討されている。

推奨の強さ: 1 エビデンス: A

CQ5-2: 経肛門手術は有用か?

推奨: ヒルシュスプルング病に対して無神経節腸管の外科的切除は機能的腸閉塞

症状を改善するので行うことを推奨する。経肛門手術が有効な例があり症例によって検討されることが提案される。

推奨の強さ: 1 エビデンス: B

CQ5-3: 内視鏡外科手術は有用か?

推奨: ヒルシュスプルング病に対し

てどの術式を用いても無神経節腸管が全結腸型に至るまでの病型で内視鏡外科手術（腹腔鏡手術）の適応となる。合併症ならびに術後排便機能は、開腹手術と同程度か良好である。

推奨の強さ：1 エビデンス：C

CQ6：小腸移植は有用か？

推奨：ヒルシュスプルング病に対する小腸移植は、特に小腸型に症例において、自己腸管の最大利用、腸管リハビリテーションによっても静脈栄養（Parenteral Nutrition: PN）からの離脱が困難で、中心静脈アクセスの欠乏が進行している症例や敗血症を繰り返しているような症例、肝障害の進行している症例などに有用である可能性があるので行うことを提案する

推奨の強さ：2 エビデンス：D

CQ7：長期的な予後は？

推奨：ヒルシュスプルング病（長域型以下）に対して適切な外科治療が行われれば、生命予後、機能予後は良好である。全結腸型以上の症例においては、長期に栄養管理、腸瘻管理などが必要なことがある。

エビデンス：B

CQ8-1：最適な手術時期はいつか？

推奨：経肛門手術を含むSoave法においては新生児期からの手術が可能である。Swenson法においても新生児期からの手術報告はあるが、その報告例は少ない。Duhamel法ではこれら2つの術式と異なり、新生児期に手術を施行した報告は少なく、生後3～5ヵ月児に手術を施行することが多い。したがって、術式により適切な手術時期は異なる。

推奨の強さ：2 エビデンス：D

CQ8-2：新生児期の根治術は有用か？

推奨：経肛門手術を含むSoave法においては新生児期からの手術が可能であるが、新生児期以降に行った場合と比較して、術後成績は同等である。

推奨の強さ：2 エビデンス：C

## D．考察

本邦におけるヒルシュスプルング病の変遷について、40年の全国調査の結果を基に解析し

た。今回対象としたヒルシュスプルング病短腸症候群（HDSBS）でも前回よりは改善しているものの依然として高い死亡率であり結腸も回盲弁もない極めて重篤な短腸症の状態では、根治術まで持ち込めないかもしくは、持ち込めても予後が極めて不良であると考えられる。短腸症に関する平成23年の全国調査128例（小児例）では48%とおよそ半数近い症例が中心静脈栄養に依存しているものの、90%近くの症例は生存しているのに比較して、HDSBSは生命予後が極めて不良である。この15年で国内でも小腸移植が可能となったが、肝不全の併発や残存ルートの問題などで小腸移植そのものの導入も困難な症例も多いと考えられる。全国調査の結果とシステマティックレビューの結果を比較すると、国内での診療と海外での診療の主に診断方法や治療時期に関して乖離が生じている部分が認められた。

## E．結論

H病発症の発生頻度、検査所見、臨床経過、治療方法、およびその予後を本邦の主要施設から収集・集計することにより、診断と治療に関する適切な情報を提供することが可能である。

ガイドラインの承認により国内ヒルシュスプルング病に対する治療の標準化が今後すすむと考えられる。

## F．研究発表

### 1. 論文発表

- 1) Muto M, Kaji T, Onishi S, Yano K, Yamada W, **leiri S**: An overview of the current management of short-bowel syndrome in pediatric patients, Surg Today, 2021, in press
- 2) Matsukubo M, Yano K, Kaji T, Sugita K, Onishi S, Harumatsu T, Nagano A, Matsui M, Murakami M, Yamada K, Yamada W, Muto M, Kumagai K, Ido A, **leiri S**: The administration of hepatocyte growth factor prevents total parenteral nutrition-induced hepatocellular injury in a rat model, Pediatr Surg Int, 2021, in press
- 3) Machigashira S, Kaji T, Onishi S, Yano K, Harumatsu T, Yamada K, Yamada W, Matsukubo M, Muto M, **leiri S**: What is the optimal lipid emulsion for preventing intestinal failure-associated liver disease following parenteral feeding in a rat model of

- short-bowel syndrome? , *Pediatr Surg Int.*, 2021, in press
- 4) Muto M, Sugita K, Ibara S, Masuya R, Matuskubo M, Kawano T, Saruwatari Y, Machigashira S, Sakamoto K, Nakame K, Shinyama S, Torikai M, Hayashida Y, Mukai M, Ikee T, Shimono R, Noguchi H, **leiri S**: Discrepancy between the survival rate and neuropsychological development in postsurgical extremely low-birth-weight infants: a retrospective study over two decades at a single institution, *Pediatr Surg Int.*, 2021, in press
  - 5) Harumatsu T, Kaji T, Nagano A, Matsui M, Murakami M, Sugita K, Matsukubo M, **leiri S**: Successful thoracoscopic treatment for tracheoesophageal fistula and esophageal atresia of communicating bronchopulmonary foregut malformation group IB with dextrocardia: a case report of VACTERL association, *Surg Case Rep.*, 2021, in press
  - 6) Sugita K, Kaji T, Muto M, Nishikawa T, Okamoto Y, Imamura M, **leiri S**: Successful laparoscopic extirpation of a vasoactive intestinal polypeptide-secreting neuroblastoma originating from the right adrenal gland: A report of an infantile case, *Asian J Endosc Surg.*, 2021, in press
  - 7) Shimojima N, Kobayashi M, Kamba S, Harada A, Hirobe S, **leiri S**, Kuroda T, Sumiyama K: Visualization of the human enteric nervous system by confocal laser endomicroscopy in Hirschsprung's disease: an alternative to intraoperative histopathological diagnosis?, *Neurogastroenterology and motility*, 32(5):e13805, 2020
  - 8) Obata S, Souzaki R, Fukuta A, Esumi G, Nagata K, Matsuura T, **leiri S**, Taguchi T : Which Is the Better Approach for Late-Presenting Congenital Diaphragmatic Hernia: Laparoscopic or Thoracoscopic? A Single Institution's Experience of more than 10 Years. *J Laparoendosc Adv Surg Tech A*, 30(9):1029-1035, 2020
  - 9) Zheng J, Guo X, Shioya A, Yoshioka T, Matsumoto K, Hiraki T, Kusano H, Oyama T, Kurose N, Yamaguchi R, Uramoto H, **leiri S**, Okajima H, Kohno M, Yamada S: Peroxiredoxin 4 promotes embryonal hepatoblastoma cell migration but induces fetal cell differentiation, *Am J Transl Res*, 12(6):2726-2737, 2020
  - 10) Inomata M, Shiroshita H, Uchida H, Bandoh T, Akira S, Yamaguchi S, Kurokawa Y, Seki Y, Eguchi S, Wada N, Takiguchi S, **leiri S**, Endo S, Iwazaki M, Sato Y, Tamaki Y, Kitamura K, Tabata M, Kanayama H, Mimata H, Hasegawa T, Takahashi H, Onishi K, Uemura T, Hashizume M, Matsumoto S, Kitano S, Watanabe M: Current status of endoscopic surgery in Japan: The 14th National Survey of Endoscopic Surgery by the Japan Society for Endoscopic Surgery, *Asian J Endosc Surg.*, 13(1):7-18, 2020
  - 11) Murakami M, Onishi S, Ohya Y, Kawabata S, Isono K, Sugawara Y, Asato T, Honda Y, Mikami Y, Inomata Y, Hibi T, **leiri S**: Langerhans cell histiocytosis confined to extrahepatic bile duct causing sclerosing cholangitis in child: a case report, *Surg Case Rep.*, 6(1):137, 2020
  - 12) Harumatsu T, Nagai T, Yano K, Onishi S, Yamada K, Yamada W, Matsukubo M, Muto M, Kaji T, **leiri S**: Differential advantage of liver retraction methods in laparoscopic fundoplication for neurologically impaired patients: a comparison of three kinds of procedures., *Pediatr Surg Int.*, 36(5):591-596, 2020
  - 13) Torikai M, Sugita K, Ibara S, Ishihara C, Kibe M, Murakami K, Shinyama S, Mukai M, Ikee T, Sueyoshi K, Noguchi H, **leiri S**: Prophylactic efficacy of enteral antifungal administration of miconazole for intestinal perforation, especially for necrotizing enterocolitis: a historical cohort study at a single institution, *Surg Today*, 2020, in press
  - 14) 鳥飼 源史, 麻田 貴志, 近藤 千博, 鮫島 浩, **家人 里志**: 術前に先天性十二指腸狭窄症と先天性十二指腸閉鎖症の合併が診断された1例, *日本小児外科学会雑誌*56(6):

1032-1036, 2020

- 15) 町頭 成郎, 山田 和歌, 永井 太一郎, 村上 雅一, 矢野 圭輔, 馬場 徳朗, 山田 耕嗣, 向井 基, 加治 建, **家人 里志**: 専門外来において治療に難渋する小児慢性機能性便秘症の検討 遺糞症例の特徴と発達障害との相関, 日本小児外科学会雑誌, 56(4):351-357, 2020
- 16) 松久保 眞, 杉田 光士郎, 中目 和彦, 長野 綾香, 松井 まゆ, 村上 雅一, 川野 正人, 矢野 圭輔, 大西 峻, 春松 敏夫, 山田 耕嗣, 山田 和歌, 武藤 充, 加治 建, 野口 啓幸, **家人 里志**: 【小児外科臨床研究の基本と展望】腹壁疾患, 小児外科, 52(7): 749-757, 2020
- 17) **家人 里志**, 杉田 光士郎, 矢野 圭輔, 大西 峻, 山田 耕嗣, 武藤 充: 胎児・新生児・小児用デバイス開発の動向, 日本コンピュータ外科学会誌, 22(3): 180-183, 2020
- 18) **家人 里志**, 長野 綾香, 松井 まゆ, 杉田 光士郎, 矢野 圭輔, 大西 峻, 春松 敏夫, 山田 耕嗣, 山田 和歌, 松久保 眞, 武藤 充, 加治 建: 【小児外科臨床研究の基本と展望】, 小児外科, 52(7):698-703, 2020
- 19) 矢野 圭輔, 杉田 光士郎, **家人 里志**: IFALDの病態解明に基づくGLP-2を用いた新規治療法の開発, Medical Science Digest, 46(7): 437-440, 2020
- 20) 松久保 眞, 野口 啓幸, 武藤 充, 杉田 光士郎, 村上 雅一, **家人 里志**: 出生前診断された先天性胆道拡張症5症例 生後早期の拡張胆管空腸吻合術の効果の検討, 日本小児外科学会雑誌, 56(2): 188-193, 2020
- 21) 山田 耕嗣, 矢野 圭輔, 大西 峻, 春松 敏夫, 山田 和歌, 松久保 眞, 武藤 充, 加治 建, **家人 里志**: 【Hirschsprung病手術の現在】開腹Soave-伝田法, 小児外科, 52(4): 365-367, 2020
- 22) 小幡 聡, **家人 里志**, 田口 智章: 【Hirschsprung病手術の現在】わが国のHirschsprung病に対する腹腔鏡手術の現在 全国調査結果より, 小児外科, 52(4): 331-334, 2020
- 23) 連 利博, **家人 里志**, 春松 敏夫: 【新生児消化器疾患】胆道閉鎖症の成因 母親マイクロキメリズム仮説を中心に, 日本新生児成育医学会雑誌, 32(1): 11-16, 2020
- 24) **家人 里志**, 永井 太一郎, 矢野 圭輔, 大西 峻, 春松 敏夫, 山田 耕嗣, 山田 和歌, 松久保 眞, 武藤 充, 加治 建: 【そこが知りたいシリーズ:手術で必要な局所解剖(腹部編)】腹腔鏡下胆嚢摘出術(胆石症), 小児外科, 52(2): 170-175, 2020
- 25) 加治 建, 武藤 充, 永井 太一郎, 矢野 圭輔, 大西 峻, 春松 敏夫, 山田 耕嗣, 松久保 眞, 連 利博, **家人 里志**: 【そこが知りたいシリーズ:手術で必要な局所解剖(腹部編)】STEP手術(短腸症候群), 小児外科, 52(2): 149-153, 2020

## 2. 学会発表

- 1) **家人 里志**, 大西 峻, 春松 敏夫, 長野 綾香, 松井 まゆ, 村上 雅一, 矢野 圭輔, 山田 耕嗣, 山田 和歌, 松久保 眞, 武藤 充, 加治 建: 小児外科医としての医療機器開発への挑戦 工学研究者・企業研究者との関わりと協力、問題点と今後, 第36回日本小児外科学会秋季シンポジウム, 2020.11.5-20, Web開催
- 2) **家人 里志**, 大西 峻, 春松 敏夫, 長野 綾香, 松井 まゆ, 村上 雅一, 矢野 圭輔, 山田 耕嗣, 山田 和歌, 松久保 眞, 武藤 充, 加治 建: 小児外科領域における手術支援ロボットの適応拡大の可能性への展望, 第36回日本小児外科学会秋季シンポジウム, 2020.11.5-20, Web開催

## G. 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



スコープで取り上げた重要臨床課題 (key clinical issue)		2. 治療 (期待値) 胃腸圧 (アチューブ) (イ) スターマ
【CQの構成要素】		
P (patients, problem, population)	性 年齢 疾患・病態 地理的要件 その他	指定なし 指定なし ヒルシュスプルング病の患者 日本人
I (interventions) / C (comparisons, controls)	Comaratorsのリスト	チューブ (経鼻胃管、シリカ管、経肛門管)、ス ターマ (胃管、腸管)、洗腸
O (outcomes) のリスト	Outcome の内容	益か害 か 表) 1-9 採 用可 否
O1	経腸栄養摂取量が増える	益 3 ○
O2	腸管運動が改善する	益 3 ○
O3	腸炎の発生頻度が減る	益 3 ○
O4	敗血症の発生頻度が減る	害 2 ○
O5	身長・体重が増加する	益 2 ○
O6	生命予後が改善する	益 1 ○
O7	腸管通過時間が短縮する	益 5 ○
O8	入院の頻度が増える	害 4 ○
O9	消化管穿孔の頻度が減少する	益 3 ○
O10	身長・体重が増加する (成長障害が改善する)	益 3 ○
O11	腹痛の頻度が減る	益 3 ○
CQ3 「ヒルシュスプルング病に期待値治療は推奨できるか？」		

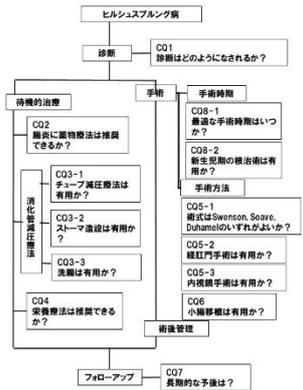
スコープで取り上げた重要臨床課題 (key clinical issue)		2. 治療 (期待値) 腸管手術
【CQの構成要素】		
P (patients, problem, population)	性 年齢 疾患・病態 地理的要件 その他	指定なし 指定なし ヒルシュスプルング病の患者 日本人
I (interventions) / C (comparisons, controls)	Comaratorsのリスト	手術 (腸管手術、経肛門手術、腸管切除手術、ス ターマ以外の手術)
O (outcomes) のリスト	Outcome の内容	益か害 か 表) 1-9 採 用可 否
O1	経腸栄養摂取量が増える	益 2 ○
O2	腸管運動が改善する	益 2 ○
O3	腸炎の発生頻度が減る	益 2 ○
O4	敗血症の発生頻度が減る	害 2 ○
O5	身長・体重が増加する (成長障害が改善する)	益 2 ○
O6	生命予後が改善する	益 1 ○
O7	腸管通過時間が短縮する	益 5 ○
O8	入院の頻度が増える	害 4 ○
O9	消化管穿孔の頻度が減少する	益 3 ○
O10	身長・体重が増加する	益 4 ○
O11	腹痛の頻度が減る	益 2 ○
O12	術後の入院頻度が減少する	益 4 ○
O13	術後の便通の頻度が増える	害 5 ○
作成した CQ5 「ヒルシュスプルング病に(腸管)外科治療は推奨できるか？」		

スコープで取り上げた重要臨床課題 (key clinical issue)		3. 予後
【CQの構成要素】		
P (patients, problem, population)	性 年齢 疾患・病態 地理的要件 その他	指定なし 指定なし ヒルシュスプルング病の患者 日本人
I (interventions) / C (comparisons, controls)	Comaratorsのリスト	ヒルシュスプルング病 正常者
O (outcomes) のリスト	Outcome の内容	採 用 可 否
O1	生命予後	○
O2	機能的予後	○
O3	身体(身長、体重)発達	○
O4	知識発達	○
O5	読書	○
O6	就労	○
O7	結婚	○
O8	妊孕性	○
CQ7 「ヒルシュスプルング病の子供は？」		

スコープで取り上げた重要臨床課題 (key clinical issue)		2. 保存的治療 (期待値) 栄養補助療法
【CQの構成要素】		
P (patients, problem, population)	性 年齢 疾患・病態 地理的要件 その他	指定なし 指定なし ヒルシュスプルング病の患者 日本人
I (interventions) / C (comparisons, controls)	Comaratorsのリスト	経腸栄養、経腸栄養薬
O (outcomes) のリスト	Outcome の内容	益か害 か 表) 1-9 採 用可 否
O1	肝臓障害が増加する	害 5 ○
O2	経腸栄養摂取量が増える	益 3 ○
O3	腸管運動が改善する	益 2 ○
O4	腸炎の発生頻度が減る	益 2 ○
O5	中心静脈留置に伴う敗血症の発生頻度が増える	害 2 ○
O6	身長・体重が増加する (成長障害が改善する)	益 2 ○
O7	生命予後が改善する	益 1 ○
O8	入院の頻度が増える	害 5 ○
O9	腸管通過時間が短縮する	益 5 ○
O10	入院の頻度が増える	害 4 ○
O11	消化管穿孔の頻度が減少する	益 3 ○
O12	腹痛の頻度が減る	益 3 ○
CQ4 「ヒルシュスプルング病に栄養療法は推奨できるか？」		

スコープで取り上げた重要臨床課題 (key clinical issue)		2. 治療 (期待値) 小腸移植
【CQの構成要素】		
P (patients, problem, population)	性 年齢 疾患・病態 地理的要件 その他	指定なし 指定なし ヒルシュスプルング病の患者 (重症患者) 日本人
I (interventions) / C (comparisons, controls)	Comaratorsのリスト	小腸移植
O (outcomes) のリスト	Outcome の内容	益か害 か 表) 1-9 採 用可 否
O1	経腸栄養摂取量が増える	益 2 ○
O2	腸管運動が改善する	益 3 ○
O3	腸炎の発生頻度が減る	益 2 ○
O4	敗血症の発生頻度が減る	害 2 ○
O5	身長・体重が増加する (成長障害が改善する)	益 3 ○
O6	生命予後が改善する	益 2 ○
O7	生命予後が改善する	益 1 ○
O8	腸管通過時間が短縮する	益 5 ○
O9	入院の頻度が増える	害 4 ○
O10	消化管穿孔の頻度が減少する	益 4 ○
O11	腹痛の頻度が減る	益 2 ○
O12	術後の入院頻度が減少する	益 4 ○
O13	術後の便通が増える	害 4 ○
CQ6 「ヒルシュスプルング病に小腸移植は推奨できるか？」		

スコープで取り上げた重要臨床課題 (key clinical issue)		3. 予後
【CQの構成要素】		
P (patients, problem, population)	性 年齢 疾患・病態 地理的要件 その他	指定なし 指定なし ヒルシュスプルング病の患者 日本人
I (interventions) / C (comparisons, controls)	Comaratorsのリスト	ヒルシュスプルング病と診断された人(予後) ヒルシュスプルング病 正常者
O (outcomes) のリスト	Outcome の内容	採 用 可 否
O1	生命予後	○
O2	機能的予後	○
O3	身体(身長、体重)発達	○
O4	知識発達	○
O5	読書	○
O6	就労	○
O7	結婚	○
O8	妊孕性	○
CQ7 「ヒルシュスプルング病の子供は？」		



## エビデンスの総括

- GRADEシステムによるシステマティックレビュー
  - 高 システマティックレビュー、メタアナリシス、ランダム化比較試験
  - 中 観察研究、コホート研究、ケースコントロール研究
  - 低 症例蓄積、症例報告、専門委員会や専門家個人の意見
- エビデンス総体のエビデンスの強さ
  - A (強) : 効果の推定値に強く確信がある
  - B (中) : 効果の推定値に中程度の確信がある
  - C (低) : 効果の推定値に低程度の確信がある
  - D (非常に弱い) : 効果の推定値がほとんど確信できない

## 推奨の強さと推奨

推奨の強さは、次の3分類とした

- ・ 1 (強い) : 実施する、または実施しないことを推奨する
- ・ 2 (弱い) : 実施する、または「実施しない」ことを提案する
- ・ 3 (なし) : 明確な推奨ができない

推奨は次の4分類とした

- ・ 行うことを推奨する
- ・ 行うことを弱く推奨する (提案する)
- ・ 行わないことを弱く推奨する (提案する)
- ・ 行わないことを強く推奨する

### CQ2: 腸炎に薬物療法は推奨できるか?

推奨: ヒルシュスブルグ病に対する術前の薬物治療として、現時点で推奨できる薬物はない。

術後排便機能の改善を目的として漢方薬(大建中湯)、プロバイオティクスの有効性が報告されているが、現時点で推奨できる十分なエビデンスはない。

推奨の強さ:  
エビデンス:D

### CQ3-2: ストーマ造設は有用か?

推奨: ヒルシュスブルグ病に対するストーマ造設は病型によって有効な例があり、症例ごとに検討されることが提案される

推奨の強さ:2  
エビデンス:C

### CQ4: 栄養療法は推奨できるか?

推奨: ヒルシュスブルグ病に対する栄養療法として経腸栄養療法と静脈栄養療法を実施することを推奨する。

推奨の強さ: 1  
エビデンス: B

### CQ1: 診断はどのようになされるか?

推奨: 腹部膨満、嘔吐、便秘などの腸閉塞症状を呈し、器質的な異常を認めない場合には消化管造影検査を行う。Caliber changeが認められた場合には、直腸粘膜生検もしくは消化管全層生検を行うことを推奨する。

推奨の強さ: 1

エビデンス: B

### CQ3-1: チューブ減圧療法は有用か?

推奨: ヒルシュスブルグ病に対して病型に応じてチューブ(経肛門的)留置による減圧が有効な例があり、症例ごとに検討されることが提案される。

推奨の強さ: 2  
エビデンス: D

### CQ3-3: 洗腸は有用か?

推奨: ヒルシュスブルグ病に対する洗腸は病型によって有効な例があり、症例ごとに検討されることが提案される

推奨の強さ: 2  
エビデンス: C

### CQ5-1: 術式はSwenson, Soave, Duhamelのいずれがよいか?

推奨: ヒルシュスブルグ病にたいして無神経節腸管の外科的切除は機能的腸閉塞症状を改善するので行うことを推奨する。

Duhamel法: Duhamel法でのヒルシュスブルグ病根治術は、全結腸型を含むすべての病型に適応となる

Swenson法: Swenson法でのヒルシュスブルグ病根治術は、人工肛門の有無に関係なく、無神経節腸管の範囲が全結腸に及ぶ症例までが手術適応となる。

Soave法: Soave法でのヒルシュスブルグ病根治術は、アプルーチの遠いから経肛門法と prolapsing techniqueによる肛門外法の2法が報告されている。

全結腸型を含むすべての病型に手術適応となる。大部分の症例で手術は一期的に施行されており、小腸病変が15 cm以内の症例では一期的根治術が可能であるとされている。ただし、開腹法や経肛門的法では、無神経節腸管の範囲が直腸から横行結腸にとどまる症例で比較検討されている。

推奨の強さ: 1  
エビデンス: A

## CQ5-2: 経肛門手術は有用か？

推奨: ヒルシュスプルング病に対して無神経節腸管の外科的切除は機能的腸閉塞症状を改善するので行うことを推奨する。経肛門手術が有効な例があり症例によって検討されることが提案される。

推奨の強さ: 1

エビデンス: B

## CQ5-3: 内視鏡外科手術は有用か？

推奨: ヒルシュスプルング病に対してどの術式を用いても無神経節腸管が全結腸型に至るまでの病型で内視鏡外科手術(腹腔鏡手術)の適応となる。

合併症ならびに術後排便機能は、開腹手術と同程度か良好である。

推奨の強さ: 1

エビデンス: C

## CQ6: 小腸移植は有用か？

推奨: ヒルシュスプルング病に対する小腸移植は、特に小腸型に症例において、自己腸管の最大利用、腸管リハビリテーションによっても静脈栄養(Parenteral Nutrition: PN)からの離脱が困難で、中心静脈アクセスの欠乏が進行している症例や敗血症を繰り返しているような症例、肝障害の進行している症例などに有用である可能性があるで行うことを提案する

推奨の強さ: 2

エビデンス: D

## CQ7: 長期的な予後は？

推奨: ヒルシュスプルング病(長域型以下)に対して適切な外科治療が行われれば、生命予後、機能予後は良好である。全結腸型以上の症例においては、長期に栄養管理、腸瘻管理などが必要なことがある。

エビデンス: B

## CQ8-1 最適な手術時期はいつか？

推奨: 経肛門手術を含むSoave法においては新生児期からの手術が可能である。Swenson法においても新生児期からの手術報告はあるが、その報告例は少ない。Duhamel法ではこれら2つの術式と異なり、新生児期に手術を施行した報告は少なく、生後3~5か月児に手術を施行することが多い。したがって、術式により適切な手術時期は異なる。

推奨の強さ

エビデンス

## CQ8-2 新生児期の根治術は有用か？

推奨: 経肛門手術を含むSoave法においては新生児期からの手術が可能であるが、新生児期以降に行なった場合と比較して、術後成績は同等である。

推奨の強さ: 2

エビデンス: C

## 乳幼児肝巨大血管腫

黒田 達夫 慶應義塾大学小児外科 教授

### 【研究要旨】

乳幼児肝巨大血管腫について、2017年に「血管腫・血管奇形・リンパ管奇形診療ガイドライン」中に総説形式で掲載された本疾患の診療ガイドラインの更新・改訂作業を進めた。昨年度までに第一次体系的文献検索を終了しており、本年度はシステマティック・レビューを継続中であるが、2017年度のガイドライン作成当時と比較して、新たな治療法の報告は散見されるもののランダム化試験の研究や肝血管腫に直接性の高い研究の報告はほとんど見られなかった。直接性のある論文の追加検索とレビューを開始した。しかしながら新規開発中の治療であるmTOR阻害剤等に関しては、ランダム化試験の報告はまだなく、エビデンス総体の強さは前回ガイドライン策定時から大きな改善がないことが明らかになってきている。あわせて本疾患の啓蒙に関して、新型コロナウイルス感染拡大下である状況を考慮し、Webセミナー開催の可能性など、検討を継続した。

### A．研究目的

肝血管腫のうち単発性で巨大な病変あるいは多発性・びまん性の病変を持つ一部の症例では、血管床の増大から高拍出性心不全や消費性凝固障害などの重篤な病態を呈し、致命的な経過をとる。2007年にボストンのChristison-Lagayらのグループは特にびまん性に病変のある症例では重篤な病態を呈することが多く、肝血管腫の中でも臨床的に独立した一群であることを提唱し、この新しい疾患概念は徐々に支持を拡げている。そこで我々は厚生労働省難治性疾患克服研究事業の一環として、平成21年より数回にわたり小児外科施設を対象にして、本邦におけるこうした症例の実態調査を行い、これに基づいて疾患の診断基準や重症度分類が策定された。さらに本疾患は小児慢性特定疾病、さらに成人期に及ぶ有症状例の存在から難病の指定も受けている。2017年には本邦の知見及び体系的な文献検索のレビューをまとめてInternational Society of Studying Vascular Anomalies (ISSVA)の国際分類に基づいた「血管腫・血管奇形・リンパ管奇形診療ガイドライン」中に、総説形式ではあったが、乳幼児肝巨大血管腫診療ガイドラインを策定した。しかし

ながら本疾患は重篤かつ難治性の経過をとるものの、公費負担の基準に該当する症例は稀少であり、本疾患に関する啓蒙活動や、一般への本疾患の理解を深めるためにより使い易いガイドラインへの改訂が求められている。

一方で血管腫や脈管奇形に関する研究やその治療に関しては、近年まで新たな展開や議論が続いている。分類に関してもISSVAは2014年に新たな国際分類の改訂を行い、この中でVascular tumorの第1項にBenign vascular tumorを挙げ、その冒頭にInfantile hemangioma/hemangioma of infancy（乳児血管腫）とCongenital hemangioma（先天性血管腫）をまず記載している。本課題で対象としている乳幼児肝巨大血管腫は乳児血管腫を中心としたこれらの2疾患が肝臓に発生したものとして整理をされている。乳児血管腫は特異的なマーカーとしてGLUT-1の発現が知られる。しかしながら、重篤な病態下の乳幼児から深部臓器の病変の生検組織標本が得られる機会は極めて限定されるために、乳幼児肝巨大血管腫の病理組織に関する知見は国内外で極めて限定的である。われわれの先行研究では6例の本症の病理組織学的検討で、GLUT-1陽性例は2例しかな

く、明らかにISSVAの見方に合致しない。このように本疾患では未だにISSVA新分類に基づいた病理組織学的背景は明らかにされていない。2017年ガイドラインの完成前に有用性の報告が散見されるようになったプロプラノロールに関しては、その後、徐々に大きなシリーズでの報告が出始めた。さらにその後、新たな治療として分子標的薬 mTOR 阻害剤の血管腫、リンパ管腫に対する有効性の報告が見られるようになった。

本研究班においては、国際分類の改訂やこれら新規治療の出現を受けて、改めてINDS2014年版以降のガイドライン作成手順に準拠した形で、乳幼児巨大肝血管腫に対する診療ガイドラインの改訂を目的とした。このため再度、乳幼児巨大肝血管腫に関するCQ見直しと新たなSCOPE策定が行われ、昨年度前半に掛けて文献検索機関である聖路加国際病院図書館との議論により、上記のような近年の本疾患関連のトピックスに合わせて何回かSCOPEの微修正が行われた。昨年度後半には微修正された最終版SCOPEに基づいた体系的文献検索が行われ、今年度システマティック・レビューが開始された。

上記のガイドライン改訂作業の継続に加えて、本研究のもう一つの活動目的を、乳幼児肝巨大血管腫に関して一般向けに公費負担の制度と併せて啓蒙的活動を行う事とした。本疾患は周産期から成長後慢性期の病態まで包括的な管理を要する。急性期を過ぎた一部の症例は非代償性肝硬変へ進行してゆく。医学雑誌への投稿などで本疾患の啓蒙や概念の普及に努めているものの、未だに知名度は低い。そこで、リンパ管奇形研究班と共同の公開セミナー開催など、何らかの形で一般への情報公開手段を模索・検討を行った。

## B．研究方法

### 1) ガイドライン改訂

研究協力を要請した聖路加国際大学図書館と連携して体系的文献検索作業が行われ、文献のシステマティック・レビューを開始、継続した。

### 2) 一般啓蒙活動の検討

これまで脈管系腫瘍の研究班として研究班員の相互連携を行ってきたリンパ管腫研究班（代表研究者 藤野明浩（国立成育医療研究センター 外科））と連携し、リンパ管腫公開シンポジウムと同時開催の形で乳幼児肝巨大血管腫の説明会など、コロナ禍における啓蒙活動の可能性を検討した。

（倫理面への配慮）

既に公開されている文の体系的検索とそのレビューによるガイドライン改訂作業であり、倫理面に関する問題はないと考えられた。

## C．研究結果

### 1) ガイドライン改訂

本年度はシステマティック・レビューを継続中であるが、2017年度のガイドライン作成当時と比較して、新たな治療法の報告は散見されるもののランダム化試験の研究や肝血管腫に直接性の高い研究の報告はほとんど見られなかった。そこでさらに個別の手作業で、直接性のある論文の追加検索とシステマティック・レビュー（SR）を開始した。先に報告が出たプロプラノロールについては、血管腫に対する後方視的な検討の報告は散見されるが、肝血管腫に特化した直接性のある報告は無かった。一方、より最近に報告されたmTOR阻害剤の有用性については、現時点での報告はほとんどが症例報告で、後方視的な検討の報告も2017年のTrianaらの血管奇形、リンパ管奇形41例の検討が、検索された中では最も規模の大きな検討であった。この研究では対象例中6例が血管腫症例で、うち2例でmTOR阻害剤の有効性が認められたとしているが、残る4症例では全く効果がなかった。対象例中に肝血管腫は含まれていない。肝血管腫に対してmTOR阻害剤の効果が見られたという症例報告も検索した限りでは見られていない。新規開発中の治療であるmTOR阻害剤等に関するランダム化試験の報告はまだなく、エビデンス総体の強さは前回ガイドライン策定時から大きな改善がないことが明らかになってきている。

一方で今回の検討で、成人期の本疾患に関しては、報告数が増えてきたように思える。その多くが症例報告で、まとまったシリーズでの後方視的研究の報告は未だにほとんど見られないが、2017年のHetterらの報告では24例の小児例中2例で成人期に移行し、死亡していた。さらに2016年以降の比較的新しい症例報告が散見される。50歳前後に発症、ないしは急速に病変が増大した症例の報告が多く、興味あることに韓国からの報告が多いことから、本疾患の成人化（トランジション）の頻度に東アジアの人種的な偏りがある可能性も示唆された。

### 2) 一般啓蒙活動の検討

今年度は、当初、隔年で開催しているリンパ管腫研究班（代表研究者 藤野明浩（国立成育医療研究センター 外科））のリンパ管腫公開シンポジウムと合同で、乳幼児肝巨大血管腫の

説明会を行うことを企画していた。しかしながら新型コロナウイルス感染拡大により、多数の人数が会場に集まる形式の説明会の開催は好ましくないと判断され、他の形式による啓蒙活動の検討が必要となった。Web上でのオンライン会議のシステムを利用したオンラインシンポジウムの形が、現時点では最も現実的であるように思われたが、稀少疾患にある本疾患について、どのように参加者を応募し、システムへの参加手続きを進めるかが障害となり、現時点では具体的な説明会の予定が立っていない。

#### D. 考察

プロプラノロールやmTOR阻害剤と言った新たな治療薬の導入など、近年の血管腫に対する新たな概念・分類の提唱や、新しい薬物治療の登場によって、改訂版の診療ガイドラインは大きな診療方針のモラトリアム・シフトの記述が出来るものと期待されていた。しかしながら今年度に、これまでに完了した体系的文献検索による抽出論文のシステマティック・レビューを進めた結果、プロプラノロールやmTOR阻害剤に関して、期待されたような乳幼児肝巨大血管腫を直接的に扱った大きなシリーズの研究の報告は、現時点でないことが明らかになった。さらに手作業により個別の論文の検索を進めたが、これらの新規治療薬に関しては未だに報告の殆どが症例報告で、血管腫全般を対象とした後方視的研究がわずかに見られるに過ぎない。乳幼児肝巨大血管腫の病理組織についても、現時点でISSVA分類の評価と、本邦の先行研究の結果に依然、やや乖離があり、これに関しては改訂版のガイドラインではシステマティック・レビューの結果に基づいた解説文を策定してゆく予定である。

継続中のシステマティック・レビューの中で今年度明らかになってきた問題点をまとめると以下のようになる

- (1) 新規薬剤による臨床試験は現時点ではまだ進行中で有り、最終結果の報告にはまだ若干の時間を要する
- (2) 肝血管腫と直接性の強い臨床研究はほぼ無い
- (3) 乳幼児肝血管腫の組織はISSVAでは乳児毛管腫、先天性血管腫とされるが、未確定である
- (4) MINDS最新版のガイドライン作成マニュアルに沿ったガイドラインの作成としては、エビデンス総体の強さに問題がある

これらの問題を解決するために、次年度に向けても個別の文献検索を継続し、間に合えば最

新のランダム化臨床試験の報告などを取り入れて、時間をかけてガイドライン改訂作業を継続してゆきたい。それでも推奨文の書けないクリニカルクエッションに関しては、解説文を充実させ、ガイドライン利用者の便宜を図ってゆくことを考えている。

もう一つの課題である本疾患に関する啓蒙活動に関しては、当初予定された公開情報説明会は、新型コロナウイルス感染拡大の状況を鑑み、今年度も開催が見送られた。これに変わる啓蒙活動の方向性として、Webシステムを利用したオンライン説明会の企画などが検討されたが、参加者への周知やオンライン説明会への不特定多数のアクセスがあった場合、セキュリティや個人情報保護などの重大問題が起こる可能性が考えられる。今年度中にこうしたweb参加の具体的なソリューションができず、未だに実現はしていない。コロナ禍の状況下でオンラインによる集会、会議の需要は多く他の会合の様子などを調査して、ソリューションの方法を継続的に検討してゆく予定である。

#### E. 結論

乳幼児肝巨大血管腫について、2017年に「血管腫・血管奇形・リンパ管奇形診療ガイドライン」中に総説形式で掲載された本疾患の診療ガイドラインの更新・改訂作業を進めた。本年度はシステマティック・レビューを継続したが、血管腫に対する新たな治療法の報告は散見されるものの前向きランダム化試験の研究の報告はほとんど無く、肝血管腫に直接性の高い研究の報告は見られなかった。さらに追加検索とレビューを開始した。エビデンス総体の強さは前回ガイドライン策定時から大きな改善がないことが明らかになりつつある。

#### F. 研究発表

1. 論文発表
  - 1) 黒田達夫：小児外科における公費負担医療の種類と申請方法；乳幼児肝巨大血管腫．小児外科 2021年 53巻3号 in press
2. 学会発表  
なし

#### G. 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

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患政策研究事業）

分担研究報告書

## 非特異性多発性小腸潰瘍症

内田 恵一 三重大学医学部附属病院小児外科 准教授

共同研究者

梅野 淳嗣 九州大学大学院病態機能内科学

大宮 直木 藤田医科大学消化器内科

細江 直樹 慶應義塾大学内視鏡センター

江崎 幹宏 佐賀大学消化器内科

中山 佳子 信州大学小児科

松本 主之 岩手医科大学内科学講座消化器内科消化管分野

### 【研究要旨】

非特異性多発性小腸潰瘍症は、本邦において疾患概念が確立され、*SLC02A1*遺伝子異常が原因であることも発見された疾患である。本邦罹患患者は約400名と推定され、小児期から発症し長きにわたり患者を悩ませ、小児慢性特定疾病、および、指定難病に登録されている。本症に罹患した患者のQOLを向上のためには、診断基準の確立、患者のデータベース作成、そして、小児期から成人期へのスムーズなトランジション体制の確立が望まれ、本年度より、本研究班と難治性炎症性腸管障害に関する調査研究（久松班）が合同プロジェクトとして本症に取り組むことになった。

本研究のデータベースより、消化管病変の特徴的所見に加え、腸管外徴候を有する場合があることや臨床徴候に性差があることもCEASの重要な特徴と考えられた。小児慢性特定疾病と指定難病の登録資料の統一は行われており、診断基準案改定、トランジションの手引書作成、小児期から成人期へのスムーズなトランジション体制の構築により、専門医師による充実したフォローアップ体制が確立され、患者のQOL向上に貢献できるものとする。

### A. 研究目的

本症は、本邦において疾患概念が確立され、*SLC02A1*遺伝子異常が原因であることも発見された疾患である。本症は、小児期から発症し長きにわたり患者を悩ませ、小児慢性特定疾病、および、指定難病に登録されている。本症に罹患した患者のQOLを向上のためには、診断基準の確立、患者のデータベース作成、そして、小児期から成人期へのスムーズなトランジション体制の確立が望まれ、本年度より、本研究班と難治性炎症性腸管障害に関する調査研究（久松

班）が合同プロジェクトとして本症に取り組むことになった。

本症は、病理学的に肉芽腫等の特異的炎症所見を伴わない小腸潰瘍が多発する稀な疾患である。近年我々は全エクソーム解析によって本症がプロスタグランジン輸送体をコードする*SLC02A1*遺伝子の変異を原因とする常染色体劣性遺伝病であることを明らかにし、"chronic enteropathy associated with *SLC02A1* gene" (CEAS) という新たな呼称を提唱した<sup>1)</sup>。*SLC02A1*は肥厚性皮膚骨膜炎の原因遺伝子とし

でも知られており。一部のCEAS患者には消化管病変だけでなく。ばち指。骨膜症や皮膚肥厚性変化などの消化管外徴候がみられることが報告されている。小児期発症例も明らかになり<sup>2)</sup>、CEAS患者の臨床徴候の特徴を明らかにすることを目的として全国調査を行った。

## B. 研究方法

診断基準(案)改訂について、*SLCO2A1*遺伝子検査の追加や、検査施設などの検討・交渉を行っている。データベースに関しては、現データベースの充実を行っている。トランジションに関しては、まれな本症に対して小児期から成人期へのシームレスなトランジション体制の構築を検討している。

臨床的特徴の検討では、2012-2020年の期間中に研究協力施設に通院中かつ*SLCO2A1*遺伝子変異を有することが確認されたCEAS患者を対象とし、消化管および消化管外の臨床徴候の頻度を調査した。

### (倫理面への配慮)

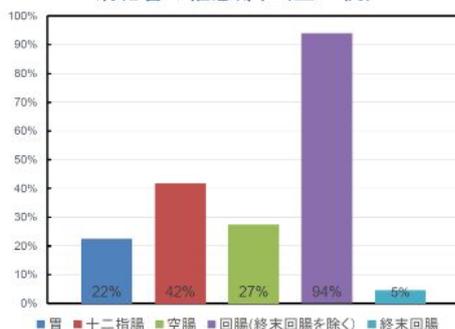
本研究は九州大学病院および研究協力施設の倫理委員会の承認を得たうえで行った。全ての試料についてはインフォームド・コンセントを行い、文書での同意を得た上で採取または使用した。また「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」に沿って遺伝子解析を行った。

## C. 研究結果

診断基準(案)改訂では、*SLCO2A1*遺伝子検査が、かずさDNA研究所で、保険適応外で行っていただく見通しとなり、検査制度の質も向上すると思われる。将来は保険診療内で行われるようになることが望まれる。遺伝子検査が可能になることにより、診断基準案改定案を作成する予定である。

データベースに関しては、現データベースの充実を行っている。本症の臨床的特徴を本年度までのデータベースより記す(図1)。

図1 消化管の罹患部位(全67例)



対象は68例(男性23例,女性44例)であり、蛋白の機能異常をもたらすと推測される16種類の*SLCO2A1*遺伝子変異が確認された。発症時年齢の中央値は19歳(1-69歳)であり、血族結婚は27%に認められた。貧血はほぼ全例にみられたが、肉眼的血便を認めたのは2例のみであった。35例(53%)において小腸切除など外科的手術が施行されていた。ほぼ全例で終末回腸を除く回腸に潰瘍性病変がみられ、42%に十二指腸病変が見られた。

消化管外徴候(図2)として、ばち指を16例(24%)、骨膜症を15/63例(5%)、皮膚肥厚所見を13例(20%)に認めた。臨床徴候を性別に分け比較したところ、胃病変は女性に多くみられ、ばち指、骨膜症および皮膚肥厚性変化は男性において有意に多くみられた。

トランジションに関しては、小児炎症性腸疾患のトランジションに関する資料<sup>3, 4)</sup>を参考に検討している。小児期からのトランジション先の施設としては、難治性腸管障害班の施設が望ましいと考えられ、まれな本症に対して小児期から成人期へのシームレスなトランジション体制の構築を検討している。

図2 CEASの消化管外徴候(全67例)

消化管外徴候	例数	割合
骨格系異常		
ばち指	16例	(24%)
骨膜症(X線評価)	15/63例	(24%)
先端骨髄解症(X線評価)	3/63例	(5%)
大関節痛	11例	(17%)
膝関節液貯留	4例	(6%)
皮膚異常		
多汗症	6例	(9%)
皮膚肥厚	13例	(20%)
脂漏性皮膚炎	5例	(8%)
尋常性ざ瘡	7例	(10%)
顔面紅潮	8例	(12%)
発達異常		
動脈管開存	1例	(1%)
頭蓋骨縫合遅延	0例	(0%)

## D. 考察

遺伝学的に確定診断されたCEAS68例を対象とした本検討から、既報<sup>5)</sup>と同様に本症は女性に多いこと(男女比 1:2)、貧血は必発するが肉眼的血便はほぼみられないこと、CRPは比較的低値であることが確認された。従来、本症は若年で発症するとされており、本検討における発症時年齢の中央値も19歳と若年であったが、その範囲は1~69歳と幅広く症例によって発症時期が大きく異なることが示唆された。

CEAS患者68例中16例(23%)にばち指、骨膜症や皮膚肥厚といった肥厚性皮膚骨膜症の所見が確認され、そのうち男性6例では肥厚性皮膚骨膜症の3主徴を全て有していた。つまり、CEASと肥厚性皮膚骨膜症はいずれも*SLCO2A1*遺伝子変異を原因とした疾患であり、一部の症例

では両疾患の臨床徴候を併せ持つことが確認された。また、両疾患は通常性差のない常染色体劣性遺伝形式を示す遺伝病であるにも関わらず、CEASは女性に多く、肥厚性皮膚骨膜炎は男性に多くみられること、さらに今回の検討において胃病変は女性に多く、ばち指、骨膜炎、皮膚肥厚などの肥厚性皮膚骨膜炎の臨床徴候は男性に多くみられたことを考慮すると、両疾患の臨床徴候の発現には、性染色体や性関連ホルモンなど*SLC02A1*遺伝子変異以外の修飾因子が強く関与する可能性が推測された。

診断基準案改定により、より高精度に本症の診断がなされると思われる。データベース作成と充実により、消化管病変の特徴的所見に加え、腸管外徴候を有する可能性があることや臨床徴候に性差があることもCEASの重要な特徴と考えられた。小児慢性特定疾病と指定難病の登録資料の統一は行われており、診断基準案改定、トランジションの手引書作成、小児期から成人期へのスムーズなトランジション体制の構築により、専門医師による充実したフォローアップ体制が確立され、患者のQOL向上に貢献できるものと考えられる。

## E . 結論

本研究班での3つの取り組み、診断基準案の改定、データベースの作成と充実、トランジション体制の確立に関して、プロジェクトの進捗状況を述べた。

## 参考文献

- 1) Umeno J, Hisamatsu T, Esaki M, Hirano A, Kubokura N, Asano K, Kochi S, Yanai S, Fuyuno Y, Shimamura K, Hosoe N, Ogata H, Watanabe T, Aoyagi K, Ooi H, Watanabe K, Yasukawa S, Hirai F, Matsui T, Iida M, Yao T, Hibi T, Kosaki K, Kanai T, Kitazono T, Matsumoto T. A Hereditary Enteropathy Caused by Mutations in the *SLC02A1* Gene, Encoding a Prostaglandin Transporter. *PLoS Genet* 11:e1005581, 2015
- 2) Uchida K, Nakajima A, Ushijima K, Ida S, Seki Y, Kakuta F, Abukawa D, Tsukahara H, Maisawa SI, Inoue M, Araki T, Umeno J, Matsumoto T, Taguchi T. Pediatric-onset Chronic Nonspecific Multiple Ulcers of Small Intestine: A Nationwide Survey and Genetic Study in Japan. *J Pediatr Gastroenterol Nutr*. 2017 Apr;64(4):565-568.

- 3) Kumagai H, Kudo T, Uchida K, Kunisaki R, Sugita A, Ohtsuka Y, Arai K, Kubota M, Tajiri H, Suzuki Y, Shimizu T. Transitional care for inflammatory bowel disease: A survey of Japanese pediatric gastroenterologists. *Pediatr Int*. 2021 Jan;63(1):65-71.
- 4) Kumagai H, Kudo T, Uchida K, Kunisaki R, Sugita A, Ohtsuka Y, Arai K, Kubota M, Tajiri H, Suzuki Y, Shimizu T. Adult gastroenterologists' views transitional care: Results from a survey. *Pediatr Int*. 2019 Aug;61(8):817-822.
- 5) Umeno J, Esaki M, Hirano A, Fuyuno Y, Ohmiya N, Yasukawa S, Hirai F, Kochi S, Kurahara K, Yanai S, Uchida K, Hosomi S, Watanabe K, Hosoe N, Ogata H, Hisamatsu T, Nagayama M, Yamamoto H, Abukawa D, Kakuta F, Onodera K, Matsui T, Hibi T, Yao T, Kitazono T, Matsumoto T; CEAS study group. Clinical features of chronic enteropathy associated with *SLC02A1* gene: a new entity clinically distinct from Crohn's disease. *J Gastroenterol*. 53:907-915, 2018.

## F . 研究発表

1. 論文発表
- 1) Sonoda A, Wada Y, Togo K, Mizukami K, Fuyuno Y, Umeno J, Fujioka S, Fukuda K, Okamoto K, Ogawa R, Okimoto T, Murakami K. Characteristic Facial Appearance Was the Key to Diagnosing Chronic Enteropathy Associated with *SLC02A1*-Associated Primary Hypertrophic Osteoarthropathy: A Case Report. *Intern Med*. 59(4)・491-494・2020
- 2) Tsuzuki Y, Aoyagi R, Miyaguchi K, Ashitani K, Ohgo H, Yamaoka M, Ishizawa K, Kayano H, Hisamatsu T, Umeno J, Hosoe N, Matsumoto T, Nakamoto H, Imaeda H Chronic Enteropathy Associated with *SLC02A1* with Pachydermoperiostosis *Intern Med* 59(24)・3147-3154・2020
- 3) Nakanishi T, Nakamura Y, Umeno J. Recent advances in studies of *SLC02A1* as a key regulator of the delivery of prostaglandins to their sites of action. *Pharmacol Ther* [Epub ahead of print] 2021

- 4) 梅野淳嗣, 江崎幹宏, 松本主之 非特異性多発性小腸潰瘍症(CEAS)の病態と特徴 日本消化器内視鏡学会雑誌 62(8)・1457-1466・2020
- 5) 梅野 淳嗣, 冬野 雄太, 鳥巢 剛弘 非特異性多発性小腸潰瘍症 (chronic enteropathy associated with SLC02A1 gene) IBD Research 14(4)・236-242・2020

## 2. 学会発表

- 1) 内田 恵一, 井上 幹大, 小池 勇樹, 松下航平, 重盛 恒彦, 市川 崇, 大井 正貴, 山 裕二, 荒木 俊光, 田口 智章, 楠 正人. 非特異性多発性小腸潰瘍症の遺伝子解析と外科治療. 第120回日本外科学会定期学術集会. 東京. 2020. 08, (Web発表)
- 2) Umeno J, Fuyuno Y, Torisu T, Hirano A, Esaki M, Yanai S, Ohmiya N, Hisamatsu T, Watanabe K, Hosoe N, Ogata H, Hirai F, Hisabe T, Matsui T, Yao T, Kitazono T, Matsumoto T, CEAS Study Group: A nationwide survey of chronic enteropathy associated with SLC02A1 gene in Japan. 15th Congress of European Crohn's and Colitis Organisation. Vienna, Austria, 2020, 2
- 3) 梅野 淳嗣, 冬野 雄太, 鳥巢 剛弘. 小腸疾患の病態解明と治療の進歩 非特異性多発性小腸潰瘍症(CEAS)の臨床徴候. 第106回日本消化器病学会総会. 広島. 2020, 8. (紙上発表)

- 4) 梅野 淳嗣, 冬野 雄太, 鳥巢 剛弘, CEAS study group. 非特異性多発性小腸潰瘍症 (CEAS) の病変部位と臨床・遺伝学的要因の関連. 第99回 日本消化器内視鏡学会総会. 京都. 2020, 9. (Web発表)
- 5) 梅野 淳嗣, 冬野 雄太, 松野 雄一, 鳥巢 剛弘, 江崎 幹宏, 北園 孝成, 松本 主之, CEAS study group. 非特異性多発性小腸潰瘍症の診断における遺伝子検査の現状. 第11回日本炎症性腸疾患学会学術集会. 2020, 12. (Web発表)

## G. 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

## 総排泄腔遺残症・外反症・MRKH症候群

加藤 聖子 九州大学大学院医学研究院 教授

木下 義晶 新潟大学大学院医歯学総合研究科 教授

浅沼 宏 慶應義塾大学医学部泌尿器科学教室 准教授

江頭 活子 九州大学大学病院 助教

### 【研究要旨】

先行研究により総排泄腔遺残・総排泄腔外反については、全国調査で概要が把握され、小児慢性特定疾患、難病指定を達成することができ、2017年にガイドラインの策定がなされた。本疾患群はバリエーションがあるために多診療科、多職種が長期に関わる包括的オーダーメイド型診療が必要である。今後、患者一人一人の状況をさらに細かく把握し、適切な治療を提供するためには前向きレジストリー構築が必要である。本研究ではレジストリーの構築、診療科間の情報共有、患者・市民への啓発活動を行うことを目的とする。

### A．研究目的

本研究では政策研究班としてレジストリーの構築、診療科間の情報共有、患者・市民への啓発活動などを目的として研究を行う。

### B．研究方法

現存の学会・研究会保有の登録制度を利用したレジストリー構築、あるいは難病プラットフォームなど公的支援制度を活用したレジストリー構築の検討を行う。  
診療科間の情報共有の手段として他研究グループとの情報交換、学会間の連携、共同シンポジウムなどを行う。  
市民公開講座などの啓発活動を行う。

#### （倫理面への配慮）

本研究は申請者各の施設の倫理委員会の承認の元に実施する。  
情報収集は患者番号で行い患者の特定ができないようにし、患者や家族の個人情報の保護に関して十分な配慮を払う。  
また、患者やその家族のプライバシーの保護に対しては十分な配慮を払い、当該医療機関が遵守すべき個人情報保護法および臨床研究に関する倫理指針に従う。

### C．研究結果

#### 前向きレジストリーの構築

- 現存の学会・研究会保有の登録制度を利用したレジストリー構築などを検討し、直腸肛門奇形研究会運営委員会へ相談した。登録例を同研究会の二次的研究として二次調査をする方法などを検討。
- 一方で情報の収集方法や悉皆性の担保など難しいことなどがあるため、全数登録を目指すよりは必要な情報を集めることも検討することとした。
- 患者さんからの情報収集  
交流会などで直接コンタクトをとれる患者さんから例えば月経流出路の障害などについてこれまでどのような手術を、どのような時期にされたのか、どのようなことが困っているか、などの情報を医療者からという視点でなく患者さん自身から得る。

#### 診療科間の情報共有

- 学術集会
  - ◇ 第29回日本小児泌尿器科学会総会・学術集会でショートレクチャー
  - ◇ 2021年第109回日本泌尿器科学会総

会/第58回日本小児外科学会でJoint sessionとして予定

- ◇ 第67回日本小児保健協会学術集会 (2020年11月4-6日 久留米)  
総排泄腔遺残症患者の体験 - “終わらない病気”をもつ女性として生きる -  
林下里見、他 九州大学大学院保健学専攻看護学分野

➤ 刊行物

日本女性医学会雑誌

- 「女性の一生を診る」(加藤聖子)
  - 「総排泄腔遺残症診療における小児外科医の取り組み」(木下義晶)
  - 「総排泄腔遺残症の長期的管理における泌尿器科医の役割」(浅沼宏)
- 泌尿器科
- 「先天性難治性稀少泌尿生殖器疾患の診療指針」(木下義晶)

➤ 性分化疾患の手術とその予後に関する実態調査

令和元年～2年度日本産科婦人科学会女性ヘルスケア委員会(委員長 加藤聖子)の中に「性分化疾患の診療の実態調査に関する小委員会」を設置した。総排泄腔遺残症も含めて、性分化疾患の手術とその予後に関する実態調査を行う準備を進めている。

- ◇ 日本小児外科学会へ協力を依頼することとし、協力依頼や質問紙案を作成した。

- ◇ 小委員長所属施設(岡山大学)で「総排泄腔遺残症、Mayer-Rokitansky-Küster-Hauser(MRKH)症候群の診療における小児外科と産婦人科との連携についての研究」として審査中。今後、日産婦の倫理委員会へ審査を依頼する予定。

➤ 研究分担者施設からの報告

総排泄腔遺残症術後、28歳の妊娠・出産に関する実例報告。

患者・市民への情報提供手段

➤ 「総排泄腔症交流会」

- 第1回:2019年5月4日(福岡市)
- 第2回:2019年10月19日(福岡市)
- 第3回:2020年6月27日(Zoomを用いたオンライン形式)

➤ 「市民公開講座」

2021年2月27日(土)予定

第1部 Zoom Webinar 市民公開講座

総排泄腔遺残症の病態・治療について

座長:田口智章(学校法人福岡学園福岡医療短期大学学長)

演者:木下義晶(新潟大学大学院小児外科学分野教授)

総排泄腔遺残症の管理における産婦人科医の役割

座長:大賀正一(九州大学大学院成長発達医学分野教授)

演者:加藤聖子(九州大学大学院医学研究院婦人科産科教授)

総排泄腔遺残症患者が必要とする支援について -セクシュアリティ外来での取り組みを中心に -

座長:濱田裕子(九州大学大学院保健学部門看護学分野准教授)

演者:佐保美奈子(大阪府立大学大学院看護学研究科准教授)

第2部 Zoom Webinar

ランチオンセミナー12:00~12:20

「いつかお子さまと性的話をするために...」

座長:宮田潤子(九州大学大学院医学研究院保健学部門講師)

演者:川田紀美子(九州大学大学院医学研究院保健学部門准教授)

第3部 Zoom meeting

オンライン交流会13:00~15:00

総排泄腔の関連疾患をお持ちの方とそ  
のご家族、医療関係者の交流会

D. 考察

新規レジストリー構築については直腸肛門研究会のレジストリーとの連携が可能か会議に出席し検討を行ったが、悉皆性や検討項目の不十分さなどの問題点もあるため、班研究で登録項目などをさらに検討し、同研究会との連携を継続しつつ、一方で全数登録を目指すよりは必要な情報を集めることへの方向転換を検討している。診療科間の情報共有については近年、小児外科系、泌尿器科系、産婦人科系の学会や研究会において特別講演やシンポジウムで取り上げられることが多くなり、有意義な情報共有の場となっている。また現在実態調査も行う準備を進めている。2020年度は患者交流会や、市民公開講座が積極的に行われ、全国的な患者のネッ

トワークや情報の共有網の整備が進んでいる。

## E. 結論

新規レジストリー構築、診療科間の情報共有、患者会・市民公開講座などの啓発活動などについて目的とする成果をあげている。

## F. 研究発表

- 論文発表
- 加藤 聖子  
会長講演；女性の一生を診る  
日本女性医学学会雑誌．27(4)：529-532, 2020
- 城戸 咲  
<シンポジウム1：総排泄腔遺残症管理への産婦人科の役割>  
周産期医療における総排泄腔遺残  
日本女性医学学会雑誌．27(4)：557-561, 2020
- 木下 義晶  
総排泄腔遺残症診療における小児外科医の取り組み  
日本女性医学学会雑誌．27(4)：562-567, 2020
- 木下 義晶  
先天性難治性稀少泌尿生殖器疾患の診療指針  
泌尿器科．12(2)：212-220, 2020
- 浅沼 宏  
総排泄腔遺残症の長期的管理における泌尿器科医の役割  
日本女性医学学会雑誌．27(4)：571-576, 2020
- 浅沼 宏  
性分化疾患と環境的要因  
泌尿器科．12(2)：118-124, 2020
- 浅沼 宏  
当院における総排泄腔遺残症に対する協同手術  
小児外科．52(3)：271-275, 2020
- 浅沼 宏  
泌尿器科医として習得したい手術 急性陰囊症 どんな場合に手術が必要か?どのような手術をすべきか?  
臨床泌尿器科．74(7)：472-477, 2020
- 浅沼 宏  
泌尿器腫瘍  
小児外科．52(5)：480-485, 2020
- 浅沼 宏  
治療法の再整理とアップデートのために 専門家による私の治療 停留精巣・精巣捻

転症

日本医事新報．5015:49-51, 2020

## 2. 学会発表

- 磯邊 明子, 友延 尚子, 蔵本 和孝, 河村 圭子, 濱田 律雄, 宮崎 順秀, 江頭 活子, 加藤 聖子, 水本 真夕, 遠藤 祐子  
一般演題(口演)；ARTにより妊娠・分娩に至った総排泄腔遺残症術後患者の1例  
第65回日本生殖医学会学術講演会・総会(オンデマンド配信)2020年12月3-23日
- 加藤 聖子  
座長；ワークショップ14 ミュラー管発生異常における内視鏡手術  
第60回日本産科婦人科内視鏡学会学術講演会(WEB)2020年12月14日-28日
- 江頭 活子  
ワークショップ；当科におけるミュラー管発生異常の手術について  
第60回日本産科婦人科内視鏡学会学術講演会(WEB)2020年12月14日-28日
- 木下 義晶, 小林 隆, 荒井 勇樹, 大山 俊之, 横田 直樹, 斎藤 浩一  
Monti-Malone法にて順行性浣腸路の再造設を行った1例  
第34回日本小児ストーマ・排泄創傷管理研究会(誌上開催)2020年6月13日
- 浅沼 宏
- 精巣捻転症の啓発活動：男子高校生の認識調査と学校講義での取り組み  
第108回日本泌尿器科学会総会, 2020.12.22
- 浅沼 宏  
Bottom-up approachによる単孔式腹膜前腔鏡下尿管管切除術  
第34回日本泌尿器内視鏡学会総会, 2020.11.19
- 浅沼 宏  
AYA世代になり外科的介入を要した先天性腎尿路異常(CAKUT)の臨床的検討  
第17回泌尿器科再建再生研究会, 2020.9.5
- 浅沼 宏  
慶應義塾大学病院 性分化疾患(DSD)センターの発足と取り組み  
第63回日本形成外科学会総会・学術集会, 2020.8.26
- 浅沼 宏  
Klippel-Trenaunay-Weber症候群に膀胱内リンパ管腫を合併し経尿道的凝固焼灼術を繰り返して施行している1例
- 第632回日本泌尿器科学会東京地方会, 2020.2.21

- 12) 浅沼 宏  
先天性副腎皮質過形成に対する女児外陰形成術  
第5回内分泌アゴラ, 2020.1.31
- 13) 林下里見、濱田裕子、宮田潤子、藤田紋佳、森口晴美  
総排泄腔遺残症患者の体験 - “終わらない病  
気”をもつ女性として生きる -  
第67回日本小児保健協会学術集会 (2020年  
11月4-6日 久留米)
- 14) 林下里見、濱田裕子、宮田潤子  
国内外における総排泄腔遺残症患者・家族  
の体験、看護支援に関する文献レビュー  
日本小児看護学会第29回学術集会 (2019年8  
月3~4日 札幌)

#### G . 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

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患政策研究事業）

分担研究報告書

## 難治性下痢症

虫明 聡太郎 近畿大学奈良病院小児科 教授  
新井 勝大 国立成育医療研究センター器官形態系内科部 診療部長  
工藤 孝広 順天堂大学小児科 准教授  
水落 建輝 久留米大学医学部小児科 講師  
虻川 大樹 宮城県立こども病院総合診療科・消化器科 副院長

### 【研究要旨】

本年度の研究では、令和元年度に作成した『難治性下痢症の診断アルゴリズムとその解説』、およびその『簡易版』を出版・公開するために日本小児栄養消化器肝臓学会ガイドライン委員会に審査を仰ぎ、「当学会が承認するガイドラインとしてふさわしいが、若干の検討を要する」との評価を得た。これに基づいて、内容の修正加筆を行って改訂版を作成した。

### A．研究目的

本研究では小児慢性特定疾病の疾病分類「12．慢性消化器疾患」の大分類「1．難治性下痢症」を対象としており、それには8項目の告示疾病が含まれている。しかし、それらはいわゆる「難病」の要件を満たす疾病ではなく、むしろそこに含まれない疾病の中に一次性、成因不明でかつ難治で成人期に移行しうる希少疾患、すなわち“特発性難治性下痢症”があること、そしてこれを定義して診断方法を確立し、将来難病指定すべきであることをこれまでの研究で明らかにしてきた。我々が着手している『難治性下痢症診断アルゴリズム』の作成は、“特発性難治性下痢症”を定義し、臨床的に診断するためのツールとして重要であるため、学会の承認を得てこれを出版・公開することを目的としている。また、これに該当する症例の登録と、将来の成因解明に繋げていくことを目的としている。

### B．研究方法

日本小児栄養消化器肝臓学会ガイドライン委員会による評価を受け、指摘のあった項目について再度検討し、加筆修正を行った。

(倫理面への配慮)

本研究は大阪府立母子医療センターにおける倫理審査を経てその承認を得て施行している。また、CCDに関しては久留米大学、および原発性免疫不全症に関しては九州大学大学院医学研究院における倫理審査を経てその承認を得て行っている。

### C．研究結果

「難治性下痢症診断アルゴリズムおよびその解説」に“胆汁酸性下痢症”の項目を追加した。

同疾患解説に“カイロミクロン停滞症”を追加した。

“Bacterial overgrowthをきたす背景疾患”の解説文を加筆修正した。

“便中電解質の測定について”の記載を追加した。

“水素呼吸試験”の解説図を更新した。

“D-キシロース吸収試験”に関する記載を追加した。

セリアック病に関する記載を追加した。

参考文献を追加した。

上記修正に基づき、「難治性下痢症診断アルゴリズム」を改訂した。

その他、日本小児栄養消化器肝臓学会ガイドライン委員会による査読において指摘の

あった部分について、それぞれ回答し、加筆修正を行った。

添付資料（添付するPDFファイル）

- 資料 1 . IDI診断アルゴリズムver.5
- 資料 2 . IDIアルゴリズムとその解説ver.5
- 資料 3 . IDI診断アルゴリズム簡易版
- 資料 4 . IDI診断アルゴリズム解説文簡易版

#### D . 考察

慢性かつ難治の下痢という症候を呈する症例の中には、未診断例や根本治療がないために長期にわたり中心静脈栄養による補助栄養を必要とする症例が存在する。この乳幼児・小児の慢性下痢についてその病態を系統的に分類し、的確な診断に至らしめるアルゴリズムを示すことは日常診療において有用であるとともに、成因を特定できない難治症例を“特発性難治性下痢症”という疾患単位として認知するための指標となる。

特発性難治性下痢症の患者は成人期に移行して難病として医療政策上の補助を受けるべき対象となり得る。したがって、特発性難治性下痢症の客観的な診断基準（又はそれに準ずるもの）を確立してこれを指定難病とすることは重症、難症、かつ成人期に移行する患者が適正に医療補助を受けられるようにすることを可能にするものであるため、本研究においてこれまで除外診断的病名であった特発性難治性下痢症を定義し、診断方法を提示し、一般に公開して認知を得る意義は大きい。

#### E . 結論

これまで除外診断的病名であった特発性難治性下痢症を定義し、さらにその診断方法を作成した。本研究は今後本邦における成因不明の難治性下痢症例の集積と、新たな病因病態解明の基盤となる。

#### F . 研究発表

- 1. 論文発表
- 1) 虫明聡太郎：乳幼児の下痢症 難治性下痢症を含めて. 小児疾患診療のための病態生理 1 . 小児内科52(増刊号), 525-530, 2020.
- 2) 虫明聡太郎：病理検査 特集:小児の炎症性腸疾患. 小児内科52(9), 1210-1214, 2020.
- 3) 虻川大樹：小児潰瘍性大腸炎 特集:小児の炎症性腸疾患. 小児内科52(9), 1215-1222, 2020.
- 4) 新井勝大：小児Crohn病 特集:小児の炎症性腸疾患. 小児内科52(9), 1223-1229, 2020.

- 5) 工藤孝広：漢方治療の有効性と安全性 特集:小児の炎症性腸疾患. 小児内科52(9), 1227-1279, 2020.
- 6) Kudo T, Abukawa D, Nakayama Y, Segawa O, Uchida K, Jimbo K, Shimizu T. Nationwide survey of pediatric gastrointestinal endoscopy in Japan. J Gastroenterol Hepatol. 2020 Oct 31.
- 7) Miyata E, Kudo T, Ikuse T, Tokita K, Arai N, Oka I, Kyodo R, Sato M, Hosoi K, Jimbo K, Aoyagi Y, Ohtsuka Y, Shimizu T. Eradication therapy for Helicobacter pylori infection based on the antimicrobial susceptibility test in children: A single-center study over 12 years. Helicobacter. 2020 Oct 18:e12764. (Helicobacter. 2021 Feb;26(1):e12764)
- 8) Mizuochi T, Arai K, Kudo T, Nambu R, Tajiri H, Aomatsu T, Abe N, Kakiuchi T, Hashimoto K, Sogo T, Takahashi M, Etani Y, Takaki Y, Konishi KI, Ishihara J, Obara H, Kakuma T, Kurei S, Yamashita Y, Mitsuyama K. Diagnostic accuracy of serum proteinase 3 antineutrophil cytoplasmic antibodies in children with ulcerative colitis. J Gastroenterol Hepatol. 2020 Oct 13.
- 9) Kashiwagi K, Jimbo K, Hosoi K, Miyano G, Kudo T, Yamataka A, Shimizu T. A novel segmental absence of intestinal musculature with small intestinal stenosis: a case report. BMC Gastroenterol. 2020 Aug 17;20(1):272.
- 10) Ikuse T, Toda M, Kashiwagi K, Maruyama K, Nagata M, Tokushima K, Ito N, Tokita K, Kyodo R, Hosoi K, Jimbo K, Kudo T, Shimizu T. Efficacy of Helicobacter pylori Eradication Therapy on Platelet Recovery in Pediatric Immune Thrombocytopenic Purpura-Case Series and a Systematic Review. Microorganisms. 2020 Sep 23;8(10):E1457.
- 11) Kyodo R, Kudo T, Horiuchi A, Sakamoto T, Shimizu T. Pureed diets containing a gelling agent to reduce the risk of aspiration in elderly patients with moderate to severe dysphagia: A randomized, crossover trial. Medicine (Baltimore). 2020 Jul 31;99(31):e21165.
- 12) Kudo T, Arai K, Uchida K, Tajiri H, Hokari R, Suzuki Y, Shimizu T. Very early-onset inflammatory bowel disease in Japan: A nationwide survey. J Gastroenterol Hepatol. 2020 Jun 12. (2021 Jan;36(1):151-155.)
- 13) Kudo T, Fujii T, Maisawa SI, Sasaki M, Uchida K, Ida S, Kagimoto S, Yoden A, Shimizu T. A

- Multicenter Prospective Survey on Early-Onset Inflammatory Bowel Disease in Japan. *Digestion*. 2020 May 18:1-9.
- 14) Kumagai H, Kudo T, Uchida K, Kunisaki R, Sugita A, Ohtsuka Y, Arai K, Kubota M, Tajiri H, Suzuki Y, Shimizu T. Transitional Care for IBD: A Survey of Japanese Pediatric Gastroenterologists. *Pediatr Int*. 2020 Jul 4.
- 15) Mizuochi T, Arai K, Kudo T, Nambu R, Tajiri H, Aomatsu T, Abe N, Kakiuchi T, Hashimoto K, Sogo T, Takahashi M, Etani Y, Takaki Y, Konishi KI, Ishihara J, Obara H, Kakuma T, Kurei S, Yamashita Y, Mitsuyama K. Antibodies to Crohn's disease peptide 353 as a diagnostic marker for pediatric Crohn's disease: a prospective multicenter study in Japan. *J Gastroenterol*. 2020 May;55(5):515-522.
- 16) Yabe K, Horiuchi A, Kudo T, Horiuchi I, Ichise Y, Kajiyama M, Tanaka N. Risk of Gastrointestinal Endoscopic Procedure-Related Bleeding in Patients With or Without Continued Antithrombotic Therapy. *Dig Dis Sci*. 2020 Jun 16.
- 17) 松本主之, 新井正美, 岩間達, 櫻田博史, 工藤孝広, 小泉浩一, 佐藤康史, 関根茂樹, 田中信治, 田中屋宏爾, 田村和朗, 平田敬治, 深堀優, 江崎幹宏, 石川秀樹, 岩間毅夫, 岡崎康司, 斎藤豊, 松浦成昭, 武藤倫弘, 富田尚裕, 秋山卓士, 山本敏樹, 石田秀行, 中山佳子. 小児・成人のための若年性ポリポーシス症候群診療ガイドライン(2020年版). *遺伝性腫瘍* 2020;20:79-92.
- 18) 工藤孝広, 岩間達, 清水泰岳. IBDクリニカルカンファレンス(第6回) E2からE4へと罹患範囲が進展し合併症により治療が難渋したUCの13歳男児. *IBDクリニカルカンファレンス* 2020;2:41-51.
- 19) 京戸玲子, 工藤孝広. 【知っておきたい小児分野の医療機器】各論 医療機器の仕組みと効果 検査機器 消化器内視鏡. *小児内科* 2020;52:526-530.
- 20) Fujisaki T, Matsuishi T, Kamizono J, Amamoto M, Mizuochi T. Crohn's disease and chronic recurrent multifocal osteomyelitis in a Japanese boy. *Pediatr Int*. 2020 Dec 27. doi: 10.1111/ped.14370. Online ahead of print.
- 21) Konishi KI, Mizuochi T, Takeuchi I, Arai K, Yamamoto K. Congenital chloride diarrhea in a Japanese neonate with a novel SLC26A3 mutation. *Pediatr Int* 2020;62:1294-1296.
- 22) Sakaguchi H, Shirakawa T, Mizuochi T. Ischemic colitis in an infant with constipation treated with stimulant laxative. *JGH Open* 2020;4:1012-1013.  
Konishi KI, Mizuochi T, Honma H, Etani Y, Morikawa K, Wada K, Yamamoto K. A novel de novo SLC26A3 mutation causing congenital chloride diarrhea in a Japanese neonate. *Mol Genet Genomic Med* 2020;8:e1505.
- 23) 津村直弥, 水落建輝, 坂口廣高, 加藤健, 石原潤, 石井隆大, 山下裕史朗. 当院における小児機能性ディスぺプシアの臨床像. *日児栄消肝誌* 2020;34:71-15.
- 24) 星雄介, 伊藤貴伸, 本間貴士, 角田文彦, 蛇川大樹: Ball valve syndromeを呈した Peutz-Jeghers症候群の小児例. *日本小児栄養消化器肝臓学会雑誌* 34(1):1-6, 2020
- 25) Uchiyama K, Haruyama Y, Shiraishi H, Katahira K, Abukawa D, Ishige T, Tajiri H, Uchida K, Uchiyama K, Washio M, Kobashi E, Maekawa A, Okamoto K, Sairenchi T, Imamura Y, Ohhira S, Hata A, Kobashi G. Association between Passive Smoking from the Mother and Pediatric Crohn's Disease: A Japanese Multicenter Study. *Int J Environ Res Public Health* 17(8):2926-2935, 2020
- 26) Uchida T, Suzuki T, Kikuchi A, Kakuta F, Ishige T, Nakayama Y, Kanegane H, Etani Y, Mizuochi T, Fujiwara S, Nambu R, Suyama K, Tanaka M, Yoden A, Abukawa D, Sasahara Y, Kure S. Comprehensive Targeted Sequencing Identifies Monogenic Disorders in Patients With Early-onset Refractory Diarrhea. *J Pediatric Gastroenterol Nutr* 71(3):333-339, 2020
- 27) Taniguchi K, Inoue M, Arai K, Uchida K, Migita O, Akemoto Y, Hirayama J, Takeuchi I, Shimizu H, Hata K. Novel TNFAIP3 microdeletion in a girl with infantile-onset inflammatory bowel disease complicated by a severe perianal lesion. *Hum Genome Var*. 2021 Jan 14;8(1):1.
- 28) Arai K. Very early-onset inflammatory bowel disease: A challenging field for pediatric gastroenterologists. *Pediatr Gastroenterol Hepatol Nutr*. 2020 Sep;23(5):411-422.  
Shimizu H, Arai K, Takeuchi I, Minowa K, Hosoi K, Sato M, Oka I, Kaburaki Y, Shimizu T. Long-term durability of infliximab for pediatric ulcerative colitis: a retrospective data review in a tertiary children's hospital in

Japan. *Pediatr Gastroenterol Hepatol Nutr.* 2020 Aug 18.

- 29) Arai K, Kunisaki R, Kakuta F, Hagiwara S, Murakoshi T, Yanagi T, Shimizu T, Nakayama Y, Ishige T, Aomatsu T, Inoue M, Saito T, Iwama I, Kawashima H, Kumagai H, Tajiri H, Iwata N, Mochizuki T, Noguchi A, Kashiwabara T, Shimizu H, Suzuki Y, Hirano Y, Fujiwara T. Phenotypic characteristics of pediatric inflammatory bowel disease in Japan: results from a multicenter registry. *Intest Res.* 2020 Aug 18.
- 30) Takeuchi I, Kawai T, Nambu M, Migita O, Yoshimura S, Nishimura K, Yoshioka T, Ogura M, Kyodo R, Shimizu H, Ito S, Kato M, ONODERA M, Hata K, Matsubara Y, Arai K. X-linked inhibitor of apoptosis protein deficiency complicated with Crohn's disease-like enterocolitis and Takayasu arteritis: A case report. *Clinical Immunology.* 2020
- 31) Takeuchi T, Arai K, Kyodo R, Sato T, Tokita K, Hirano Y, Shimizu H. Ustekinumab for Children and Adolescents with Inflammatory Bowel Disease at a Tertiary Children's Hospital in Japan. *J Gastroenterol Hepatol.* 2020 Jun 4. Online ahead of print.
- 32) Watanabe K, Tanida S, Inoue N, Kunisaki R, Kobayashi K, Nagahori M, Arai K, Uchino M, Koganei K, Kobayashi T, Takeno M, Ueno F, Matsumoto T, Mizuki N, Suzuki Y, Hisamatsu T. Evidence-based Diagnosis and Clinical Practice Guidelines for Intestinal Behçet's Disease 2020 Edited by Intractable Diseases, the Health and Labour Sciences Research Grants. *J Gastroenterol.* 2020 May 7
- 33) Yoshida M, Takeuchi I, Shoji K, Miyairi I, Arai K. *Bacillus Calmette-Guérin Cervical Lymphadenitis in a 6-Year-Old Boy on Infliximab for Inflammatory Bowel Disease.* *Pediatr Infect Dis J.* 2020 Apr 27.
- 34) Takeuchi I, Kaburaki Y, Arai K, Shimizu H, Hirano Y, Nagata S, Shimizu T. Infliximab for very early-onset inflammatory bowel disease: A tertiary center experience in Japan. *J Gastroenterol Hepatol.* 2020 Apr;35(4):593-600

## 2. 学会発表

- 1) 工藤孝広、細井賢二、幾瀬圭、神保圭佑、清水俊明. 当院における小児科医による小児消化器内視鏡. 第3回小児消化器内視鏡

医育成のための研究会. 2020年5月24日.

- 2) 工藤孝広、神保圭佑、清水泰岳、岩間達、石毛崇、水落建輝、新井勝大、熊谷秀規、内田恵一、虻川大樹、清水俊明. 小児潰瘍性大腸炎に対する青黛を含有する漢方薬の使用実態調査. 第47回日本小児栄養消化器肝臓学会 WEB開催 2020年10月23日.
- 3) 工藤孝広、伊藤夏希、時田万英、新井喜康、丘逸宏、京戸玲子、佐藤真教、細井賢二、幾瀬圭、神保圭佑、大塚宜一、清水俊明. 迅速便中カルプロテクチン検査の有用性の検討. 第47回日本小児栄養消化器肝臓学会 WEB開催 2020年10月23日.
- 4) 工藤孝広、神保圭佑、清水泰岳、岩間達、石毛崇、水落建輝、新井勝大、熊谷秀規、内田恵一、虻川大樹、清水俊明. 小児期発症炎症性腸疾患に対する青黛の使用調査. 第10回日本炎症性腸疾患学会学術集会 WEB開催 2020年12月5日.
- 5) 水落建輝, 新井勝大, 工藤孝広, 南部隆亮, 田尻 仁, 青松友槻, 阿部直紀, 垣内俊彦, 橋本邦生, 十河 剛, 高木祐吾, 小西健一郎, 石原 潤, 山下裕史朗. 小児潰瘍性大腸炎の診断における血清PR3-ANCAの有用性: 前方視的多施設研究. 第123回日本小児科学会学術集会. 2020.8.21-23 (Web, 京都)
- 6) 石原 潤, 水落建輝, 新井勝大, 工藤孝広, 南部隆亮, 田尻 仁, 青松友槻, 阿部直紀, 垣内俊彦, 橋本邦生, 十河 剛, 坂口廣高, 小西健一郎, 山下裕史朗. 本邦の小児炎症性腸疾患における血清亜鉛・セレン値の検討: 後方視的多施設研究. 第123回日本小児科学会学術集会. 2020.8.21-23 (Web, 京都)
- 7) 小西健一郎, 水落建輝, 柳 忠宏, 渡邊順子, 大久保一宏, 大賀正一, 丸山秀彦, 竹内一朗, 関根裕司, 増田 敬, 菊池信行, 四本由郁, 大塚泰史, 田中秀典, 位田忍, 山下裕史朗. 本邦における先天性クローラ下痢症の遺伝子像: 全国多施設研究. 第123回日本小児科学会学術集会. 2020.8.21-23 (Web, 京都)
- 8) 坂口廣高, 水落建輝, 石原 潤, 小西健一郎, 白川利彦, 中嶋有美子, 森内浩幸, 山下裕史朗. 高度の機能性便秘症で刺激性下剤使用中に発症した虚血性大腸炎の1歳例. 第123回日本小児科学会学術集会. 2020.8.21-23 (Web, 京都)
- 9) 山本翠香, 水落建輝, 坂口廣高, 石原潤, 小西健一郎, 山下裕史朗. 当院の小児

- 炎症性腸疾患に対する生物学的製剤/免疫調節剤の使用状況．第123回日本小児科学会学術集会．2020.8.21-23 (Web, 京都)
- 10) 大津生利衣, 安田亮輔, 加藤 健, 白濱裕子, 坂口廣高, 石原 潤, 水落建輝．当院の小児炎症性腸疾患におけるチオプリン製剤の用量非依存性副作用の臨床像．第47回日本小児栄養消化器肝臓学会．2020.10.23-25 (Web, 東京)
  - 11) 山川祐輝, 坂口廣高, 加藤 健, 白濱裕子, 安田亮輔, 石原 潤, 水落建輝．当院の小児炎症性腸疾患におけるメサラジン不耐症の臨床像．第47回日本小児栄養消化器肝臓学会．2020.10.23-25 (Web, 東京)
  - 12) 安田亮輔, 加藤 健, 白濱裕子, 坂口廣高, 石原 潤, 水落建輝．当院における炎症性腸疾患の診断後に治療中断に至った小児例の臨床像．第47回日本小児栄養消化器肝臓学会．2020.10.23-25 (Web, 東京)
  - 13) 石原 潤, 加藤 健, 白濱裕子, 安田亮輔, 坂口廣高, 秋葉 純, 水落建輝．当院における小児機能性ディスペプシアの消化管内視鏡所見と病理像．第47回日本小児栄養消化器肝臓学会．2020.10.23-25 (Web, 東京)
  - 14) 星雄介, 梅津有紀子, 伊藤貴伸, 本間貴士, 角田文彦, 虻川大樹, 塩畑健, 佐々木美香, 米沢俊一：頻回の内視鏡的ポリープ切除を要したBannayan-Riley-Ruvalcaba症候群の1例．第123回日本小児科学会学術集会, Web開催, 2020年8月22日．
  - 15) 星雄介, 梅津有紀子, 伊藤貴伸, 本間貴士, 角田文彦, 虻川大樹, 塩畑健, 佐々木美香, 米沢俊一：頻回の内視鏡的ポリープ切除により臨床症状の改善が得られたBannayan-Riley-Ruvalcaba症候群の1例．第47回日本小児栄養消化器肝臓学会, Web開催, 2020年10月24日・25日．
  - 16) 平野友梨, 板橋道朗, 斎藤武, 内田恵一, 井上幹大, 新井勝大, 石原寛子, 鬼澤理沙, 水口恵美子, 平山敦大, 荒木謙太郎, 木村英明, 国崎玲子：大腸全摘出を受けた潰瘍性大腸炎患者の手術に対する心理的受容の検討．第11回日本炎症性腸疾患学会学術集会, オンライン, 2020.12.5
  - 17) 京戸玲子, 竹内一朗, 清水泰岳, 秦健一郎, 中尾佳奈子, 鳴海覚志, 新井勝大：Dual Oxidase 2 遺伝子の新規変異が同定された超早期発症型炎症性腸疾患の一例．第11回日本炎症性腸疾患学会学術集会, オンライン, 2020.12.5
  - 18) 石毛崇, 新井勝大, 工藤孝広, 江口英孝, 竹内一朗, 西澤拓哉, 神保圭佑, 岡崎康司, 清水俊明：遺伝子学的情報と結びついた早期発症型炎症性腸疾患レジストリシステムの構築．第28回日本消化器関連学会週間JDDW 2020 KOBE, 2020.11.5-11.8
  - 19) 柏木項介, 藤川皓基, 宇佐美雅章, 竹内一朗, 清水泰岳, 新井勝大：慢性肉芽腫性関連消化管病変の内視鏡検査所見の検討．第47回日本小児栄養消化器肝臓学会, 東京, 2020.10.24
  - 20) 平野友梨, 清水泰岳, 竹内一朗, 新井勝大：思春期の炎症性腸疾患患者におけるQOLおよびメンタルヘルスの縦断的調査研究．第47回日本小児栄養消化器肝臓学会, 東京, 2020.10.24
  - 21) 竹内一朗, 京戸玲子, 清水泰岳, 宇佐美雅章, 藤川皓基, 柏木項介, 新井勝大：全エクソーム解析では診断に至らなかったIL-10シグナル異常を呈する超早期発症型炎症性腸疾患の女児2例．第47回日本小児栄養消化器肝臓学会, 東京, 2020.10.24
  - 22) 宇佐美雅章, 竹内一朗, 京戸玲子, 平野友梨, 柏木項介, 藤川皓基, 清水泰岳, 新井勝大：国立成育医療研究センターにおける超早期発症型炎症性腸疾患の臨床的検討．第47回日本小児栄養消化器肝臓学会, 東京, 2020.10.24
  - 23) 内田恵一, 熊谷秀規, 清水俊明, 工藤孝広, 国崎玲子, 杉田昭, 大塚宜一, 新井勝大, 窪田満, 田尻仁, 鈴木康夫：小児IBD患者のトランジションについてのアンケート調査．第57回日本小児外科学会学術集会, 東京, 2020.9.20
  - 24) 虻川大樹, 新井勝大, 日本小児栄養消化器肝臓学会小児IBD治療指針2019改訂ワーキンググループ：小児の診療ガイドライン-Up To Date-小児炎症性腸疾患治療指針(2019年)．第123回日本小児科学会学術集会, 兵庫, 2020.8.22
  - 25) 丘逸宏, 竹内一朗, 清水泰岳, 伊藤夏希, 宇佐美雅章, 佐藤琢郎, 清水俊明, 新井勝大：学童期の小児IBD患者におけるカプセル内視鏡の小腸通過時間に影響を与える因子の検討．第13回日本カプセル内視鏡学会学術集会, 兵庫, 2020.2.9
  - 26) 熊谷秀規, 清水俊明, 工藤孝広, 内田恵一, 国崎玲子, 杉田昭, 大塚宜一, 新井勝大, 窪田満, 田尻仁, 鈴木康夫：小児期発症炎症性腸疾患患者のトランジション．第16回日本消化器学会総会学術集会, 兵庫,

2020.2.7

- 27) 石毛崇, 新井勝大, 工藤孝広, 神保圭佑, 竹内一朗, 西澤拓哉, 清水俊明: VEO-IBD(早期発症型炎症性腸疾患)における遺伝子解析を通じたIBD病態解明と新規治療の開発. 第16回日本消化管学会総会学術集会, 兵庫, 2020.2.7
  - 28) 平野友梨, 野村智実, 清水泰岳, 竹内一朗, 田中恭子, 新井勝大: 思春期IBD患者におけるQOLの低下とメンタルヘルスの障害について調査研究. 第16回日本消化管学会総会学術集会, 兵庫, 2020.2.7
  - 29) 丘逸宏, 宮寄治, 竹内一朗, 清水泰岳, 伊藤夏希, 宇佐美雅章, 佐藤琢郎, 清水俊明, 新井勝大: 小児IBD患者のMR-enterographyにおける拡散強調画像とADC mapの臨床的有用性の検討. 第16回日本消化管学会総会学術集会, 兵庫, 2020.2.7
  - 30) 宇佐美雅章, 竹内一朗, 京戸玲子, 平野友梨, 伊藤夏希, 佐藤琢郎, 清水泰岳, 新井勝大: 当センターにおける小児期発症クローン病に合併する成長障害のリスク因子と治療の検討. 第16回日本消化管学会総会学術集会兵庫, 2020.2.7
  - 31) 石毛崇, 村越孝次, 国崎玲子, 萩原真一郎, 清水泰岳, 齋藤武, 中山佳子, 柳忠宏, 井上幹大, 熊谷秀規, 岩間達, 望月貴博, 田尻仁, 平野友梨, 新井勝大: 日本小児IBDレジストリ報告2020 小児クローン病治療の経時的変化. 第20回日本小児IBD研究会, 神奈川, 2020.2.2
  - 32) 竹内一朗, 清水泰岳, 京戸玲子, 佐藤琢郎, 宇佐美雅章, 伊藤夏希, 平野友梨, 新井勝大: 小児期発症クローン病患者に対するウステキヌマブの使用経験. 第20回日本小児IBD研究会, 神奈川, 2020.2.2
  - 33) 平野友梨, 板橋道朗, 齋藤武, 内田恵一, 井上幹大, 新井勝大, 平山敦大, 木村英明, 国崎玲子: 思春期に大腸全摘術を受けた潰瘍性大腸炎患者の手術に対する心理的受容の検討. 第20回日本小児IBD研究会, 神奈川, 2020.2.2
  - 34) 新井勝大, 田中正則, 清水泰岳, 明本由衣, 竹内一朗, 義岡孝子: 超早期発症型炎症性腸疾患の病理組織所見の検討. 第20回日本小児IBD研究会, 神奈川, 2020.2.2
- 石毛崇, 新井勝大, 工藤孝広, 江口英孝, 竹内一朗, 西澤拓哉, 神保圭佑, 岡崎康司  
清水俊明: 国内における遺伝性炎症性腸疾患疑い症例の診断体制構築のための研究. 第20回日本小児IBD研究会, 神奈川, 2020.2.2

#### G. 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

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患政策研究事業）

分担研究報告書

## 仙尾部奇形腫

田尻 達郎 京都府立医科大学大学院医学研究科小児外科学 教授

白井 規朗 大阪母子医療センター小児外科 部長

文野 誠久 京都府立医科大学大学院医学研究科小児外科学 学内講師

### 【研究要旨】

本研究は、乳児仙尾部奇形腫の長期予後に関する全国アンケート調査を、研究代表者所属施設である本学の医学倫理審査を経て実施するものである。本研究の先行研究で仙尾部奇形腫に対する診療ガイドラインの確立と情報公開が行われ、長期合併症（後遺症）として、再発、悪性転化や排便障害、排尿障害、下肢の運動障害などが欧米からの報告で決して少なくないことが判明した。しかし、本邦での明確な長期予後については本疾患の希少性から各施設での経験症例はそれほど多くはないため、これまでまとまった報告はほとんどない。そのため、本調査においては全国の本症の長期的な予後の現状を把握する事を目的とし、今後の治療成績の向上およびフォローアップのあり方を検討し、ひいては政策医療に反映できるかを模索する。現在調査実施中である。

### A．研究目的

仙尾部奇形腫は、仙骨の先端より発生する奇形腫で、臀部より外方へ突出または骨盤腔内・腹腔内へ進展し、充実性から嚢胞性のものまで様々な形態をとりうる。尾骨の先端に位置する多分化能を有する細胞（Hensen's node）を起源としており、内胚葉、中胚葉、外胚葉すべての胚葉由来の成分を含む腫瘍と定義されている。3胚葉由来の成分を含むため、骨・歯牙・毛髪・脂肪・神経組織・気道組織・消化管上皮・皮膚などあらゆる組織を含むことがある。本来は良性腫瘍であり予後良好ととらえられがちだが、ときに巨大腫瘍となり胎児心不全やDICなどの重篤な症状を呈する症例もあり、周産期治療の成績向上により患児の長期生存が得られるようになった現在になって、遠隔期合併症が臨床クローズアップされるようになってきている（Masahata K, et al: *Pediatr Surg Int*, 2020）。

本研究は、令和2年度厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患政策研究事業）「難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究」（代表 福岡短期

大学 田口智章）のなかの、仙尾部奇形腫グループ（研究代表者 田尻達郎）としての学術活動であり、乳児仙尾部奇形腫の長期予後に関する全国アンケート調査を、研究代表者所属施設である本学の医学倫理審査を経て実施するものである。本研究の先行研究である「小児期からの希少難治性消化管疾患の移行期を包含するガイドラインの確立に関する研究」（H26-難治等（難）-一般-045）のなかで、全国で初めての仙尾部奇形腫に対する診療ガイドラインの確立と情報公開が行われた（Fumino S, et al: *Pediatr Int*, 2019）。そのなかで、クリニカルクエスションとして、長期合併症（後遺症）が挙げられ、再発、悪性転化や排便障害、排尿障害、下肢の運動障害などが欧米からの報告で決して少なくないことが判明した。しかし、本邦での明確な長期予後については本疾患の希少性から各施設での経験症例はそれほど多くはないため、これまでまとまった報告はほとんどない。そのため、本調査においては全国の本症の長期的な予後の現状を把握する事を目的とし、今後の治療成績の向上およびフォローアップのあり方を検討し、ひいては政策医療に反映でき

るかを模索する。

さらに、ヨーロッパ小児外科学会（EUPSA）による仙尾部奇形腫再発の国際調査（EUPSA retrospective sacrococcygeal teratoma study）が2020年より進行中であり、調査協力の依頼があったため、本試験ではEUPSA studyの調査項目も織り込み、アンケート回収後に匿名化されたデータをEDC（Castor）を通して提供予定である。

## B．研究方法

本研究では、国内日本小児外科学会認定施設・教育関連施設（A・B）の本症症例に対するアンケート調査（後ろ向き研究）を行う。2000年1月1日～2019年12月31日の期間に治療を受け、生後180日以上生存を確認できた乳児仙尾部奇形腫症例で、国内日本小児外科学会認定施設・教育関連施設にて外来フォロー中の患者を対象とし、各施設における診療録などの既存資料から、下記の調査項目を含む質問用紙に、個人情報情報を匿名化したうえで記入していただき、データを収集する。

依頼状および一次調査票（ハガキ）を日本小児外科学会認定施設・教育関連施設に郵送し、かつ京都府立医科大学小児外科ホームページ上で公開する。データ管理・集計は京都府立医科大学小児外科にて行う。

一次調査票を通じて具体的な症例数を把握し、二次調査の参加意思を確認する。

参加可能施設に、二次調査用紙を郵送し回答していただく。

調査項目：

- ・症例の概要（出生日、性別、在胎週数、出生体重、出生前診断、腫瘍最大径、診断日or日齢、病型（Altman分類）、合併奇形、クラリーノ症候群の有無、特記事項）
- ・手術項目（手術日or日齢、術前画像検査、手術施行施設、治療種類、手術アプローチ、手術の種類、病理診断、仙尾部奇形腫に対する再手術の有無、特記事項）
- ・予後（最終転帰確認日（死亡日）、転機/退院状況、就労・就学状況、最終転機確認時後遺症（排便障害、排尿障害、下肢運動障害、中枢神経障害、創醜形、性機能障害、再発、再発診断日or日齢、再発診断方法、再発時病理診断、再発時治療種類、特記事項）

（倫理面への配慮）

本研究は既存の診療情報からの情報を匿名化したうえで収集する後方視的研究であり、介入や

侵襲も伴わない。そのため、研究代表者施設で医学研究倫理審査を受け、オプトアウトを掲示・掲載することで各施設の倫理審査は不要とする。

## C．研究結果

アンケート調査用紙の作成：対象症例数を調査する一次調査票、および上記評価項目およびEUPSA調査項目を盛り込んだ二次調査票の作成を行った（資料1，2）。二次調査の内容は、32項目の調査でチェックボックスを多用しており、なるべく入力負担を軽減できるよう配慮した。

EUPSAへの調査協力は、Castor ECDシステムを使用するため、EUPSAとData transfer agreementを取り交わした（資料3）。また、試験的に研究代表者施設の症例について入力を行った。

日本小児外科学会に全国規模の学術アンケート調査申請を行い、承認を得た。

研究代表者施設である京都府立医科大学の医学研究倫理審査委員会に倫理審査を申請し、承認を得た。

一次調査票を国内日本小児外科学会認定施設・教育関連施設（A・B）計192施設に送付し、現在回答を収集中である。

仙尾部奇形腫のガイドラインや予後の広報のため、著書や総説の執筆を行った。

）田尻達郎，文野誠久：仙尾部奇形腫胎児疾患と胎児治療-病態生理，診断・治療のすべて。メディカ出版，大阪：pp267-271，2020。（資料4）

）文野誠久，田尻達郎：【そこが知りたいシリーズ：手術に必要な局所解剖（腹壁・後腹膜・泌尿器・腫瘍編）】仙尾部奇形腫。小児外科，52：1123-1125，2020。（資料5）

## D．考察

仙尾部奇形腫は、周産期治療の成績向上により患児の長期生存が得られるようになった現在になって、遠隔期合併症の存在などが臨床クローズアップされるようになってきた。仙尾部奇形腫に関する診断治療ガイドラインは公開されたものの、我が国における本症の長期予後の実態はこれまで調査されておらず詳細は不明である。本研究により国内での長期予後を明らかにすることで、ガイドラインの次期改訂に寄与

し、仙尾部奇形腫の診療において小児期・移行期・成人期にわたる診療提供体制を構築することを最終目標としている。

## E . 結論

なし

## F . 研究発表

1. 論文発表
  - 1) Uemura M, Higashi M, Pattarapanawan M, Takami S, Ichikawa N, Higashiyama H, Furukawa T, Fujishiro J, Fukumura Y, Yao T, Tajiri T, Kanai-Azuma M, Kanai Y: Gallbladder wall abnormality in biliary atresia of mouse Sox17 +/- neonates and human infants. *Dis Model Mech*, 13: dmm042119, 2020. doi: 10.1242/dmm.042119.
  - 2) Tando S, Sakai K, Takayama S, Fukunaga K, Higashi M, Fumino S, Aoi S, Furukawa T, Tajiri T, Ogi H, Itoh K: Maldevelopment of intrapulmonary bronchial cartilage in congenital diaphragmatic hernia. *Pediatr Pulmonol*, 55: 1771-1780, 2020. doi: 10.1002/ppul.24799.
  - 3) Tanaka T, Amano H, Tanaka Y, Takahashi Y, Tajiri T, Tainaka T, Shirota C, Sumida W, Yokota K, Makita S, Tani Y, Hinoki A, Uchida H: Safe diagnostic management of malignant mediastinal tumors in the presence of respiratory distress: a 10-year experience. *BMC Pediatrics*, 20: 292, 2020. doi: 10.1186/s12887-020-02183-w.
  - 4) Hiyama E, Hishiki T, Watanabe K, Ida K, Ueda Y, Kurihara S, Yano M, Hoshino K, Yokoi A, Takama Y, Nogami Y, Taguchi T, Mori M, Kihira K, Miyazaki O, Fuji H, Honda S, Iehara T, Kazama T, Fujimura J, Tanaka Y, Inoue T, Tajiri T, Kondo S, Oue T, Yoshimura K: Outcome and Late Complications of Hepatoblastomas Treated Using the Japanese Study Group for Pediatric Liver Tumor 2 Protocol. *J Clin Oncol*, 38: 2488-2498, 2020. doi: 10.1200/JCO.19.01067.
  - 5) Iehara T, Yoneda A, Kikuta A, Muraji T, Tokiwa K, Takahashi H, Teramukai S, Takimoto T, Yagyu S, Hosoi H, Tajiri T; Japan Children's Cancer Group Neuroblastoma Committee: A phase II JN-I-10 efficacy study of IDRF-based surgical decisions and stepwise treatment intensification for patients with intermediate-risk neuroblastoma: a study protocol. *BMC Pediatr*, 20: 212, 2020. doi: 10.1186/s12887-020-02061-5.
  - 6) Nozawa A, Ozeki M, Yasue S, Endo S, Kawamoto N, Ohnishi H, Fumino S, Furukawa T, Tajiri T, Maekawa T, Fujino A, Souzaki R, Fukao T: Immunologic Effects of Sunitinib in Patients With Vascular Anomalies. *J Pediatr Hematol Oncol*, 42: e355-e360, 2020. doi: 10.1097/MPH.0000000000001650.
  - 7) Kuwahara Y, Iehara T, Ichise E, Katsumi Y, Ouchi K, Tsuchiya K, Miyachi M, Konishi E, Sasajima H, Nakamura S, Fumino S, Tajiri T, Johann PD, FrÜhwald MC, Yoshida T, Okuda T, Hosoi H: Novel Two MRT Cell Lines Established from Multiple Sites of a Synchronous MRT Patient. *Anticancer Res*, 40: 6159-6170, 2020. doi: 10.21873/anticancer.14636.
  - 8) Hishiki T, Matsumoto K, Ohira M, Kamiyo T, Shichino H, Kuroda T, Yoneda A, Soejima T, Nakazawa A, Takimoto T, Yokota I, Teramukai S, Takahashi H, Fukushima T, Kaneko T, Hara J, Kaneko M, Ikeda H, Tajiri T, Nakagawara A; Japan Childhood Cancer Group Neuroblastoma Committee (JNBSG): Correction to: Results of a phase II trial for high-risk neuroblastoma treatment protocol JN-H-07: a report from the Japan Childhood Cancer Group Neuroblastoma Committee (JNBSG). *Int J Clin Oncol*, 25: 1744-1745, 2020. doi: 10.1007/s10147-020-01752-4.
  - 9) Yamoto M, Ohfuji S, Urushihara N, Terui K, Nagata K, Taguchi T, Hayakawa M, Amari S, Masumoto K, Okazaki T, Inamura N, Toyoshima K, Uchida K, Furukawa T, Okawada M, Yokoi A, Kanamori Y, Usui N, Tazuke Y, Saka R, Okuyama H; Japanese Congenital Diaphragmatic Hernia Study Group: Optimal timing of surgery in infants with prenatally diagnosed isolated left-sided congenital diaphragmatic hernia: a multicenter,

- cohort study in Japan. *Surg Today*, 2020, in press. doi: 10.1007/s00595-020-02156-7.
- 10) Masahata K, Usui N, Nagata K, Terui K, Hayakawa M, Amari S, Masumoto K, Okazaki T, Inamura N, Urushihara N, Toyoshima K, Uchida K, Furukawa T, Okawada M, Yokoi A, Okuyama H, Taguchi T: Risk factors for pneumothorax associated with isolated congenital diaphragmatic hernia: results of a Japanese multicenter study. *Pediatr Surg Int*, 36: 669-677, 2020. doi: 10.1007/s00383-020-04659-3.
  - 11) Fuyuki M, Usui N, Taguchi T, Hayakawa M, Masumoto K, Kanamori Y, Amari S, Yamoto M, Urushihara N, Inamura N, Yokoi A, Okawada M, Okazaki T, Toyoshima K, Furukawa T, Terui K, Ohfuji S, Tazuke Y, Uchida K, Okuyama H; Japanese Congenital Diaphragmatic Hernia Study Group: Prognosis of conventional vs. high-frequency ventilation for congenital diaphragmatic hernia: a retrospective cohort study. *J Perinatol*, 2020, in press. doi: 10.1038/s41372-020-00833-6.
  - 12) 田尻達郎, 文野誠久: 仙尾部奇形腫 胎児疾患と胎児治療-病態生理, 診断・治療のすべて. メディカ出版, 大阪: pp267-271, 2020.
  - 13) 米田光宏, 菱木知郎, 田尻達郎: 【小児がんプロフェッショナル養成講座-基礎編】固形腫瘍の外科治療. *小児外科*, 52: 429-433, 2020.
  - 14) 川久保尚徳, 菱木知郎, 田尻達郎, 田口智章: 【小児がんプロフェッショナル養成講座-基礎編】ゲノム医療の基礎. *小児外科*, 52: 460-463, 2020.
  - 15) 文野誠久, 田尻達郎: 【最新のリスク・重症度分類に応じた治療】神経芽腫. *小児外科*, 52: 627-630, 2020.
  - 16) 田尻達郎, 文野誠久: 【小児外科臨床研究の基本と展望】小児悪性固形腫瘍の臨床研究の現状と今後. *小児外科*, 52: 763-767, 2020.
  - 17) 文野誠久, 田尻達郎: 【そこが知りたいシリーズ: 手術に必要な局所解剖(腹壁・後腹膜・泌尿器・腫瘍編)] 仙尾部奇形腫. *小児外科*, 52: 1123-1125, 2020.
  - 18) 文野誠久, 田尻達郎: 【小児がん手術の問題点-わたしはここを重視している】腹部神経芽腫: 腎血管の保護とリンパ節郭清. *小児外科*, 52: 1245-1248, 2020.
  - 19) 青井重善, 古川泰三, 文野誠久, 坂井宏平, 出口英一, 岡佳伸, 内藤泰行, 田尻達郎: 当科で経験した総排泄腔外反症-教室42年間の治療の変遷-. *京府医大誌*, 129: 183-190, 2020.
  - 20) 瀧本篤朗, 井口雅史, 坂井宏平, 東真弓, 文野誠久, 青井重善, 古川泰三, 田尻達郎: 臍動脈索からの炎症波及が疑われた二次性虫垂炎の1例. *日小外会誌*, 56: 210-213, 2020. doi: 10.11164/jjsps.56.2\_1
  - 21) 三村和哉, 青井重善, 竹内雄毅, 坂井宏平, 東真弓, 文野誠久, 古川泰三, 田尻達郎: 診断に苦慮した腸間膜内ヘルニアの1例. *日小外会誌*, 56: 1088-1092, 2020. doi.org/10.11164/jjsps.56.7\_1088
  - 22) 鈴木健斗, 文野誠久, 古川泰三, 竹内雄毅, 竹本正和, 坂井宏平, 東真弓, 青井重善, 田尻達郎: Tension gastrothoraxをきたした遅発性横隔膜ヘルニア3例の検討. *日小外会誌*, 56: 1123-1127, 2020. doi.org/10.11164/jjsps.56.7\_1123
2. 学会発表
  - 1) Togashi Y, Takemoto M, Takeuchi Y, Tanaka T, Higashi M, Fumino S, Tajiri T: Anti-relapse effect of trametinib on a local minimal residual disease neuroblastoma mouse model. 53<sup>rd</sup> Pacific Association of Pediatric Surgeons (PAPS), 2020 Nov 8-12; web.
  - 2) Kambe K, Fumino S, Sakai K, Higashi M, Aoi S, Furukawa T, Tajiri T: Clinical predictive factors for gastroesophageal reflux requiring fundoplication after repair of esophageal atresia. 53<sup>rd</sup> Pacific Association of Pediatric Surgeons (PAPS), 2020 Nov 8-12; web.
  - 3) Fumino S, Suzuki K, Sakai K, Higashi M, Aoi S, Furukawa T, Tajiri T: Tension gastrothorax due to congenital diaphragmatic hernia. 53<sup>rd</sup> Pacific Association of Pediatric Surgeons (PAPS), 2020 Nov 8-12; web.
  - 4) 文野誠久, 田中智子, 坂井宏平, 東真弓, 青井重善, 古川泰三, 田尻達郎: 【パネルディスカッション 先天性胆道拡張症術後遠隔期の問題点と対策】小児先天性胆道

拡張症の術後遠隔期フォロー上の問題点．  
第120回日本外科学会定期学術集会，2020年  
8月15日；web．

- 5) 青井重善，古川泰三，文野誠久，坂井宏  
平，東 真弓，高山勝平，田尻達郎：  
【ワークショップ 重度染色体異常における  
外科治療】当科での重症染色体疾患に対す  
る外科治療経験．第82回日本臨床外科学会  
総会，2020年10月29～31日；web．
- 6) 文野誠久，高山勝平，青井重善，古川泰  
三，田尻達郎：【シンポジウム 小児固形腫  
瘍におけるQOLを重視した局所治療の工夫】  
小児巨大固形腫瘍に対する整容面に配慮し  
た鏡視補助下手術の工夫．第82回日本臨床  
外科学会総会，2020年10月29～31日；web．

G．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

## 短腸症

奥山 宏臣 大阪大学小児成育外科 教授

松浦 俊治 九州大学小児外科 准教授

仁尾 正記 東北大学小児外科 教授

### 【研究要旨】

本症の病態の本質は静脈輸液・栄養に依存する腸管吸収機能不全である。短小腸による高度の腸管吸収不全のため長期の中心静脈栄養が必須であり、さらに中心静脈栄養に関連する合併症を併発すれば多臓器不全へと進行し予後は極めて不良である。最重症例では小腸移植の適応となるが、移植医療の成績も限定的である。一方近年、残存腸管機能を最大限に活用し、中心静脈栄養に関連する合併症を軽減することを目的とした腸管リハビリテーションプログラムが提唱されており、欧米では既に多職種によって構成される腸管不全治療センターを中心とした診療体制が整っている。しかし、本邦における短腸症の診療は、個々の医師や単一診療科が中心となっており、腸管リハビリテーションプログラムは整備されておらず、それに基づいた適切な治療・管理も実践されていない。そこで、本邦における短腸症の現状を把握して、診療ガイドラインを作成し、短腸症の診療体制を構築することが喫緊の課題である。

### A．研究目的

短腸症の疫学調査、診療状況調査を実施して本邦での患者数や診療実態を明らかにして、患者登録制度を構築する。次に、疫学データと最新のエビデンスを集積することにより、本邦独自の短腸症診療ガイドラインを作成する。最後に、ガイドラインに基づいた腸管リハビリテーションプログラムを作成し、本邦における短腸症の診療体制を整備へと繋げることを目的とする。これらの取り組みから、本邦における短腸症の治療成績やQOLの向上を図る。

### B．研究方法

短腸症は2015年に小児慢性特定疾患に認定された。さらに本年11月には日本外科代謝栄養学会にて成人を含めた短腸症の診断基準・重症度分類が承認され、難治性疾患政策研究事業の「難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究」と連携して指定難病の申請を準備中である。このように短腸症が一つの疾患として認知されつつあ

る一方、短腸症の原因となる複数の病態が存在するため、これまで全国的な疫学調査は実施されていない。

主要施設を対象とした2020年の全国調査では、中心静脈栄養に依存している短腸症は166例であったが、発症機序が不明で根本的治療がないため、患者は年々増加傾向にあると推測される。本研究では学会承認された診断基準・重症度分類をもとに、本邦で初めての疫学調査を実施する。

この疫学データと最新のエビデンスから、本邦独自の短腸症診療ガイドラインを作成することに本研究の独自性がある。また合わせて行う診療実態調査から、短腸症診療拠点施設の整備や未承認薬の早期承認など、行政への提言も行っていく。

具体的には、

- 1．短腸症の疫学調査、診療状況調査
- 2．短腸症患者登録制度の構築
- 3．短腸症診療ガイドラインの作成
- 4．腸管リハビリテーションプログラムの作成

を行う。

#### (倫理面への配慮)

今年度の実績は短腸症診断基準・重症度基準の策定、指定難病の追加要望の提出、ガイドライン作成であるので倫理面への配慮は必要なかった。

次年度以降の疫学調査研究にあたっては、人を対象とする医学系研究に関する倫理指針に準拠して、倫理審査を行う予定である。

#### C. 研究結果

##### 1. 短腸症診断基準・重症度基準の策定

「短腸症」の診断基準および重症度区分を作成し、日本外科代謝栄養学会で承認を受けた。

(添付資料1)

##### 2. 指定難病の追加要望の提出

令和3年度実施分の疾病追加要望書類を作成し厚生労働省 難病対策課に提出済み。

##### 3. ガイドライン作成に向けた、スコープ作成、CQ設定・文献検索

静脈栄養依存度の高い短腸症にみられる種々の臓器障害や重症感染症の原因は不明であり、個々の病態に対する根本的な治療法は確立されていない。そのため短腸症に関連する種々の病態に対しては、対症療法が中心であり、エビデンスに基づく標準治療は確立されていなかった。しかし近年、諸外国における腸管リハビリテーションプログラムの広まりとともに、短腸症診療における種々のエビデンスが積み重ねられつつある。こうした背景のもとで、これまで諸外国を中心に報告されてきたエビデンスやガイドラインを参考にして、難治性疾患政策研究班「難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究」の短腸症担当グループ内で協議して、スコープを作成して、下記クリニカルクエスチョン(CQ)案を設定し、文献検索を行った。

CQ1. 静脈栄養(PN)依存度を下げするために早期経腸栄養法は有効か？

CQ2. PN依存度を下げするために外科的治療は有効か？

CQ3. PN依存度を下げために薬物療法は有効か？

CQ4. PNに関連する合併症(カテーテル関連血流感染/肝機能障害)を減らすために何が有効か？

CQ5. PN離脱を検討するために必要な評価項目は何か？

CQ6. 多職種による腸管リハビリテーショ

ンプログラムは予後を改善するか？

< CQの重要性・臨床的意義 >

CQ1. 静脈栄養(PN)依存度を下げするために経腸栄養法は有効か？

大量腸管切除後の短腸症の早期においては経腸栄養が積極的に選択される。しかし慢性の腸管吸収不良症候群における経腸栄養の有効性は不明である。急性期および慢性期における経腸栄養の有効性について、その投与経路および経腸栄養剤の選択とPN依存性の低下の有無を検討する。このCQの解決により、PN依存性の短腸症における有効な経腸栄養の導入とそれによるPN依存性の低下が期待される。

CQ2. PN依存度を下げために外科的治療は有効か？

短腸症においては腸管蠕動低下による嘔吐・腸管拡張・うっ滞性腸炎、腸管蠕動亢進による下痢・脱水の双方が出現する。そのため、個々の症状に対して外科的治療が選択される。しかし外科的手術(手術方法)に関する検討は少なく、短腸症におけるPN依存性の低下に関する効果は不明である。外科的治療の有効性について、手術方法(腸管連続性の確立、腸管延長術、小腸移植など)によるPN依存性の低下の有無を検討する。このCQ解決により、有効な手術方法の選択によるPN依存性の低下が期待される。

CQ3. PN依存度を下げために薬物療法は有効か？

短腸症においては腸管蠕動低下による嘔吐・腸管拡張・うっ滞性腸炎、腸管蠕動亢進による下痢・脱水の双方が出現する。そのため、個々の症状に対して複数の薬物療法が選択されるが、その効果は不明なものが多い。それぞれの薬剤(プロバイオティクス、成長ホルモン、消化管ホルモン、止痢剤、制酸剤など)に関するエビデンスを集積し、その有用性を検討する。このCQ解決により、有効な薬物療法の選択によるPN依存性の低下が期待される。

CQ4 . PNに関連する合併症（カテーテル関連血流感染 / 肝機能障害）を減らすために何が有効か

PN 依存性の短腸症における重症な合併症として、カテーテル関連血流感染および肝機能障害がある。これらの合併は生命予後の低下に大きく関与し、患者の QOL を低下させる。カテーテル関連血流感染に対するエタノールロックや taurolock の有効性については議論が分かれている、また、肝機能障害に対する  $\alpha$ -3 系脂肪製剤や  $\alpha$ -3 /  $\alpha$ -6 系脂肪製剤は欧米ですでに標準使用されているが、本邦ではいまだ未承認薬である。これらの有効性に関するエビデンスを集積する。この CQ の解決により、合併症の低下を目指した未承認薬の認可にもつながり、PN 依存性の短腸症における合併症の回避による QOL の改善が期待される。

CQ5 . PN離脱を検討するために必要な評価項目は何か？

PN 依存性の短腸症における種々の治療の有効性を評価方法は多様である。なかでも PN 依存性は患者の QOL を左右するため重要な予後因子であるが、この PN の減量や離脱を行うための評価方法は一定でない。小児においては成長因子も加わるためその PN の減量の時期の判断は難しい。短腸症における有効な治療後に可能となりうる PN の減量・離脱に関連する、適切な栄養評価方法（体重、ALb、シトルリンなど）を検討する。この CQ の解決により、PN 依存性の短腸症の種々の治療後に、PN を減量あるいは離脱可能と判断する指標が周知され、患者の QOL の改善が期待される。

CQ6 . 多職種による腸管リハビリテーションプログラムは予後を改善するか？

短腸症をはじめとした腸管不全に対しては、疾患に対する内科的・外科的治療に加え、定期的栄養評価や長期中心静脈カテーテル管理、合併症への対応や在宅医療との連携が必須であり、欧米を中心に多職種による腸管リハビリテーションプログラムが実践されている。こうした腸管リ

ハビリテーションプログラムの有用性に関するエビデンスを集積することは、今後我が国で短腸症をはじめとした腸管不全の診療体制を構築する上で、極めて有益な情報をもたらすことが期待できる。

以上の、CQについて現在PIC0を設定し、協議の上、文献検索を開始している。

#### D . 考察

欧米では短腸症に対する腸管リハビリテーションプログラムが確立され、診療体制も整備されつつある。一方、本邦では診療ガイドラインは作成されておらず、診療体制も確立されていない。また診療拠点となる施設も整備されておらず、症例の集約化も進んでいない。このように短腸症に対する診療は、諸外国に比較して立ち遅れており、最新のエビデンスに基づいた適切な治療が提供されていない。

本邦においても、2020年の調査で腸管不全治療センターとしての活動を開始した施設が3施設ある。当院でも2020年4月に設立したが、患者を集計すると、内訳は小児科5例・小児外科30例・消化器外科13例で、小児外科がトランジション症例を多く診療していた。また疾患内訳は、短腸症20例、機能性腸閉塞12例、難治性下痢7例、ヒルシュスプルング病術後1例、炎症性腸疾患術後13例等、専門性の高い難病が多く、また短腸症および機能性腸閉塞などでは患者年齢が2~34歳、3~32歳と幅が広いため、包括的に単科で支援することが難しいことが課題であった。そのため、多職種で腸管リハビリテーションとして取り組むことの必要性が示唆された。

#### E . 結論

本研究の疫学調査により、本邦における短腸症の現状が初めて明らかになる。さらに本研究により作成されたガイドラインを基に、多職種による腸管リハビリテーションプログラムが広まり、短腸症患者の生命予後やQOLの改善が期待できる。また、拠点施設を整備することにより症例の集約化が進み、人材育成やさらなるエビデンスの創出につながる。

#### F . 研究発表

##### 1. 論文発表

- 1) 奥山宏臣 「腸管リハビリテーション Update」 腸管リハビリテーション：総説 外科と代謝・栄養 54(6) 217-220 Journal、2020

- 2) 金森 豊、渡辺稔彦 「腸管リハビリテーションUpdate」 腸内細菌叢コントロールと腸管リハビリテーション 外科と代謝・栄養 54(6) 221-228 Journal、2020
  - 3) 武藤 充、加治 建、矢野圭輔、大西峻、山田和歌、Lim DW、長野綾香、松井まゆ、松久保眞、Turner JM、Wales PW、家入里志 「腸管リハビリテーションUpdate」 腸管順応促進ホルモン - ペプチド成長因子を用いた短腸症候群の治療について 外科と代謝・栄養 54(6) 229-233 Journal、2020
  - 4) 田附裕子、上野豪久、奥山宏臣 「腸管リハビリテーションUpdate」 中心静脈カテーテル管理 外科と代謝・栄養 54(6) Journal、2020
  - 5) 加治 建、大西 峻、矢野圭輔、長野綾香、松井まゆ、杉田光土郎、春松敏夫、山田耕嗣、山田和歌、松久保眞、武藤 充、家入里志 「腸管リハビリテーションUpdate」 腸管関連肝障害：脂肪乳剤 外科と代謝・栄養 54(6) 241-244 Journal、2020
  - 6) 増本幸二 「腸管リハビリテーションUpdate」 外科治療：腸管延長術 外科と代謝・栄養 54(6) 245-249 Journal、2020
  - 7) 和田 基 「腸管リハビリテーションUpdate」 腸管リハビリテーションの一環としての小腸移植の現状と課題 外科と代謝・栄養 54(6) 251-255 Journal、2020
  - 8) 田附裕子 在宅感染症対策 中心静脈カテーテルの管理 難病と在宅ケア 26(7) 44-46 Journal、2020
  - 9) 上野豪久 【臓器移植の現状と展望】小腸移植(解説/特集) 日本外科学会雑誌 121(2) 190-195 Journal、2020
  - 10) 上野豪久 空腸、回腸、盲腸、結腸、直腸(上) 吸収不良・蛋白漏出 短腸症(解説/特集) 【消化管症候群(第3版)-その他の消化管疾患を含めて-】298-302 book、2020
  - 11) Chiba M, Yonekura T, Kaji T, Amai S, Tazuke Y, Oowari M, Obana K, Nakano M, Kuroda T, Fukumoto K, Yamane Y, Yoshino H, Hebiguchi T, Toki A Ethanol lock therapy in pediatric patients: A multicenter prospective study Pediatric International 62(3) 379-385 Journal、2020
2. 学会発表
- 1) 奥山宏臣 教育講演10 [未熟児の外科] 日本産科新生児学会学術集会(56) Web 11/28-30 L
  - 2) 奥山宏臣 小児腸管機能不全に対する腸管リハビリテーションの現状と課題 日本外科学会総会(120) 東京/WEB 8/13-15 S、2020
  - 3) 田附裕子、出口幸一、東堂まりえ、岩崎駿、阪 龍太、渡邊美穂、阿部 薫、田中寿江、奥山宏臣 胃瘻造設術後に発症した唇状瘻に対し保存的治療を行った2例 日本小児ストーマ・排泄・創傷管理研究会(34) 大分/誌上 6/13 0、2020
  - 4) 田附裕子、上野豪久、木村 武、別所一彦、水島恒和、渡部健三、阿部 薫、奥山宏臣 大阪大学における腸管リハビリテーションチームの立ち上げ 日本腸管リハビリテーション・小腸移植研究会(32) 大阪/WEB 8/8 WS、2020
  - 5) 田附裕子、上野豪久、木村 武、別所一彦、水島恒和、渡部健三、田中寿江、阿部 薫、古郷幹彦、松尾玲奈、奥山宏臣 大阪大学における腸管不全治療センターの発足と活動 日本移植学会(56) 秋田/WEB 11/1-30 WS、2020
  - 6) 田附裕子、上野豪久、阪 龍太、渡邊美穂、野村元成、出口幸一、奥山宏臣 大阪大学における腸管不全治療センターの立ち上げ 日本外科代謝栄養学会(57) 愛知/WEB 12/24 S、2020
  - 7) 田附裕子 ステージ1 栄養障害を知る！ 日本外科代謝栄養学会(57) 愛知/WEB 12/25 L、2020
  - 8) 上野豪久、東堂まりえ、岩崎駿、當山千巖、米山知寿、塚田遼、出口幸一、野村元成、阪龍太、渡邊美穂、田附裕子、別所一彦、奥山宏臣 脳死小腸移植後エベロリムスの使用経験 日本腸管リハビリテーション・小腸移植研究会(32) 大阪/WEB 8/8 0、2020
  - 9) 上野豪久、岡島英明、阪本靖介、松浦俊治、山田洋平、和田基 小腸移植と抗HLA抗体 日本移植学会総会(56) 秋田 11/1-30 S
  - 10) 上野豪久 腸管不全治療センター設立が目指すこと Intestinal Rehabilitation Centers of Excellence Expert Meeting 大阪 11/18 L、2020

#### G. 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

## 添付資料 1

### < 診断基準 >

Definite (確定診断) されたもののうち、多量の栄養素 (炭水化物・タンパク質・脂質・ビタミン・ミネラル) および水分の吸収不全により、中心静脈栄養を必要とする腸管吸収機能不全症候群を呈する、重症例 (註 2) を対象とする。

註 2) 重症例の定義は、重症度分類に記載。

### A. 短小腸の定義

1. 画像検査所見腸回転異常、小腸閉鎖、壊死性腸炎、ヒルシュスプルング病、腹壁異常などの先天性の腸疾患や外傷等の結果、小腸大量切除となったもの
2. 小腸の残存腸管が75cm未満であること (乳幼児期は小腸の残存腸管が30cm未満であること)
3. クロウン病、潰瘍性大腸炎を除外

附) 腸管長の測定について: 先天性短腸症については、消化管造影所見にて小腸長について評価を行う。手術症例では、手術中に測定した残存小腸長にて評価を行う。

### B. 症状

1. 継続的な中心静脈栄養への依存がある
2. 難治性の栄養吸収障害や難治性下痢を認める

### C. 鑑別診断

1. 腸回転異常、小腸閉鎖、壊死性腸炎、ヒルシュスプルング病、腹壁異常などの先天性の腸疾患や外傷等の小腸大量切除後の急性および一過性の栄養吸収障害や下痢 (重症度 ~ に相当する)
2. 炎症性腸疾患: クロウン病、潰瘍性大腸炎

### < 診断のカテゴリー >

Definite: A. の全ての項目 + B. の全ての項目を満たし、C. の鑑別すべき疾患を除外したもの

Probable: 該当なし

Possible: Definiteを満たすが、重症度 度のもの

### < 重症度分類 >

#### 1. 成人例:

重症度 度以上でかつ、静脈栄養を必要とすることにより、日常生活が著しく障害されており、かつ以下の小項目 (5項目) のうち、少なくとも1項目以上を満たすものを、重症例とする。

#### 【短腸症重症度評価】

##### 重症度:

- 度: 急性期: 腸管吸収機能不全に対し、中心静脈栄養を一過性に必要とする
- 度: 適応期: 腸管吸収機能不全が回復し、中心静脈栄養を離脱する見込みがある
- 度: 慢性期: 腸管吸収機能不全が遷延または悪化し、中心静脈栄養を離脱する見込みがない
  - a: 一部の栄養素あるいは水分の消化吸収機能障害を有するもの
  - b: 殆どの栄養素および水分の消化管吸収機能障害を有するもの

##### 小項目:

1. 静脈栄養への依存性が高く、あらゆる手段をもってしても離脱が期待できない
2. 中心静脈アクセスルートが減少している
3. 頻回なカテーテル関連血流感染症を来す
4. 肝障害や腎障害などを合併している
5. 難治性の下痢など著しいIQOLの低下

#### 2. 小児例 (18歳未満):

小児慢性特定疾病の状態の重症例を対象とする。(註 3)

(註 3) 静脈栄養を必要とすることにより、日常生活が著しく障害されており、かつ以下の5項目のうち、少なくとも1項目以上を満たすものを、重症例とする。

1. 静脈栄養への依存性が高く、あらゆる手段をもってしても離脱が期待できない
2. 中心静脈アクセスルートが減少している
3. 頻回なカテーテル関連血流感染症を来す
4. 肝障害や腎障害などを合併している
5. 難治性の下痢など著しいIQOLの低下

(日本外科代謝栄養学会で2020.11に承認済)

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患政策研究事業）

分担研究報告書

## 腹部リンパ管腫

藤野 明浩 国立成育医療研究センター臓器・運動器病態外科部外科 診療部長

木下 義晶 新潟大学医歯学系 准教授

野坂 俊介 国立成育医療研究センター放射線診療部 統括部長

研究協力者

小関 道夫 岐阜大学小児科 講師

上野 滋 岡村一心堂病院 非常勤医師

松岡 健太郎 東京都立小児総合医療センター検査科 部長

出家 亨一 北里大学一般・小児・肝胆膵外科学 助教

### 【研究要旨】

#### 【研究目的】

腹部リンパ管疾患分担班の目的は以下の点である。

1, 難病助成対象の拡大へ向けてデータの蓄積（令和4年度末）。2, 症例調査研究のまとめ（令和3年度末）。3, ガイドライン改訂（厚労科研秋田班中心の改訂作業の腹部リンパ管疾患を担当）（令和3年度末）。4, データベース利用及び拡充（オープン化、Radder-Jとの連結）（令和4年度末）。5, 医療・社会への情報還元（HP充実、シンポジウム開催）（令和4年度末）。

#### 【研究結果】

- 1, 現在難病指定されている顔面・頸部巨大リンパ管奇形の部位拡大により腹部病変を追加で指定することを提言してきたが、これまでは指定に至っていない。本年度は症例調査研究データのまとめ等を通して再び提言する準備を開始した。
- 2, 9月に日本小児外科学会学術集会にて「腹部リンパ管腫（リンパ管奇形）の臨床像について 全国調査の結果から」として概要の報告を行った(資料1)。現在論文化の準備中である。
- 3, 2017年に改訂発行した「血管腫・血管奇形・リンパ管奇形診療ガイドライン2017」の改訂版作成が厚労科研秋田班の統括にて開始された。前回と同様に腹部リンパ管疾患部を本研究班にて担当する。ガイドライン作成委員会が編成され、改訂ガイドラインで採用するCQが決定した。本チームでは2つCQを担当する。現在システムティック・レビューの準備中である。
- 4, データベースのオープン化に向けての準備について、本年度は報告すべき進捗はない。

5, これまで3回行った「小児リンパ管疾患シンポジウム」令和2年9月に開催する予定であったが、新型コロナウイルス感染拡大の社会状況を考慮し中止とした。HPの更新は適宜行っている。

### 【結論】

小児で大きな障害を生じうる腹部リンパ管疾患（リンパ管腫、リンパ管腫症・ゴーハム病、リンパ管拡張症等）についての多角的な研究が進められている。多くの課題で3年間の計画の1年目としての進捗を得たが、2年目以降に成果が出てくる見込みのものが多い。

#### A. 研究目的

- 1, 難病助成対象の拡大へ向けてデータの蓄積（令和4年度末）。
- 2, 症例調査研究のまとめ（令和3年度末）。
- 3, ガイドライン改訂（厚労科研秋田班中心の改訂作業の腹部リンパ管疾患を担当）（令和3年度末）。
- 4, データベース利用及び拡充（オープン化、Radder-Jとの連結）（令和4年度末）。
- 5, 医療・社会への情報還元（HP充実、シンポジウム開催）（令和4年度末）。

当分担研究は、主に小児において重篤な消化器通過障害、感染症、貧血、低タンパク症等を生じることがある疾患である、腹部（腹腔内、後腹膜）に病変をもつリンパ管疾患のリンパ管腫（リンパ管奇形）、リンパ管腫症・ゴーハム病、そして乳び腹水を研究対象としている。これらはいずれも稀少疾患であり難治性である。

2期前の研究班（田口班・臼井班・秋田班）にてこれらの疾患について現時点で得られる情報を集積し、診療ガイドラインを作成したが、ガイドラインに至らない多くの臨床課題が浮上した。それに対する回答を求める目的にて全国症例調査が2015年より行われており、その解析結果が待たれている。

また指定難病制度においては、当研究班における対象疾患への対象範囲の拡大が望ましいと考えられ、その提言のためのデータとして全国調査の結果をまとめ論文化することが重要な課題である。

本研究の対象疾患は難病として世界各国で研究者が取り組んでいる結果として、特定の遺伝子変異の存在を中心として最近急速に様々なこ

とが明らかになりつつある。一方、一般に得られる情報源が少ないことが患者団体より訴えられており、対応として我々は疾患のウェブサイトを運営したり、シンポジウムを開催したりしてきた。これらは研究の進捗に従い、さらに押し進めることが望ましいと考えられ、恒常的に続けている。

また治療においては、新たな有効性が期待される薬の治験が始まり、当研究班で構築し維持しているデータベースをこれに生かすことを模索している。

先にも示したが、本研究の対象疾患であるリンパ管腫（リンパ管奇形）は先に顔面・頸部の巨大病変のみが独立した疾患として難病指定されているが、腹部やその他体表・軟部病変など全身に難治性病変として発生し、治療にまた日常生活に難渋している患者さんがいる。厚労科研臼井班では胸部・縦隔、秋田班では体表・軟部を対象としてそれぞれ研究を勧めているが、疾患の根本は共通であり、お互い情報交換をしてガイドラインの作成においては密接に連携して情報共有し、対象疾患に対する治療戦略の向上を目指している。

#### B. 研究方法

- 1) 難病助成対象の拡大へ向けてデータの蓄積  
当研究班を含めた研究班の提言を元に、2015年7月にリンパ管腫は条件付きで難病に指定された。しかしながら、巨大であること、頸部・顔面に限定されるといった認定基準は同じ疾患名の多くの重症患者との間に矛盾を生じることとなった。図1のような症例は決して根治を得ることができず、長期にわたり生活の制限と、時折集中治療を要する感染を生じ、難病と指定

されるにふさわしい。当研究班では、現在の難病の認定基準の部位限定を拡大し、頸部から胸部・腹部も含めるように提言したい。

小児慢性特定疾病においては、リンパ管腫はリンパ管腫症/ゴーハム病とは分離され部位に関わらず、治療を要する場合に認定されるという形で指定が改正されている。小慢と難病制度の解離を是正することも必要と考えられる。

前研究班における症例調査の結果をまとめ、難治症例の実態の詳しい情報をまとめ、研究期間内の令和4年に提言できるように準備する。



図1, 腸間膜リンパ管拡張症  
(リンパ管腫症?リンパ管腫?)

## 2) 症例調査研究のまとめ

前研究班にてガイドライン作成過程におけるCQ選定作業と平行して、調査研究にて回答を探すべき課題が明らかになり、2014年度内に決定された。

- 1 頸部・胸部リンパ管腫における気管切開の適応に関する検討
- 2 乳び胸水に対する外科的治療の現状
- 3 リンパ管腫症・ゴーハム病の実際(範囲は胸部を越えて構わない)
- 4 縦隔内リンパ管腫における治療の必要性

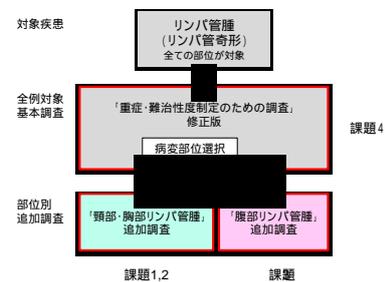
課題は以上の4点とし、それぞれの課題に対する回答を得るべく調査項目が選定されていたが、特にリンパ管腫に関する課題1、4につき調査が先行して準備され、2015年に「リンパ管腫全国調査2015」と称して日本小児外科学会関係施設に症例登録を依頼した。調査方法はWeb調査で、「リンパ管疾患情報ステーション内のセキュリティ管理の施された登録サイトより、2015年10月28日から2016年1月20の登録期間に1730症例が登録された。

これらについては前研究班より引き続いて検討し、

- 1, 上記各課題に対する回答をまとめて論文・学術集会発表すること

- 2, 難治性症例の実際を把握すること
- 3, それを踏まえて追加の難病指定への資料を作成すること

リンパ管腫調査2015の調査項目と対応する課題



- 4, また治療の標準化の根拠を導くことを行っていく。

当研究については中心となる国立成育医療研究センター(承認番号:596)、慶應義塾大学医学部(承認番号:20120437)にて倫理審査を経て実施されている。

- 3) ガイドライン改訂(厚労科研秋田班中心の改訂作業の腹部リンパ管疾患を担当)

2017年に改訂発行した「血管腫・血管奇形・リンパ管奇形診療ガイドライン2017」においては、作成中心となった三村班と協力し、当研究班で腹部リンパ管疾患の4つのクリニカルクエストを担当した。発行から5年を目標としての改訂版作成が厚労科研秋田班の統括にて開始された。前版に引き続き腹部リンパ管疾患の項目においては当研究班で担当する形となる。2022年3月の完成を目標に作業を行う。

- 4) データベース利用及び拡充(オープン化、Radder-Jとの連結)

リンパ管腫、リンパ管腫症・ゴーハム病の登録された症例データのオープン利用を目指して整備を行う。秋田班においては脈管疾患の大規模な登録事業Radder-Jが開始されており、広く症例登録がなされる予定である。前研究班にて作成したデータベースは寄り詳細な調査がなされており、今後はRadder-Jの二次調査的な役割をが期待されこの連携を計画する。

- 5) 医療・社会への情報還元(HP充実、シンポジウム開催)

これまで3回行った「小児リンパ管疾患シンポジウム」に引き続き第4回を開催する。また現在では、リンパ管疾患のweb検索で常に上位に位置するHP「リンパ管疾患情報ステーション」

ン」を他の研究班と共同運営、更新していく。

#### (倫理面への配慮)

当研究については中心となる国立成育医療研究センター(承認番号:596)、慶應義塾大学医学部(承認番号:20120437)にて倫理審査を経て実施されている。

### C. 研究結果

#### 1) 難病助成対象の拡大へ向けてデータの蓄積

これまでに2回、2017年は7月に難病見直しの機会があり、リンパ管腫(リンパ管奇形)については対象を頸部・顔面に限定せず、全身に広げるよう提言したが、採用されなかった。そこで2019年度は11月に特に腹部病変の難病として矛盾ないと思われる症例の提示、および全国調査の結果を提示し、再度、部位を削除した診断基準での指定を提言した。しかしながら、承認は見送られたことが報告された。理由としては先に難病指定された巨大リンパ管奇形(顔面・頸部)は独立した疾患ということであったため、とのことで疾患定義に関わることが問題であった。すなわち対象範囲をただ拡大することはできないということであった。従って、今後は独立した疾患として巨大リンパ管奇形(腹部・後腹膜病変)などの形として提言するよう方向転換することになった。

本年度は症例調査研究データのまとめ等を通して再び提言する準備を開始した。具体的は2015年の全国症例調査のまとめであり、その手始めとして2020年9月に第57回日本小児外科学会学術集会にて腹部病変の3年の研究期間に症例データベースの解析、予後調査を加えて、難病指定の枠の拡大(病名変更を必要とすると考えられる)を提言する。

#### 2) 症例調査研究のまとめ

課題である「腹腔・後腹膜腔内のリンパ管腫の感染時の治療の選択」について解析作業が行われており、まだ論文発表に至っていないが、2020年9月に行われた日本小児外科学会学術集会で集計結果が発表された(資料A)。腹部は219例の登録があり、予後として不変・増大が67例と約30%は経過が思わしくないことなどが示された。

本集計結果は先に示した課題の解析とともに論文文化に向けて引き続き準備中である。

#### 3) ガイドライン改訂(厚労科研秋田班中心の改訂作業の腹部リンパ管疾患を担当)

2017年に改訂発行した「血管腫・血管奇形・リンパ管奇形診療ガイドライン2017」の改訂版作成が厚労科研秋田班の統括にて開始された。統括委員長に本研究分担者の木下義晶先生が就任し、全体をまとめている。ガイドライン作成にあたっては、前回と同様に腹部リンパ管疾患に関する部分を本研究班分担者にて担当する。

ガイドライン作成委員会が編成され、改訂ガイドラインで採用するCQが2020年内に決定した。本チームでは以下の2つCQを担当する。

CQ29: 腹部リンパ管奇形に有効な治療は何か?

CQ30: 難治性乳び腹水に対して有効な治療は何か?

現在システマティック・レビューの準備中であるが、2022年3月の完成を目標として作業が進められている。

#### 4) データベース利用及び拡充(オープン化、Radder-Jとの連結)

データベースの整理、画像、病理写真の収集等が進められている。別の研究でリンパ管疾患病理ライブラリーと画像ライブラリーを作成中であり、総合的な症例データベースとして、認証の上アクセス許可を与えてリンパ管疾患情報ステーション内でオープン化するシステム構築中であるが本年度は大きな進捗を得ていない。

秋田班においては脈管疾患の大規模な登録事業Radder-Jが開始されており、リンパ管奇形を含めて広く症例登録がなされる予定であり、すでに症例登録は進んでいる。前研究班にて作成したデータベースは寄り詳細な調査がなされており、今後はRadder-J登録症例の二次調査的な役割が期待される。この連携を研究期間内に構築したい。

#### 5) 医療・社会への情報還元(HP充実、シンポジウム開催)

これまで3回行った「小児リンパ管疾患シンポジウム」の第4回目を令和2年9月に開催する予定であったが、新型コロナウイルス感染拡大の社会状況を考慮し中止とした。令和3年度にはwebを用いた開催を計画している。HPリンパ管疾患情報ステーション(<http://lymphangioma.net>)は医療者以外の意見を取り入れてデザインのリニューアル、コンテンツの全面改訂、一般の読者向け内容を大幅拡充、動画による疾患・検査説明、ゆるキャラの登場などの変更を経て現在ホームページアクセス数は45万件を超え、「リンパ管腫」「リンパ管奇形」「リンパ管」等の

keywordによる検索で常に上位に上がるwebページとして広く一般に利用されている。

#### D . 考察

当分担研究班は平成25年度以前のリンパ管腫、リンパ管腫症の実態調査研究を継承して結成された。8つの大きな研究を柱として、小児で腹部・消化管に大きな症状・障害を生じうるリンパ管疾患の情報を集積して総括する作業が継続されており、いくつかの成果を挙げている。

前研究班から引き続いての大きな臨床的課題であった「腹腔・後腹膜腔内のリンパ管腫の感染時の治療の選択」に関して調査結果をまとめる作業がまだ進行しており、本年度に一次集計の学会報告がなされた。今後課題について改正の上論文発表となる。難病指定の提言に向けて、またガイドラインに資するような成果となるであろう。

一方、一般への情報発信の一環として、HP「リンパ管疾患情報ステーション」を引き続き継続している。また「第4回小児リンパ管疾患シンポジウム」の開催を予定していたが、新型コロナウイルス蔓延に伴い中止とした。しかしその間にweb会議などの技術が広く発達し、一般化したため来年度はweb開催を中心として計画している。いずれも患者・家族への情報提供と交流ということにおいて非常に有意義であることが医療者・患者双方において確かめられている。

今後も当初からの予定課題を達成していくことに加えて、さらに症例登録データの詳細な解析から診療指針の細かい提案ができると考えられるため進めて行きたい。また国に難病としての提言を進めて行きたい。引き続きこの研究は学問的・社会的に大きく貢献できると見込まれる。

#### E . 結論

腹部リンパ管疾患（リンパ管腫、リンパ管腫症・ゴーハム病、リンパ管拡張症等）についての多角的な研究が進められている。先行する研究を引き継いで進められ、3年間の研究期間に腹部リンパ管腫の治療・管理について臨床上重要な指標となると考えられるデータを公表することが出来る見込みである。

指定難病としての部位基準見直しへの提言などには具体的なデータをさらに提示するなど今後も力を入れる必要がある。

臨床的には難治性疾患として鑑別診断などには課題は残されており、今後もさらなる研究の

発展が期待される。

#### F . 研究発表

##### 1. 論文発表

- 1) Mimura H, Akita S, Fujino A, Jinnin M, Ozaki M, Osuga K, Nakaoka H, Morii E, Kuramochi A, Aoki Y, Arai Y, Aramaki N, Inoue M, Iwashina Y, Iwanaka T, Ueno S, Umezawa A, Ozeki M, Ochi J, Kinoshita Y, Kurita M, Seike S, Takakura N, Takahashi M, Tachibana T, Chuman K, Nagata S, Narushima M, Niimi Y, Nosaka S, Nozaki T, Hashimoto K, Hayashi A, Hirakawa S, Fujikawa A, Hori Y, Matsuoka K, Mori H, Yamamoto Y, Yuzuriha S, Rikihisa N, Watanabe S, Watanabe S, Kuroda T, Sugawara S, Ishikawa K, Sasaki S. Japanese clinical practice guidelines for vascular anomalies 2017. Jpn J Radiol. 2020 Apr;38(4):287-342. doi:10.1007/s11604-019-00885-5.
- 2) Mimura H, Akita S, Fujino A, Jinnin M, Ozaki M, Osuga K, Nakaoka H, Morii E, Kuramochi A, Aoki Y, Arai Y, Aramaki N, Inoue M, Iwashina Y, Iwanaka T, Ueno S, Umezawa A, Ozeki M, Ochi J, Kinoshita Y, Kurita M, Seike S, Takakura N, Takahashi M, Tachibana T, Chuman K, Nagata S, Narushima M, Niimi Y, Nosaka S, Nozaki T, Hashimoto K, Hayashi A, Hirakawa S, Fujikawa A, Hori Y, Matsuoka K, Mori H, Yamamoto Y, Yuzuriha S, Rikihisa N, Watanabe S, Watanabe S, Kuroda T, Sugawara S, Ishikawa K, Sasaki S. Japanese clinical practice guidelines for vascular anomalies 2017. Pediatr Int. 2020 Mar;62(3):257-304. doi:10.1111/ped.14077.
- 3) Mimura H, Akita S, Fujino A, Jinnin M, Ozaki M, Osuga K, Nakaoka H, Morii E, Kuramochi A, Aoki Y, Arai Y, Aramaki N, Inoue M, Iwashina Y, Iwanaka T, Ueno S, Umezawa A, Ozeki M, Ochi J, Kinoshita Y, Kurita M, Seike S, Takakura N, Takahashi M, Tachibana T, Chuman K, Nagata S, Narushima M, Niimi Y, Nosaka S, Nozaki T, Hashimoto K, Hayashi A, Hirakawa S, Fujikawa A, Hori Y, Matsuoka K, Mori H, Yamamoto Y, Yuzuriha S, Rikihisa N, Watanabe S,

Watanabe S, Kuroda T, Sugawara S, Ishikawa K, Sasaki S. Japanese Clinical Practice Guidelines for Vascular Anomalies 2017. J Dermatol. 2020 May;47(5):e138-e183. doi:10.1111/1346-8138.15189.

- 4) 藤野明浩:【日常診療に役立つ新生児外科系疾患の知識】小児外科 リンパ管腫(嚢胞状リンパ管奇形).周産期医学 2020;50(2): 209-213
- 5) 藤野明浩,田原和典,山田洋平,森禎三郎,沓掛真衣,藤田拓郎,三宅和恵,工藤裕実,金森豊,菱木知郎,金子剛,吉田和恵,守本倫子,関敦仁,伊藤裕司,左合 治彦,野坂俊介,義岡孝子:【小児外科における多診療科連携】脈管(リンパ管・血管)疾患に対する診療チーム構築と治療戦略.小児外科 2020;52(3): 249-253
- 6) 藤野明浩:「もう迷わない 血管腫・血管奇形」(編著 尾崎峰) 嚢胞状(microcystic)リンパ管奇形,克誠堂出版,2020.5, 155-163
- 7) 藤野明浩:【最新のリスク・重症度分類に応じた治療】血管腫・血管奇形・リンパ管奇形.小児外科2020;52(6): 646-649
- 8) 藤野明浩:【小児がん手術の問題点-わたしはここを重視している】リンパ管腫(嚢胞状リンパ管奇形). 小児外科 2020;52(12):1321-1325
- 9) Sakamoto K, Osumi T, Yoshimura S, Shimizu S, Kato M, Tomizawa D, Fukuda A, Sakamoto S, Nakano N, Yoshioka T, Miyazaki O, Nosaka S, Deguchi T, Kiyokawa N, Kasahara M, Matsumoto K: Living-donor liver transplantation providing an adequate chemotherapy for a pediatric patient with anaplastic large cell lymphoma complicated with liver failure due to the aggravation of biliary hepatopathy by secondary hemophagocytic lymphohistiocytosis. Int J Hematol. 2020 Jul. doi:10.1007/s12185-020-02949-z

- 10) 宮坂実木子, 野坂俊介:【小児外科医が習得すべき検査-手技と診断】リンパ管腫・血管腫(超音波、穿刺造影). 小児外科,2020;52(8); 890-898
  - 11) 野坂俊介:小児急性腹症へのアプローチ.(野坂俊介編)レジデントのための腹部画像教室 小児急性腹症の見方,日本医事新報社,2020;2-14
  - 12) 野坂俊介:小児の腹部画像の見方.(野坂俊介編)レジデントのための腹部画像教室 小児急性腹症の見方,日本医事新報社,2020;16-51
2. 学会発表
  - 1) 木下義晶:リンパ管腫(リンパ管奇形)の臨床と研究動向 新潟大学皮膚科特別セミナー,WEB開催, 2020.8.12
  - 2) 木下義晶,藤野明浩,小関道夫,野坂俊介,松岡健太郎,上野滋,岩中督,森川康英,田口智章,小児期から移行期・成人期を包括する希少難治性慢性消化器疾患の医療政策に関する研究(田口班):腹部リンパ管腫(リンパ管奇形)の臨床像について 全国調査の結果から 第57回日本小児外科学会学術集会,東京,2020.9.19
  - 3) 藤野明浩:出生前診断された児の治療の実際「出生前診断症例の外科治療」.第56回日本周産期・新生児医学会学術集会,WEB開催,2020.11.29

(その他)

HP:リンパ管疾患情報ステーション  
<http://lymphangioma.net>

G. 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

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患政策研究事業）

分担研究報告書

## 胃食道逆流症

八木 実 久留米大学医学部外科学講座小児外科部門 教授

川原 央好 浜松医科大学小児外科 特任教授

研究協力者

深堀 優 久留米大学医学部外科学講座小児外科部門 准教授

### 【研究要旨】

本研究の目的は本邦初の小児の胃食道逆流症(GERD)の全国調査を実施し、現状を把握するとともに難病指定が必要な難治性GERD症例の病態分析と症例の抽出である。更に、収集したデータを基に小児GERD診療ガイドラインの策定を目指す。

平成29～令和元年度の田口班研究において施行した、小児難治性GERD患者の現状調査の成果について、令和2年11月8-12日に開催された環太平洋小児外科学会(Pacific Association of Pediatric Surgeons: PAPS) 2020 Virtual Meetingにて報告を行った。またその詳細な内容については英文論文として、Journal of Pediatric Surgery PAPS特集号に投稿を行った。

本年度は、小児難治性GERDの小児慢性特定疾患、難病指定に向けて、対象となるスペクトラムが存在するか検討を行った。真の難治性GERDの可能性のある症例は、食道閉鎖、重症心身障がい児、先天性心疾患が全体の85.4%を占める41症例であった。この小児難治性GERDの大多数を占める上記3疾患について、その特徴を詳細に分析した。この分析した結果を踏まえて、小児慢性特定疾患への選定に考慮すべき4項目、及び難病指定に考慮すべき原則5項目にについて、その基準に合致するか検討を行った。班会議において、難病指定に関しては、難治性GERDの成人症例を数字で示す必要があるとの指摘を受けた。小児慢性特定疾患の選定に関しては、選定される可能性があるが、症例の過半数を占める重症心身障がい児はすでに医療扶助を受けていることが多く、対象に含めるべきかについてもう少し議論が必要だろうとの結論となった。

これらの議論の結果を踏まえて、今後は小児難治性GERDの小児慢性特定疾患への申請に向けて、重症心身障がい児と食道閉鎖症をどのようにあつかっていくかについて更なる検討を行っていく予定である。

### A．研究目的

本研究の目的は小児におけるGERDの全国調査を実施し、本邦での現状を把握すると共に、難病指定が必要な小児難治性GERDの抽出と病態分析を行うことである。更に、全国調査収集データを基に小児胃食道逆流症診断治療指針の見直

しを行い、現状に適した治療指針作成と小児難治性GERDの診断基準策定を目標とする。

### B．研究方法

小児GERDの現状についての全国アンケート調査を行い、集計された症例を分析し、難病指定

が必要と考えられる難治性GERDの抽出と病態分析を行う。

#### (倫理面への配慮)

本研究の全国アンケート調査は「小児難治性胃食道逆流症の現状に関する全国アンケート調査」として久留米大学倫理委員会から既に承認を得ている(研究番号:18215)。

個人情報の保護に際して、下記のごとく配慮し研究を進める。

#### ) 倫理原則の遵守

本研究は、ヘルシンキ宣言に基づく倫理的原則を遵守し、「人を対象とする医学系研究に関する倫理指針」に従って実施する。なお本研究を実施するにあたり、久留米大学の倫理委員会にて審査後、研究機関長の承認を得る。また、二次調査の参加に同意が得られた施設においては、各施設の長に情報提供を行うことを届け出る等、各実施機関の運用に従い本研究に参加することとする。

#### ) 個人情報等の安全管理

研究の実施に関わる者は研究対象者のプライバシー及び個人情報保護に十分配慮する。研究機関の長は研究の実施に際して、保有する個人情報等の保護に必要な体制及び安全管理措置を整備するとともに、研究者等に対して保有する個人情報等の安全管理が図られるよう必要かつ適切な監督を行う。研究で得られた個人データ等を本研究の目的以外で使用する場合は、必要に応じて別途対象者から同意を得る。研究の結果を公表する場合も、個人を特定できる情報は使用しない。

#### ) 匿名化の方法及び対応表について

本研究では、個人情報等の保護のために、各機関においてアンケート配布時に研究対象者の個人情報とは無関係の研究番号を付して管理し、どの研究対象者の情報であるかが直ちに判別できないよう匿名化を行う。また、必要な場合に研究対象者を識別することができるよう対応表を作成する。本研究は共同研究機関において匿名化された情報等の授受を行うが、対応表の提供は行わないため、提供先機関は特定個人を識別できない状態となる。対応表はそれぞれ対応表を作成した各研究機関内で、本研究に関与しない管理者が適切に管理することを相互に確認する。対応表の保管期間は研究に係る情報等の保管と同様とする。なお、提供元機関において、インフォームド・コンセントまたはオプ

トアウト等その他の措置が適切にとられているかホームページで確認することによって確認する。

#### C. 研究結果

平成29～令和元年度の田口班研究において施行した、小児難治性GERD患者の現状調査の成果について、令和2年11月8-12日に開催されたPAPS2020 Virtual Meetingにて報告を行った。またその詳細な内容については英文論文として、Journal of Pediatric Surgery PAPS特集号に投稿中である。

本年度は、小児難治性GERDの小児慢性特定疾患、難病指定に向けて、対象となるスペクトラムが存在するか検討を行った。真の難治性GERDの可能性のある症例は、食道閉鎖、重症心身障がい児、先天性心疾患が全体の85.4%を占める41症例であった。この41症例の特徴を詳細に分析すると、食道閉鎖は10例で、Gross A/B/C: 2/1/7、Long gap: 7/10 (70%)、合併症: 7/10 (70%)となっており、噴門形成は9/10(90%)に施行されていた。重症心身障がい児は21例で、基礎疾患は様々であり、17/21(81%)に噴門形成が施行されていた。先天性心疾患は12例で、無脾症候群(4)、左心低形成症候群(2)などが含まれており、噴門形成は6/12 (50%)に施行されていた。

#### D. 考察

この様な小児難治性GERDに含まれる症例の特性を踏まえて、小児慢性特定疾患への選定に考慮すべき4項目について検討すると、「慢性に経過する疾病であること」「症状や治療が長期にわたって生活の質を低下させる疾病であること」は該当するが、「生命を長期にわたって脅かす疾病であること」については明確な根拠はなく、「長期にわたって高額な医療費の負担が続く疾病であること」を示唆するデータは乏しい。一方、難病指定に考慮すべき原則5項目に関しては、「治療方法が確立していない」「長期の療養を必要とする」「患者数が人口の0.1%程度に達しない」は該当する可能性が高いと考えられるが、「発病の機構が明らかでない」に関しては疾患によって異なり、「客観的な診断基準等が確立している」に関しては検討を要すると考えられた。

班会議における議論では、小児難治性GERDの難病指定に関しては、難治性GERDの成人症例を数字で示す必要があるとの指摘を受けた。小児慢性特定疾患の選定に関しては、選定される可能性があるが、症例の過半数を占める重症心身

障がい児はすでに医療扶助を受けていることが多く、対象に含めるべきかについてもう少し議論が必要だろうとの結論となった。

#### E . 結論

これらの議論の結果を踏まえて、今後は小児難治性GERDの小児慢性特定疾患への申請に向けて、重症心身障がい児と食道閉鎖症をどのようになつていくかについて更なる検討を行っていく予定である。

#### F . 研究発表

##### 1. 論文発表

- 1) 深堀 優, 石井 信二, 橋詰 直樹, 古賀 義法, 東館 成希, 升井 大介, 坂本 早季, 倉八 朋宏, 高城 翔太郎, 田中 芳明, 八木 実: 医学・医療の最前線シリーズ 小児における胃食道逆流症の診断および治療戦略. 久留米医学会雑誌 83(1-3): 8-18, 2020.
- 2) 深堀 優, 石井 信二, 橋詰 直樹, 古賀 義法, 東館 成希, 升井 大介, 坂本 早季, 鶴久 士保利, 中原 啓智, 七種 伸行, 田中 芳明, 八木 実: 【小児外科医が習得すべき検査-手技と診断】胃食道逆流症(上部消化管造影、24時間食道インピーダンスpHモニタリング、上部消化管内視鏡). 小児外科 52(8): 791-797, 2020.
- 3) Higashidate N, Fukahori S, Hashizume N, Ishii S, Saikusa N, Sakamoto S, Kurahachi T, Tanaka Y, Ohtaki M, Yagi M. Does clinical score accurately support fecoflowmetry as a means to assess anorectal motor activity in pediatric patients after anorectal surgery? Asian J Surg 43(12): 1154-1159, 2020
- 4) Sakamoto S, Fukahori S, Hashizume N, Yagi M. Measuring small intestinal bacterial overgrowth using the hydrogen breath test among postoperative patients with biliary atresia. Asian J Surg. 44(13): 1130-1131, 2020

#### 2. 学会発表

- 1) 深堀 優, 八木 実, 川原央好, 田口智章: 小児難治性胃食道逆流症の実態に関する全国アンケート調査 第120回日本外科学会定期学術集会 Web 2020.8.13-15
- 2) 深堀 優, 八木 実, 川原央好, 田口智章: 小児難治性胃食道逆流症の実態に関する全国アンケート調査 第57回日本小児外科学会 東京 2020.9.19-21
- 3) Fukahori S, Yagi M, Kawahara H, Taguchi T. Nationwide survey of intractable pediatric gastroesophageal reflux disease in Japan, 53th Annual Meeting of the Pacific Association of Pediatric Surgeons, Web meeting, 11.8-12, 2020

#### G . 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

## 食道閉鎖症

越永 従道 日本大学医学部外科学系小児外科学 教授

藤代 準 東京大学大学院医学系研究科生殖・発達・加齢医学専攻小児医学講座 教授

### 研究協力者

上原 秀一郎 日本大学医学部外科学系小児外科学 准教授

### 【研究要旨】

新生児外科の長足の進歩はその救命率の飛躍的向上をもたらした一方で、術後遠隔期にわたって遭遇する種々の問題に対する検討が必要となってきた。先天性食道閉鎖症（以下本症）も例外ではない。各施設における本症経験症例数はそれほど多くはなく、重篤な症状を呈する比較的稀な症例の経験症例数はさらに少なくなってくる。このため、各施設においてこれらの症例を詳細に検討することは困難であり、多施設の経験症例を集計することによって、本症の病態・診断・治療の現状、そして長期予後を把握し、今後の治療成績向上につなげていく。

### A．研究目的

全国の日本小児外科学会認定施設、教育関連施設を対象に、術後の実態調査を行い（令和元年12月までに）、1. 病型別の治療成績、2. 根治術時期による長期治療成績（長期合併症）、3. 根治術式別の長期治療成績（長期合併症）、4. 経験症例数別（施設別）の治療成績、5. 予後不良症例の詳細な情報を明らかにし、6. 現在の就学状況を調査することによって、今後の治療成績向上につなげ、フォローアップのあり方について再整備を行う。

### B．研究方法

本研究に関わる研究計画書を作成し、平成29年12月3日に行われた班会議において、修正のち、本研究を施行することが承認された。また研究責任施設である日本大学医学部附属板橋病院倫理委員会でも承認されたため、速やかな日本小児外科学会の審査受審も行われ、平成30年8月29日に日本小児外科学会で承認され、再度日本大学医学部附属板橋病院倫理委員会でも10月13日に修正が承認された。12月1日に一次調査として19施設にアンケート調査を配布した。一次調査は全国でも施設19施設から2002年から

2016年までの症例数の報告があり、計572症例であった。全国調査に関する進捗状況と、学会より「回答者の負担を回避するように」という条件付きでの承認となったため、各施設への負担軽減の観点から、小学校、中学校、高校での問題点の洗い出しを目的に、2002年（30例）、2005年（42例）、2011年（58例）の症例について2次調査することとした。2次調査は辞退した1施設を除く、18施設で行った。

### （倫理面への配慮）

研究対象者に対する人権擁護上の配慮、研究方法による研究対象者に対する不利益、危険性の排除や説明と同意（インフォームド・コンセント）に関わる状況などから、当該研究を行った際に実施した倫理面への配慮の内容及び方法について、親施設となる日本大学医学部附属板橋病院倫理審査委員会RK-180109-8、ならびに日本小児外科学会学術・先進医療委員会での審査を受け、承認された。

### C．研究結果

#### （研究結果と考察）

本年度はアンケート解析をおこなった。

通院状況について、通院中の割合は7歳で56.9%、13歳で50.0%、16歳で26.7%と年齢が上昇するにつれて、通院の中断や終了が多い傾向にあった。通院中断の理由として治癒・軽快が多かったが、転居や転院によるものが最多であり、転居や転院後ロストフォローアップとなっている症例がほとんどであった。術直後の合併症は縫合不全や吻合部狭窄が多く、各年代を通して20～60%程度の割合で起こっていることから、未だ課題があると考えられた。長期経過での問題点は精神発達遅滞を伴う症例はどの年代でも一定数存在し、社会的な援助が必要と考えられた。呼吸や経口摂取の異常は近年の症例でも克服されていない課題であり、また手術の影響と考えられる胸郭変形は頻度こそ減りつつあるが、手術時に配慮すべき問題であると思われる。就学・社会生活の状況について、特別支援学級に通学している症例はどの年代を通しても存在し、6～15%程度であった。またその問題点として普通学級での医療的ケア時の受け入れの問題、重症例における在宅人工呼吸管理、栄養管理の問題、学習障害による就学困難などの問題点が明らかとなった。

#### D．考察

(C参照)

#### E．結論

アンケートの結果、通院状況、通院中断の理由、初回術式、術直後の合併症、転帰・長期経過、ならびに就学・社会生活の状況やその問題点が明らかとなった。多発奇形や栄養状態との関連を今後さらに二次調査することとした。

#### F．研究発表

##### 1. 論文発表

今後予定している。

##### 2. 学会発表

2021年第58回日本小児外科学会での発表を予定しており、抄録は提出済み。

#### G．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

## 高位・中間位鎖肛

淵本 康史 慶應義塾大学 特任教授

廣瀬 龍一郎 福岡大学 診療教授

### 【研究要旨】

高位・中間位鎖肛は小児期から移行期・成人期に至る希少難治性消化管疾患であり、失禁、難治性便秘など長期的な経過をとる。高位・中間位鎖肛では指定難病の4条件を満たしているが難病や小慢に指定されていない。したがってこれらの疾患に適切な医療政策を施行していただくためには、研究班を中心とした小児期から成人期を含む実態調査と疾患概要・診断基準・重症度分類・診療ガイドラインの整備が急務である。

### A．研究目的

中間位・高位鎖肛は小児慢性特定性疾患、ならびに指定難病にも指定されていない。全国調査による現状の把握と診療のてびき等を作成し、難病・小慢指定をめざし、疾患の啓発と情報提供を目的とする。

### B．研究方法

1975年より40年間、4000例以上の病型診断を行ってきた直腸肛門奇形研究会の年次登録から年齢は2020年1月1日において6歳、12歳、18歳の患児を抽出し、各施設に調査依頼をする形で行った。調査内容は具体的には客観的評価法であるMRIによる貫通経路のずれの有無、注腸検造影による直腸肛門角、内圧検査による直腸肛門反射の有無で、行われた。更にQOLの重み付けを付与した評価試案である直腸肛門奇形長期予後追跡調査 Japanese Study Group of Anorectal Anomalies Follow-up Project (JASGAP) を用いて、それぞれのスコアに1．排便管理状況、2．失禁スコア、3．汚染スコア、4．便秘スコアをアンケート調査にて評価した。年齢は2020年1月1日において6歳、9歳、12歳、15歳、18歳、21歳、24歳、27歳、30歳の患者を鎖肛研究会年次登録リストより抽出して、各施設への調査を依頼して行った。

### (倫理面への配慮)

本研究は後方視的な観察研究で国際医療福祉大学倫理審査会にて（平成30年10月25日 承認番号13 - B - 318）、ならびに多施設共同研究として（令和元年 承認番号13 - B - 32）の承諾を受けて行った。

### C．研究結果

直腸肛門奇形研究会の年次登録から該当年齢（6歳、9歳、12歳、15歳、18歳、21歳、24歳、27歳、30歳）を抽出して調査を行った。39施設中24施設から回答があり、有効回答症例数は183例であった。

中間位71例：R-B F 33例，Anal agenesis 22例，R-Vestibular F. 10例の順，  
高位112例：R-U F 69例，R-Cloacal F 20例，A-R agenesis 11例の順

肛門形成術後検査：注腸 直腸肛門角 良/不良  
中間位 31/13，高位 38/32

MRI：貫通経路のずれ：なし/あり 中間位  
11/1，高位 20/8

内圧検査：直腸肛門反射 なし/あり 中間位  
10/5，高位 13/6

### 長期予後追跡調査

アンケート調査 121/183例

合計スコア 中間位・高位ともに年齢とともに

合計スコアは増加傾向（排便機能改善）にある。ただ20歳以上の比較では中間位の方が高位よりも優位に高スコアであった（ $P=0.01$ ）。

合計スコアを以下で比較

染色体異常、脊髄髄膜瘤、肛門形成術（術式）

**染色体異常**：中間位 22/71，高位 11/112

21trisomyが大多数（26/33）

染色体異常がある例もない例ともにゆっくりとスコアは上昇し、常に染色体異常がある例はない例に比較してスコアが優位に低い（ $p=0.046$ ）

**脊髄髄膜瘤**：有効アンケート症例は高位の5例のみ。脊髄髄膜瘤のあり、なしにては、症例数が少なく有意差はない。

**術式**：会陰式11例、仙骨会陰式 筋切開なし（Stephens）20例、後方矢状切開（Pena）42例、腹（仙骨）会陰式 腹腔鏡使用なし23例、腹（仙骨）会陰式 腹腔鏡使用あり24例

#### D．考察

成人になってもスコアの合計が11～12でやはり悪いことが分かった。

術式別では後方矢状切開（Pena法）は比較的早期からスコアが高く、他の術式も年齢とともにスコアが上昇する傾向があるが、術式別での有意差ははっきりしなかった。

#### E．結論

中間位、高位鎖肛とも客観的評価法では貫通経路のずれや直腸肛門角の形成不良が一定数みられたが、QOLの重み付けを付与した評価試案の結果は成人になっても悪い症例が散見された。これらのQOLの低下の原因をさらに解析してゆくことが重要と思われた。

#### F．研究発表

1. 論文発表  
なし

2. 学会発表  
なし

#### G．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

## ASEAN諸国への啓発と疫学研究

猪股 裕紀洋 熊本労災病院 院長

松浦 俊治 九州大学小児外科 准教授

研究協力者

吉岡 秀人 ジャパンハート

### 【研究要旨】

我が国における小児期から移行期・成人期に至る希少難治性消化器疾患につき、本研究班での多面的な調査研究をもとに、その実態や治療方法などについてASEAN諸国への啓発を行い、さらに各国における疾患発生や治療の状況調査を行い、国際的な支援につなげていく。

### A．研究目的

難治性消化器疾患の診療におけるASEAN諸国への診療支援を通じた病態と治療に関する啓発の深化。厚生労働分野における国際支援の基礎作りを行う。

### B．研究方法

ASEAN各国でまだ開発途上にある、生体肝移植手術の確立支援を行うため、ベトナムやミャンマーなどの病院と協定を結んだ上で、日本国内における医療人の研修要請、手術や周術期管理実施のための人員を派遣しての手術支援を行う。これを通して、対象疾患の病態や治療に関する啓発活動を行い、さらに、各国の当該疾患の発生や診療の実状を調査して疫学的情報を得る。

#### （倫理面への配慮）

各国における生体肝移植の実施に伴い、そのドナー選択が倫理的に問題になる。民族や国家による価値観の違いなどがあるが、基本的に日本国内で行われているような倫理的基準で生体ドナー選択の倫理的担保は確保している。

### C．研究結果

昨年度末以来、今年度における小児胆道系疾患に対する生体肝移植の実施について、対象症

例の絞り込みや国内での研修についてメールなどによる意見交換を行ってきたが、我が国と先方諸国におけるCOVID-19の蔓延に伴い、国際的人的交流が不可能な状況が持続し、研究の実施が困難であった。感染状況の好転をみて、来年度実施すべく、情報共有を継続した。なお、国内で、肝移植に関する診療研究は継続し、啓発活動の材料を得る活動は継続した。

### D．考察

考察材料が十分ない。

### E．結論

COVID-19による研究進捗の阻害が著明であったが、感染収束に伴い早期に再開できるように態勢を維持する。

### F．研究発表

#### 1. 論文発表

- 1) Genda T, Ichida T, Sakisaka S, Tanaka E, Mochida S, Ueno Y, Inui A, Egawa H, Umeshita K, Furukawa H, Kawasaki S, Inomata Y. Outcome of patients with acute liver failure awaiting liver transplantation in Japan. *Hepatol Res*. 2020 Oct;50(10):1186-1195. doi: 10.1111/hepr.13549.

- 2) Yoshii D, Inomata Y, Komohara Y, Shimata K, Honda M, Hayashida S, Oya Y, Yamamoto H, Yamamoto H, Sugawara Y, Hibi T. Ki67 expression at Kasai portoenterostomy as a prognostic factor in patients with biliary atresia. BJS Open. 2020 Oct;4(5):873-883. doi: 10.1002/bjs5.50308.
- 3) Yamamoto H, Sugawara Y, Sambommatsu Y, Shimata K, Yoshii D, Isono K, Honda M, Yamashita T, Matsushita S, Inomata Y, Hibi T. Living donor domino liver transplantation in a hepatitis C virus/human immunodeficiency virus-coinfected hemophilia patient: a case report. Surg Case Rep. 2020 Jul 29;6(1):184. doi: 10.1186/s40792-020-00944-4.
- 4) Kasamatsu H, Yoshimoto S, Torai S, Kimura T, Yoshioka M, Nadahara S, Yamamoto H, Inomata Y, Kobayashi E. Development of a Simple and Active Shunt System in the Anhepatic Stage for Surgical Training of Orthotopic Liver Transplantation. Transplant Proc. 2020 May 25:S0041-1345(20)30245-1. doi: 10.1016/j.transproceed.2020.03.028.
- 5) Ohya Y, Hayashida S, Inomata Y. Long-Term Survival After Distal Pancreatectomy With Simultaneous Living-Donor Liver Transplant for Treatment of Pancreatic Insulinoma With Hepatic Metastasis: a Case Report. Exp Clin Transplant. 2021 Jan;19(1):88-91. doi: 10.6002/ect.2020.0126.
- 6) Fujita A, Hamada Y, Matsuura T. Mothers' experiences with pregnancy and childbirth following pediatric living liver transplant donation: A qualitative descriptive study. Transplantation Proceedings, in press, 2020
- 7) Alatas FS, Matsuura T, Yoshimaru K, Kadim M, Taguchi T. Alopecia in children following living related liver Transplantation: A case report. Transplantation Proceedings, in press, 2020
- 8) Yoshimaru K, Matsuura T, Yanagi Y, Takahashi Y, Kohashi K, Kaku N, Oda Y, Ohga S, Taguchi T. Successful urgent living donor liver transplantation for massive liver necrosis accompanied by non-occlusive mesenteric ischemia in a biliary atresia infant: A case report. Transplantation Proceedings 52(9), 2802-2808, 2020
- 9) Harada N, Yoshizumi T, Matsuura T, Taguchi T, Mori M. Usefulness of microsurgical back-table angioplasty for multiple hepatic arteries in living donor liver transplantation. Ann Gastroenterol Surg 4(6), 735-740, 2020
- 10) Matsuura T, Kohashi K, Kawano Y, Takahashi Y, Yoshimaru K, Yoshizumi T, Oda Y, Mori M, Taguchi T. Successful management to prevent early graft loss due to Seventh-day Syndrome After liver retransplantation: A case report and literature review. Pediatr Transplant, 2020.
- 11) Kawano Y, Yoshimaru K, Uchida Y, Kajihara K, Toriigahara Y, Shirai T, Takahashi Y, Matsuura T. Biliary atresia in a preterm and extremely low birth weight infant: a case Report and literature review. Surg Case Rep 6(1), 735-740, 2020

2. 学会発表  
なし

G . 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

## ナショナルセンター(成育)との連携

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 診療部長  
新井 勝大 国立成育医療研究センター病院 器官病態系内科部 診療部長  
掛江 直子 国立成育医療研究センター生命倫理研究室 室長  
窪田 満 国立成育医療研究センター総合診療部 統括部長  
松本 公一 国立成育医療研究センター小児がんセンター センター長  
小林 徹 国立成育医療研究センター臨床研究センター データサイエンス部門 部門長  
義岡 孝子 国立成育医療研究センター病理診断部 統括部長

### 【研究要旨】

難治性小児消化器疾患の医療水準向上及び移行期・成人期のQOL向上のため、成育疾患領域を対象とする本邦唯一のナショナルセンターである国立成育医療研究センターが有する臨床研究推進機能をどのように今後活用していくかを関係者間で意見調整し、病院診療部門を中心とした患者登録 臨床研究センターを中心とした臨床研究コンサルトシステム 小児慢性特定疾病情報室を中心とした政策的課題コンサルトシステムの3項目において研究班全体と有機的に連携し研究活動を推進する方針を立案した。令和3年度以降は本年度構築した体制を運用し、新たなエビデンス構築に資する研究活動を活性化させる予定である。

### A．研究目的

小児外科領域の希少難治性疾患は施設あたりの症例数が少なく、診断法や治療法が未確立のために診療に難渋している症例が少ない。本研究班では全国規模の調査結果に基づき、対象患者における重症度階層化等を確立することができれば、指定難病や小児慢性特定疾患の対象とすべき重症患者を抽出することが可能となると想定される。国立成育医療研究センターは成育疾患領域を対象とした本邦唯一のナショナルセンターであり、様々な臨床研究推進・医療政策関連機能を有する。本研究では国立成育医療研究センターが本研究疾患領域においてどのような機能を活用し、医療水準向上及び移行期・成人期のQOL向上に資する活動が可能かを可視化し、運用する方法を開発する事を目的とする。

### B．研究方法

国立成育医療研究センター内に設置された各

部門を体系的にレビューし、網羅的に本研究班の目的達成に資する機能を有する部門を同定する。その後、各部門における実務状況を踏まえてどのような協力体制の構築が可能かを検討し、令和3年度以降の連携機能強化に向けた準備を行う。

### (倫理面への配慮)

本分担研究は研究推進体制の構築を目的としており、人を対象とした臨床研究ではない。そのため、特段の倫理的配慮は不要である。

### C．研究結果

令和2年7月1日における独立研究開発法人国立成育医療研究センターの組織図および組織規程より、本研究の目的に資する機能を有する部門を以下に分類した。

#### 臨床機能

病院 臓器・運動器病態外科部

病院 総合診療部

病院 病理診断部  
臨床研究機能  
病院 臨床研究センター  
政策的機能  
研究所 小児慢性特定疾病情報室

臨床機能に関しては、臓器・運動器病態外科部が中心となって本研究の対象疾患の患者を登録し、エビデンス創出に協力する方針で合意形成を得た。実際の成人移行支援に関しては総合診療部が担当する。また、将来的な中央病理診断機能を病理診断部で担うことが可能かについて検討を重ねたが、現時点では十分な人的資源がなくロジスティクスの整理が困難であるため今後の検討課題とした。

研究機能に関しては、臨床研究センター内に設置された臨床研究相談・支援窓口機能を活用したコンサルトシステムを構築する方針とした。なお、臨床研究相談・支援窓口では以下の研究相談を受け付けることが可能である。

- ・シーズ開発に関する相談
- ・開発戦略に関する相談
- ・臨床研究計画策定の支援
- ・データマネージメントに関する相談
- ・多施設共同研究ネットワーク形成に関する相談
- ・治験、臨床試験、臨床研究の対象となる疾病の患者数把握に関する相談
- ・特定臨床研究に関する相談（臨床研究法に関する相談）
- ・医師主導治験の実施に係る各種資料の検討、作成、実施支援
- ・企業主導治験の実施に係る各種資料の検討、作成、実施支援
- ・疫学調査に関する相談
- ・系統的レビューに関する相談
- ・成育REDCapシステムに関する相談
- ・臨床研究における生命倫理に関する相談
- ・臨床研究等に関する講習、講演

本研究班では特にエビデンス創出には必須の臨床研究におけるプロトコル作成に関する相談、ガイドライン作成時に必須となる系統的レビューの検索式作成、実際に臨床データを収集する際に必要となるEDCシステム（REDCap）の利用に関する相談等がより必要度が高いと考えられ、令和3年度以降に連携体制を強化する方針を確認した。

政策立案機能に関しては、特に本研究班が小児慢性特定疾病や指定難病への新たな疾患登録を目指している疾病に関する各種情報の収集や登録に向けたロードマップの相談等を通じてさらに連携を強化する方針を確認した。

#### D．考察

本分担研究を通じて、国立成育医療研究センターが有する臨床・研究・政策機能をマッピングし、本研究班の目的に資する部署の同定ならびに今後の連携体制、特にコンサルトシステムについて合意形成することができた。今後、このような機能をどのように対象疾患におけるエビデンス創出および政策提言に向けて活用していくかについて、さらなる検討が必要である。令和3年度以降に運用し、小児外科領域における新たなエビデンス創出や政策課題の実現に向けてさらなる連携強化をすすめるとともに、改善点を見だし新たな連携の形についても検討を進めていくことが望まれる。

#### E．結論

国立成育医療研究センターが有する機能をマッピングし、本研究にて臨床機能 研究コンサルトシステム 政策コンサルトシステムを利活用していくこととした。

#### F．研究発表

1. 論文発表  
なし
2. 学会発表  
なし

#### G．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

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患政策研究事業）

分担研究報告書

## 原発性免疫不全症患者の炎症性腸疾患に対する 造血細胞移植の効果

大賀 正一 九州大学大学院医学研究院成長発達医学分野 教授

吉丸 耕一郎 九州大学大学院医学研究院小児外科分野 講師

研究協力者

石村 匡崇 九州大学大学院医学研究院成長発達医学分野 助教講師

白石 暁 九州大学大学院医学研究院成長発達医学分野 助教

江口 克秀 九州大学大学院医学研究院成長発達医学分野 助教

### 【研究要旨】

免疫細胞異常に起因する超早期発症炎症性腸疾患（very early onset [VEO]-IBD）の患児は、造血細胞移植（HCT）後に腸炎が寛解することある。原発性免疫不全症が基礎疾患であるVEO-IBDの患児11名にHCTを行った。移植後速やかに消化器症状が消失し、内視鏡検査でIBD治癒を確認後再燃はなかった。HCT後腸管移植片対宿主反応の制御に間葉系細胞療法を必要なかった。免疫細胞以外の異常によるIBDやヒルシュスプルング病などには間葉系細胞による炎症制御の研究を継続している。HCT後に根治に至るVEO-IBDと間葉系幹細胞による炎症制御療法が必要な難治性小児消化器疾患の鑑別が必要である。

### A．研究目的

炎症性腸疾患（IBD）の小児例は、全体の20-25%を占め、遺伝素因が関与する。とくに6歳未満発症の超早期発症型（VEO-IBD）では、原発性免疫不全症（PID）などの単一遺伝子病を疑う。このMonogenic IBDは免疫細胞異常と腸管上皮異常に大別され、いずれも難治性である。前者には造血細胞移植（HCT）後に腸炎が制御される報告がある。Monogenic IBDに対するHCTの有用性を自験例から検討した。

### B．研究方法

IBD患児に対して遺伝子解析からPID診断を確定し、HCTがIBD制御に有用と報告されている疾患を対象とした。（倫理面への配慮）遺伝子解析は倫理委員会の承認後、対象患者と家族から同意書を取得し、必要に応じて遺伝カウンセリングを行った。

（倫理面への配慮）

なし

### C．研究結果

2013年1月から2020年12月にHCTをうけた小児PID42名中11名（26%）が移植時にIBDを合併していた。原疾患は、X連鎖性慢性肉芽腫症5名、IPEX症候群2名、IL-10受容体欠損症1名、MALT1欠損症1名、RELAハプロ不全症1名およびWiskott-Aldrich症候群1名であった。IBD発症年齢の中央値は1歳0か月（範囲：0か月-13歳）で、IL-10受容体欠損症およびIPEX症候群の3名は生後1か月までに発症し、早期よりステロイド、免疫抑制剤や生物学的製剤を必要とした。また、離乳食開始で消化器症状が増悪するため、成分栄養剤のみの管理となり、患児と家族の心理的負担も増加した。これまでの知見から、原疾患とIBDにHCTが有用と報告されている疾患をHCT適応とし判断し、新規疾

患・稀少疾患には十分な説明と同意を経てHCTを実施した。移植時年齢の中央値は8歳（範囲：1歳0か月-14歳）、観察期間の中央値は30か月（範囲：10か月-84か月）であった。前処置は、骨髄破壊的1名、強度減弱前10名であった。移植源は、血縁骨髄3名、非血縁骨髄6名、臍帯血2名であった。初回移植後のキメリズムは、完全キメラが9名、混合キメラが1名、拒絶が1名であった。混合キメラと拒絶はいずれも慢性肉芽腫症患者であった。混合キメラの1名は、好中球と単球のキメリズムは完全ドナー型を維持し、易感染性と腸炎の再燃はなく観察中である。拒絶の1名は、自己血球回復もなく、緊急臍帯血移植を行った。全例生存し、消化管GVHDはなく間葉系細胞療法を必要とする例はなかった。前例腸炎症状は生着とともに速やかに改善し、内視鏡検査で粘膜治癒を確認した。食事開始後の消化器症状もなく身体発育も良好である。

#### D．考察

VEO-IBDを呈したPID11名全員がHCT後に腸管病変の完全寛解を得た。移植後の腸管GVHDは見られず、間葉系細胞療法による免疫制御を必要とする例はなかった。VEO-IBDの診療においては基礎疾患の確定から根治療法を選択することが可能である。完全キメラを目指すHCTが望ましいが、移植の適応、時期と方法に関しては、長期予後を考慮して疾患毎に十分な検討が必要である。

#### E．結論

VEO-IBD児には積極的に遺伝子解析を行い、HCTによる根治療法を検討することが必要である。

#### F．研究発表

1. 論文発表
  - 1) Yada Y, et al. Acute isolated Aspergillus appendicitis in pediatric leukemia. J Infect Chemother. 2020 Nov;26(11):1229-1231.
  - 2) Imai T, et al. Lipopolysaccharide-induced monocyte death in a novel ZnF7 domain mutation of TNFAIP3. J Allergy Clin Immunol Pract. 2020 Jun;8(6):2071-2074.e5
  - 3) Tezuka J, et al. Possible association between early formula and reduced risk of cow's milk allergy. Clin Exp Allergy. 2021 Jan;51(1):99-107.

#### 2. 学会発表

なし

#### G．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

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患政策研究事業）

分担研究報告書

## 小児歯科・口腔医学からの難病対策

岡 暁子 福岡歯科大学成長発達歯学講座成育小児歯科学分野 准教授

### 【研究要旨】

難治性小児消化器疾患によって、小児期に経口からの栄養摂取が障害されると、咀嚼や嚥下など、正常な発育過程で習得されるべき口腔機能に遅れや獲得不全が起きる可能性が高い。しかしながら、その実態はいまだ明らかになっていないのが現状である。我々は、歯科医師の立場として難治性小児消化器疾患に罹患している小児、移行期、成人期の患者の口腔形態や口腔機能に着目し、歯・口腔粘膜・咬合を含めた口腔実態の特徴と問題点を明らかにしていきたいと考えている。さらに、保護者への口腔形態・機能に関するアンケート調査を行い、歯科医療が果たすべき新たな役割を探索したい。本年度は、これらの調査内容について担当医師との協議を重ね、研究倫理申請に向けての準備を行った。

研究成果の刊行に関する一覧表

書籍

著者氏名	論文タイトル名	書籍全体の編集者名	書籍名	出版社名	出版地	出版年	ページ
Taguchi T, Obata S, Ieiri S	Chapter 15 Nationwide Survey of Japan in Hirschsprung 's Disease	Taguchi T, Matsufuji H, Ieiri S	Hirschsprung 's Disease and the Allied Disorders - Status Quo and Future Prospects of Treatment	Springer	Tokyo	2019	97-104
Ieiri S, Taguchi T	Chapter 28 Long Term Result of Ikeda-Z procedure	Taguchi T, Matsufuji H, Ieiri S	Hirschsprung 's Disease and the Allied Disorders - Status Quo and Future Prospects of Treatment	Springer	Tokyo	2019	187-194
Ieiri S, Taguchi T	Chapter 34: Nationwide Survey of Japan	Taguchi T, Matsufuji H, Ieiri S	Hirschsprung 's Disease and the Allied Disorders - Status Quo and Future Prospects of Treatment	Springer	Tokyo	2019	227-230
Ieiri S, Taguchi T	Chapter 36: Immaturity of Ganglia	Taguchi T, Matsufuji H, Ieiri S	Hirschsprung 's Disease and the Allied Disorders - Status Quo and Future Prospects of Treatment	Springer	Tokyo	2019	235-238
位田 忍		位田 忍、 川井正信、 松井 太、 石見和世、 江口奈美	みんなで考える性分化疾患 —本人と養育者と医療者のために—	診断と治療社	東京	2019	

藤野明浩	Ⅲーその他の循環器疾患を含めてー XI心臓腫瘍 心嚢リンパ管腫 (嚢胞性リンパ管奇形)		別冊日本臨牀領域別症候群シリーズ No.7 循環器症候群 (第3版)	日本臨牀社	日本	2019	552-554
冬木晶子, 大久保秀則, 中島 淳	特発性偽性腸閉塞と平滑筋ミオパチー		神経・精神疾患による消化管障害 ベッドサイドマニュアル.	株式会社中外医学社		2019	362-365

雑誌

発表者氏名	論文タイトル名	発表誌名	巻号	ページ	出版年
Obata S, Yoshimaru K, Kirino K, Izaki T, Ieiri S, Yamataka A, Koshinaga T, Iwai J, Ikeda H, Matsufuji H, Oda Y, Taguchi T	Acquired isolated hypogang lionosis as a distinct entity: results from a nationwide survey	Pediatric Surgery International,	35(2)	215-220	2019
Obata S, Ieiri S, Akiyama T, Urushihara N, Kawahara H, Kubota M, Kono M, Nirasawa Y, Honda S, Nio M, Taguchi T	Nationwide survey of outcome in patients with extensive aganglionosis in Japan	Pediatric Surgery International	35(5)	547-550	2019
Obata S, Ieiri S, Akiyama T, Urushihara N, Kawahara H, Kubota M, Kono M, Nirasawa Y, Honda S, Nio M, Taguchi T	The Outcomes of Transanal Endorectal Pull-through for Hirschsprung's Disease According to the Mucosectomy-commencing Points - A Study Based on the Results of a Nationwide Survey	Journal of Pediatric Surgery,	54(12)	2546-2549	2019

<p>Konishi K, Mizuochi T, Yanagi T, Watanabe Y, Ohkubo K, Ohga S, Maruyama H, Takeuchi I, Sekine Y, Masuda K, Kikuchi N, Yotsumoto Y, Ohtsuka Y, Tanaka H, Kudo T, Noguchi A, Fuwa K, Mushiake S, Ida S, Fujishiro J, Yamashita Y, Taguchi T, Yamamoto K.</p>	<p>Clinical Features, Molecular Genetics, and Long-Term Outcome in Congenital Chloride Diarrhea: A Nationwide Study in Japan.</p>	<p>J Pediatr.</p>	<p>214</p>	<p>151-157</p>	<p>2019</p>
<p>新井勝大, 工藤孝広, 熊谷秀規, 齋藤 武, 清水泰岳, 高橋美智子, 立花奈緒, 南部隆亮, 水落建輝, 内田恵一, 国崎玲子, 石毛 崇, 福岡智哉, 虻川大樹, 清水俊明, 田尻 仁</p>	<p>小児クローン病治療指 針 (2019年)</p>	<p>日本小児栄養 消化器肝臓学 会雑誌</p>	<p>33(2)</p>	<p>90-109</p>	<p>2019</p>
<p>虻川大樹, 青松友槻, 井上幹大, 岩間 達, 熊谷秀規, 清水泰岳, 神保圭佑, 南部隆亮, 水落建輝, 内田恵一, 国崎玲子, 石毛 崇, 福岡智哉, 新井勝大, 清水俊明, 田尻 仁</p>	<p>小児潰瘍性大腸炎治療 指針 (2019年)</p>	<p>日本小児栄養 消化器肝臓学 会雑誌</p>	<p>33(2)</p>	<p>110-127</p>	<p>2019</p>

米倉竹夫, 森下祐次, 山内勝治, 木村浩基, 梅田 聡, 石井智浩	小児短腸症候群の栄養 管理	日本静脈経腸 栄養学会雑誌	34(1)	11-19	2019
森下祐次, 米倉竹夫	CIIPS:くり返すカテー テル感染でCVラインが ない	小児外科	51	1010-1013	2019
虫明聡太郎	小腸機能不全 (intestinal failure) 患者への栄養療法	診断と治療	107(1)	73-78	2019
虫明聡太郎	特集「知っておきたい 小児の栄養」Ⅲ. 栄養 障害とその対応 1 乳 幼児期の体重増加不良 “Failure to thrive”	小児科臨床	72(4)	433-437	2019
虫明聡太郎	特集:子どものための 食の安全 II. 各論 2. 食品の摂り方による問 題とその対応 6) 特殊 ミルクや経管栄養剤に よる栄養素の欠乏 (ビ オチン, セレン, カル ニチンなど).	小児内科	51(9)	1290-1294	2019
新井勝大, 工藤孝広, 熊谷秀規, 齋藤 武, 清水泰岳, 高橋美智子, 立花奈緒, 南部隆亮, 水落建輝, 内田恵一, 国崎玲子, 石毛 崇, 福岡智哉, 虻川大樹, 清水俊明, 田尻 仁	小児クローン病治療指 針 (2019年)	日本小児栄養 消化器肝臓学 会雑誌	33(2)	90-109	2019

虻川大樹, 青松友槻, 井上幹大, 岩間 達, 熊谷秀規, 清水泰岳, 神保圭佑, 南部隆亮, 水落建輝, 内田恵一, 国崎玲子, 石毛 崇, 福岡智哉, 新井勝大, 清水俊明, 田尻 仁	小児潰瘍性大腸炎治療 指針 (2019年)	日本小児栄養 消化器肝臓学 会雑誌	33(2)	110-127	2019
木下義晶	特集 次世代小児外科 医に贈る診療のポイン ト:小児がん編 横紋筋肉腫手術手技 生検を含めて	小児外科	51(5)	502-505	2019
木下義晶	特集 外科必携フォロ ーのポイントーいつま で何をみるか 仙尾部奇形腫	小児外科	51(7)	721-724	2019
文野誠久	仙尾部奇形腫術後の身 体発育に関する長期予 後	小児外科	51(1)	86-89	2019
Fumino S, Tajiri T, Usui N, Tamura M, Sago H, Ono S, Nosaka S, Yoneda A, Souzaki R, Higashi M, Sakai K, Takahashi K, Sugiura T, Taguchi T	Japanese clinical practice guidelines for sacrococcygeal teratoma, 2017	PediatricsIn ternational	61	672-678	2019
上野豪久 (日本腸管リハビリ テーション・小腸移 植研究会), 松浦俊治, 奥山宏臣, 田口智章, 日本腸管リハビリテ ーション・小腸移植 研究会	本邦小腸移植症例登録 報告	移植	54(2-3)	129-1134	2019

中村恵美, 和田 基, 工藤博典, 仁尾正記	【臓器移植とサルコペ ニア・栄養リハビリ療 法】小腸移植における サルコペニアの現状	移植	53	345-350	2019
Ozeki M, Aoki Y, Nozawa A, Yasue S, Endo S, Hori Y, Matsuoka K, Niihori T, Funayama R, Shirota M, Nakayama K, Fukao T.	Detection of NRAS mutation in cell- free DNA biological fluids from patients with kaposiform lymphangiomatosis.	Orphanet J Rare Dis	14(1)	215	2019
Ozeki M, Nozawa A, Yasue S, Endo S, Asada R, Hashimoto H, Fukao T.	The impact of sirolimus the rapy on lesion size, clinical symptoms, and quality of life of patients with lymphatic anomalies.	Orphanet J Rare Dis.			2019
Nozawa A, Ozeki M, Yasue S, Endo S, Kawamoto N, Ohnishi H, Fumino S, Furukawa T, Tajiri T, Maekawa T, Fujino A, Souzaki R, Fukao T.	Immunological effects of sirolimus in patients with vascular anomalies.	J Pediatr Hematol Oncol	in press		2019
Ozeki M, Asada R, Saito A, Hashimoto H, Fujimura T, Kuroda T, Ueno S, Watanabe S, Nosaka S, Miyasaka M, Umezawa A, Matsuoka K, Maekawa T, Yamada Y, Fujino A, Hirakawa S, Furukawa T, Tajiri T, Kinoshita Y, Souzaki R, Fukao T	Efficacy and safety of sirolimus treatment for intractable lymphatic anomalies: a study protocol for an open-label, single-arm, multicenter, prospective study (SILA).	Regen Ther.	10	84-91	2019

Ueno S, Fujino A, Morikawa Y, Iwanaka T, Kinoshita Y, Ozeki M, Nosaka S, Matsuoka K, Usui N.	Indication of tracheostomy for head and neck lymphatic malformation in children -analysis of nationwide survey in Japan.	Surg Today.	49	410-419	2019
Ozeki M, Nozawa A, Kawamoto N, Fujino A, Hirakawa S, Fukao T.	Potential biomarkers of kaposiform lymphangiomatosis.	Pediatr Blood Cancer,	66		2019
Ozeki M, Fukao T	Generalized lymphatic anomaly and Gorham-Stout disease: overview and recent insights.	Advance Wound Care.	8	230-245	2019
Nozawa A, Ozeki M, Hori T, Kato H, Ohe N, Fukao T.	Fatal progression of Gorham-Stout disease with skull base osteomyelitis and lateral medullary syndrome.	Internal Med.	58	1929-1933	2019
藤野明浩	頰部リンパ管腫（嚢胞性リンパ管奇形）	小児外科	51 (1)	80-85	2019
江口麻優子, 野坂俊介, 植松悟子, 藤野明浩, 金森 豊, 岡本礼子, 窪田 満, 石黒 精	Cornelia de Lang 症候群に併発した盲腸捻転:臨床および画像の検討.	日本小児放射線学会雑誌	35(2)	107-115	2019
大久保秀則	慢性便秘症患者における便形状とQOLの関係	Pharma Medica	37巻(10)	100 - 101	2019
Shibui Y, Miyoshi K, Kohashi K, Kinoshita Y, Kuda M, Yamamoto H, Taguchi T, and Oda Y.	Glypican-3 expression in malignant small round cell tumors.	Oncol Lett	17(3)	3523-3528	2019

Souzaki R, Kawakubo N, Matsuura T, Yoshimaru K, Koga Yuhki, Takemoto J, Shibui Y, Kohashi K, Hayashida M, Oda Y, Ohga S, Taguchi T.	Navigation surgery using indocyanine green fluorescent imaging for hepatoblastoma patients	Pediatric Surgery Internationa l	35	551-557	2019
Takemoto J, Kuda M, Kohashi K, Yamada Y, Koga Y, Kinoshita I, Souzaki R, Taguchi T, Oda Y.	HuC/D expression in small round cell tumors and neuroendocrine tumors: a useful tool for distinguishing neuroblastoma from childhood small round cell tumors☆	Human Pathology	85	162-167	2019
野田優子, 古賀友紀, 上田圭希, 鈴木麻也, 小野宏彰, 大場詩子, 中島健太郎, 宗崎良太, 若杉陽子, 濱田裕子, 宮園真美, 岡田賢司, 田口智章, 大賀正一	小児がん患者付き添い 家族における抗がん剤 曝露の現状	日本小児血 液・がん学会 雑誌	56(3)	319-324	2019
Shibui Y, Miyoshi K, Kohashi K, Kinoshita Y, Kuda M, Yamamoto H, Taguchi T, and Oda Y.	Glypican-3 expression in malignant small round cell tumors.	Oncol Lett	17(3)	3523-3528	2019

Shimajima N, Kobayashi M, Kamba S, Harada A, Hirobe S, Ieiri S, Kuroda T, Sumiyama K	Visualization of the human enteric nervous system by confocal laser endomicroscopy in Hirschsprung's disease: an alternative to intraoperative histopathological diagnosis?	Neurogastroe nterology and motility	e13805. doi: 10.1111/nm o.13805. [Epub ahead of print]		2020
三澤 昇, 大久保秀則, 中島 淳	難治性便秘の診断と治 療 —STC, megacolon, CIPD など—.	消化器内科学 (特集 慢性便 秘症診療ガイ ドライン時代 の便秘診療)	2巻(1)	73-79	2020

令和3年 4月 1日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 福岡医療短期大学  
所属研究機関長 職名 学長  
氏名 田口 智章



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 研究者名 (所属部局・職名) 福岡医療短期大学・学長  
(氏名・フリガナ) 田口 智章・タグチ トモアキ

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査の場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> / 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> / 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> / 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> / 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> / 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する口にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

令和3年 3月 30日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 聖路加国際大学

所属研究機関長 職名 学長

氏名 堀内 成子

次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 3. 研究者名 (所属部局・職名) 聖路加国際病院・統括副院長  
(氏名・フリガナ) 松藤 凡・マツフジ ヒロシ

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査の場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

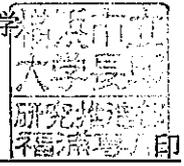
当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

令和3年 3月 9日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 横浜市立大学  
所属研究機関長 職名 学長  
氏名 相原 道子



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 研究者名 (所属部局・職名) 医学研究科・教授  
(氏名・フリガナ) 中島 淳・ナカジマ アツシ

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査の場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

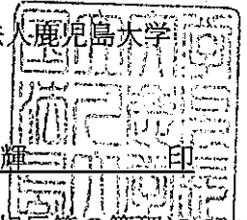
令和3年 3月30日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 国立大学法人鹿児島大学

所属研究機関長 職名 学長

氏名 佐野 輝



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
3. 研究者名 (所属部局・職名) 鹿児島大学病院 ・ 講師  
(氏名・フリガナ) 武藤 充 (ムトウ ミツル)

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査の場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

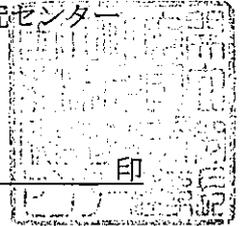
令和3年 3月 9日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 国立研究開発法人  
国立成育医療研究センター

所属研究機関長 職名 理事長

氏名 五十嵐 隆



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 研究者名 (所属部局・職名) 臓器・運動器病態外科部外科 診療部長(主任)  
(氏名・フリガナ) 金森 豊・カナモリ ユタカ

#### 4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査の場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

#### 5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

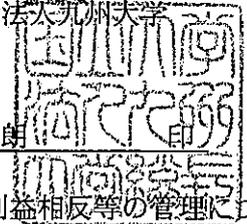
#### 6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する口にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

国立保健医療科学院長 殿

機関名 国立大学法人大九州大学  
 所属研究機関長 職名 総長  
 氏名 石橋 達朗



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
3. 研究者名 (所属部局・職名) 大学院医学研究院・講師  
 (氏名・フリガナ) 吉丸 耕一郎・ヨシマル コウイチロウ

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査に場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

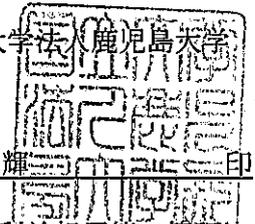
当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。  
 ・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

令和3年 3月30日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 国立大学法人(鹿児島大学)  
 所属研究機関長 職名 学長  
 氏名 佐野 輝



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 研究者名 (所属部局・職名) 学術研究院医歯学域医学系 教授  
 (氏名・フリガナ) 家入 里志 (イエイリ サトシ)

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査に場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。

・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

令和3年3月1日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 国立大学法大九州大学  
 所属研究機関長 職名 総長  
 氏名 石橋 達朗 印

次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
3. 研究者名 (所属部局・職名) 大学病院 助教  
(氏名・フリガナ) 小幡 聡 (オバタ サトシ)

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査の場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する口にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

国立保健医療科学院長 殿

機関名 慶應義塾大学  
 所属研究機関長 職名 学長  
 氏名 長谷山 彰



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
3. 研究者名 (所属部局・職名) 医学部・教授  
 (氏名・フリガナ) 黒田 達夫・クダ タツオ

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	国立成育医療研究センター	<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査に場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。  
 ・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

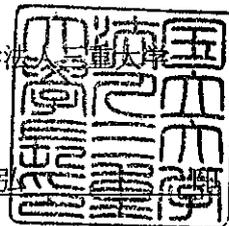
令和 3 年 3 月 17 日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 国立大学法人 駒込大学

所属研究機関長 職名 学長

氏名 駒田 美弘



次の職員の令和 2 年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 3. 研究者名 (所属部局・職名) 医学部附属病院・准教授  
(氏名・フリガナ) 内田 恵一・ウチダ ケイイチ

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査の場合は、その理由を記載すること。  
(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する口にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

令和3年3月24日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 岩手医科大学  
所属研究機関長 職名 学長  
氏名 祖父江 憲治



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
2. 研究課題名 難治性消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
3. 研究者名 (所属部局・職名) 医学部 教授  
(氏名・フリガナ) 松本 主之 (マツモト タカユキ)

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入(※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査(※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針(※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他(特記事項)

(※2) 未審査に場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (有の場合はその内容: 研究者と研究に関係する企業が利益相反関係にあることから研究結果に偏りが発生しないよう留意すること)

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

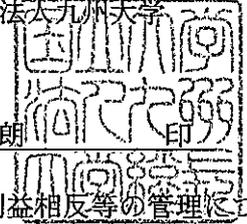
令和3年 2月 26日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 国立大学法大九州大学

所属研究機関長 職名 総長

氏名 石橋 達朗



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期の QOL 向上に関する研究
- 3. 研究者名 (所属部局・職名) 大学院医学研究院・教授  
(氏名・フリガナ) 加藤 聖子・カトウ キヨコ

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査に場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

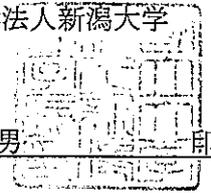
令和3年 3月31日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 国立大学法人新潟大学

所属研究機関長 職名 学長

氏名 牛木 辰男 印



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
3. 研究者名 (所属部局・職名) 医歯学系・教授  
(氏名・フリガナ) 木下 義晶・キノシタ ヨシアキ

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査に場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

令和3年3月31日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 国立大学法人九州大学

所属研究機関長 職 名 総長

氏 名 石橋 達朗

次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業

2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究

3. 研究者名 (所属部局・職名)九州大学病院・助教

(氏名・フリガナ)江頭 活子(エガシラ カツコ)

#### 4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入(1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査(2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針					
遺伝子治療等臨床研究に関する指針					
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針(3)					
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針					
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )					

(1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

#### その他(特記事項)

(2) 未審査の場合は、その理由を記載すること。

(3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

#### 5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講	未受講
-------------	----	-----

#### 6. 利益相反の管理

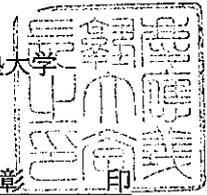
当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有	無 (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有	無 (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有	無 (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有	無 (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する にチェックを入れること。

・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

国立保健医療科学院長 殿

機関名 慶應義塾大学  
 所属研究機関長 職名 学長  
 氏名 長谷山 彰



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費補助金の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
3. 研究者名 (所属部局・職名) 医学部泌尿器科・准教授  
 (氏名・フリガナ) 浅沼 宏・アサマ ヒロシ

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査に場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

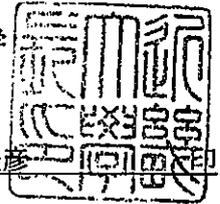
研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。  
 ・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

機関名 近畿大学  
所属研究機関長 職名 学長  
氏名 細井 美彦



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 3. 研究者名 (所属部局・職名) 奈良病院・教授  
(氏名・フリガナ) 虫明 聡太郎 ・ムシアカ ソウタロウ

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	近畿大学奈良病院	<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査に場合は、その理由を記載すること。  
(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する口にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

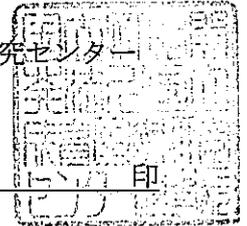
令和3年3月9日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 国立研究開発法人 国立成育医療研究センター

所属研究機関長 職名 理事長

氏名 五十嵐 隆



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 研究者名 (所属部局・職名) 器官病態系内科部消化器科 診療部長  
(氏名・フリガナ) 新井 勝大 アライ カツヒロ

#### 4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査の場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

#### 5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

#### 6. 利益相反の管理

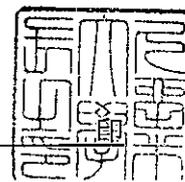
当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する口にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

令和3年 3月 15日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 久留米大学  
所属研究機関長 職名 学長  
氏名 内村 直尚



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 研究者名 (所属部局・職名) 医学部小児科学講座・講師  
(氏名・フリガナ) 水落 建輝・ミズオチ タツキ

#### 4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	久留米大学	<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	久留米大学	<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査の場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

#### 5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

#### 6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

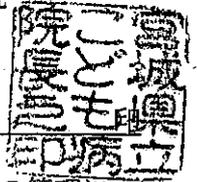
令和3年 3月 10日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 宮城県立こども病院

所属研究機関長 職名 院長

氏名 今泉 益栄



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 研究者名 (所属部局・職名) 副院長 兼 総合診療科・消化器科科长  
(氏名・フリガナ) 虻川 大樹 (アブカワ ダイキ)

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査に場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

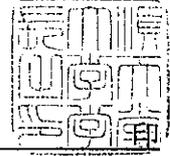
当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

令和3年4月1日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 順天堂大学  
所属研究機関長 職名 学長  
氏名 新井 一



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
3. 研究者名 (所属部局・職名) 医学部 准教授  
(氏名・フリガナ) 工藤 孝広 (クドウ タカヒロ)

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査に場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (無の場合はその理由: 申告する経済的利益関係がないため)
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。

・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

令和3年3月19日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 京都府立医科大学

所属研究機関長 職名 学長

氏名 竹中 洋



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 研究者名 (所属部局・職名) 医学(系)研究科(研究院)・教授  
(氏名・フリガナ) 田尻達郎 (タジリ タツロウ)

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	京都府立医科大学医学倫理審査委員会	<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査の場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する口にチェックを入れること。

・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

令和 3年 3月 16日

国立保健医療科学院長 殿

地方独立行政法人大阪府立病院機構  
機関名 大阪母子医療センター

所属研究機関長 職名 総長

氏名 倉智博久



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 3. 研究者名 (所属部局・職名) 小児外科 ・ 診療局長  
(氏名・フリガナ) 白井 規朗 ・ ウスイ ノリアキ

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査の場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

2021年2月24日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 国立大学法人大阪大学

所属研究機関長 職名 大学院医学系研究科長

氏名 森井 英



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 3. 研究者名 (所属部局・職名) 大学院医学系研究科・教授  
(氏名・フリガナ) 奥山 宏臣・オクヤマ ヒロオミ

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査に場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

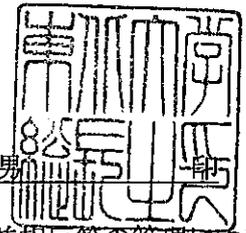
当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

令和3年 3月 15日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 東北大学  
所属研究機関長 職名 総長  
氏名 大野 英男



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 3. 研究者名 (所属部局・職名) 大学院医学系研究科・教授  
(氏名・フリガナ) 仁尾 正記 (ニオ マサキ)

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査に場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (有の場合はその内容: 研究実施の際の留意点を示した )

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

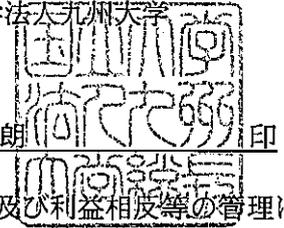
令和3年3月1日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 国立大学法人九州大学

所属研究機関長 職名 総長

氏名 石橋 達朗



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 研究者名 (所属部局・職名) 大学病院 准教授  
(氏名・フリガナ) 松浦 俊治 (マツウラ トシハル)

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査の場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

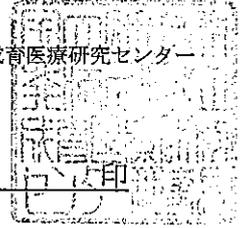
令和3年 3月 10日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 国立研究開発法人国立成育医療研究センター

所属研究機関長 職名 理事長

氏名 五十嵐 隆



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 研究者名 (所属部局・職名) 臓器・運動器病態外科部 外科 ・ 診療部長  
(氏名・フリガナ) 藤野 明浩・フジノ アキヒロ

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	国立成育医療研究センター 慶應義塾大学	<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査の場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

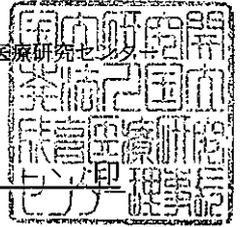
(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

国立保健医療科学院長 殿

機関名 国立研究開発法人国立成育医療研究センター

所属研究機関長 職名 理事長

氏名 五十嵐 隆



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 研究者名 (所属部局・職名) 放射線診療部 ・統括部長  
(氏名・フリガナ) 野坂 俊介・ノサカ シュンスケ

## 4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	国立成育医療研究センター 慶應義塾大学	<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項) \_\_\_\_\_

(※2) 未審査の場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

## 5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

## 6. 利益相反の管理

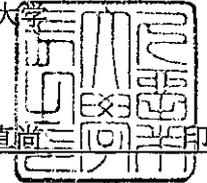
当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

令和3年 3月 11日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 久留米大学  
所属研究機関長 職名 学長  
氏名 内村 直樹



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 研究者名 (所属部局・職名) 久留米大学医学部外科学講座・小児外科部門・主任教授  
(氏名・フリガナ) 八木 実 (ヤギ ミノル)

#### 4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称： )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査の場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

#### 5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

#### 6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由： )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関： )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由： )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容： )

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

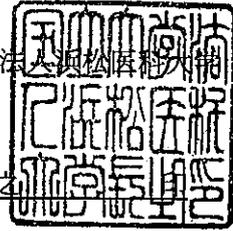
令和3年 3月11日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 国立大学法人 岡山大学 医学部 附属病院

所属研究機関長 職名 学長

氏名 今野 弘之



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 研究者名 (所属部局・職名) 医学部附属病院・小児外科・特任教授  
(氏名・フリガナ) 川原 央好・カワハラ ヒサヨシ

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査の場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

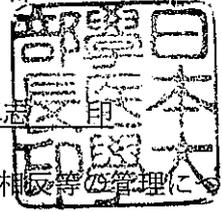
令和 3 年 3 月 30 日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 日本大学医学部

所属研究機関長 職名 医学部長

氏名 後藤 卓志



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 3. 研究者名 (所属部局・職名) 外科学系小児外科学分野・主任教授  
(氏名・フリガナ) 越永 従道 (コシナガ ツグミチ)

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	日本大学医学部附属板橋病院 臨床研究倫理審査委員会	<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査の場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

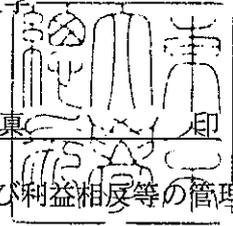
当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する口をチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

令和3年3月1日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 東京大学  
所属研究機関長 職名 総長  
氏名 五神 稔



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究(20FC1042)
- 3. 研究者名 (所属部局・職名) 医学部附属病院・教授  
(氏名・フリガナ) 藤代 準・ フジシロ ジュン

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査に場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

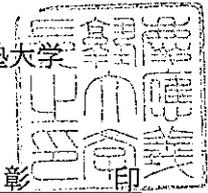
6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

国立保健医療科学院長 殿

機関名 慶應義塾大学  
 所属研究機関長 職名 学長  
 氏名 長谷山 彰



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
3. 研究者名 (所属部局・職名) 医学部・特任教授  
 (氏名・フリガナ)  瀧本 康史・ヲチモト ヤシ

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	国立成育医療研究センター	<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査に場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。  
 ・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

令和3年 3月16日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 福岡大学  
所属研究機関長 職名 学長  
氏名 朔 啓二郎



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 3. 研究者名 (所属部局・職名) 呼吸器・乳腺内分泌・小児外科 准教授  
(氏名・フリガナ) 廣瀬龍一郎 ヒロセリュウイチロウ

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	九州大学	<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査に場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

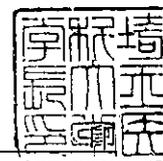
令和3年 3月 9日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 埼玉医科大学

所属研究機関長 職名 学長

氏名 別所 正美



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
3. 研究者名 (所属部局・職名) 大学病院・教授  
(氏名・フリガナ) 尾花和子・オバナカズコ

#### 4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査に場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

#### 5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

#### 6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する口にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

令和3年 4月28日

国立保健医療科学院長 殿

国立研究開発法人  
機関名 国立成育医療研究センター

所属研究機関長 職 名 理事長

氏 名 五十嵐 隆

次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 研究者名 (所属部局・職名) 研究開発監理部 生命倫理研究室・室長  
(氏名・フリガナ) 掛江 直子・カケエ ナオコ

#### 4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称： )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査に場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

#### 5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

#### 6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。

・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

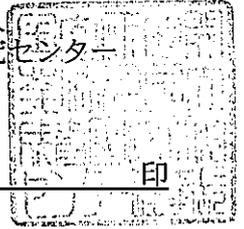
令和3年 3月 23日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 国立研究開発法人  
国立成育医療研究センター

所属研究機関長 職 名 理事長

氏 名 五十嵐 隆



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 研究者名 (所属部局・職名) 総合診療部・統括部長  
(氏名・フリガナ) 窪田 満・クボタ ミツル

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査に場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

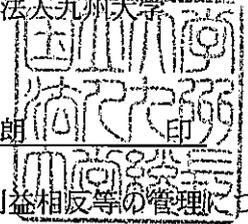
令和3年3月10日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 国立大学法大九州大学

所属研究機関長 職名 総長

氏名 石橋 達朗



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 3. 研究者名 (所属部局・職名) 大学院医学研究院・教授  
(氏名・フリガナ) 森 正樹・モリ マサキ

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査に場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

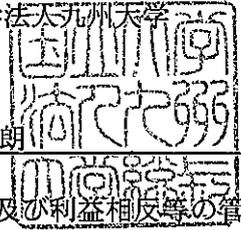
(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。

・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

令和3年3月2日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 国立大学法人九州大学  
所属研究機関長 職名 総長  
氏名 石橋 達朗 印



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 3. 研究者名 (所属部局・職名) 大学病院 助教  
(氏名・フリガナ) 桐野 浩輔 (キリノ コウスケ)

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	九州大学	<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査に場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する口にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

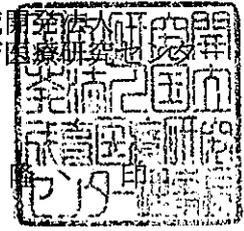
国立保健医療科学院長 殿

機関名

国立研究開発法人  
国立成育医療研究センター

所属研究機関長 職 名 理事長

氏 名 五十嵐



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
3. 研究者名 (所属部局・職名) 小児がんセンター・センター長  
(氏名・フリガナ) 松本 公一・マツモトキミカズ

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査に場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

令和3年3月9日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 国立研究開発法人  
国立成育医療研究センター  
所属研究機関長 職名 理事長  
氏名 五十嵐 隆 印

次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
3. 研究者名 (所属部局・職名) 研究所 小児慢性特定疾病情報室・室長  
(氏名・フリガナ) 盛一 享徳・モリイチ アキノリ

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査の場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関における COI の管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関における COI 委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係る COI についての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係る COI についての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

令和3年4月1日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 独立行政法人国立病院機構  
京都医療センター

所属研究機関長 職名 院長

氏名 小池 薫

次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
3. 研究者名 (所属部局・職名) 医療情報部/臨床研究センター臨床研究企画運営部情報化推進研究室・部長/室長  
(氏名・フリガナ) 北岡 有喜・キタオカ ユウキ

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入(1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査(2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針		<input checked="" type="checkbox"/>			
遺伝子治療等臨床研究に関する指針		<input checked="" type="checkbox"/>			
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針(3)		<input checked="" type="checkbox"/>			
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針		<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )		<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他(特記事項)

(2) 未審査の場合は、その理由を記載すること。

(3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する にチェックを入れること。

・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

令和3年 3月 31日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 国立成育医療研究センター

所属研究機関長 職名 理事長

氏名 五十嵐 隆



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 3. 研究者名 (所属部局・職名) 臨床研究センター データサイエンス部門・部門長  
(氏名・フリガナ) 小林 徹・コバヤシ トオル

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査に場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

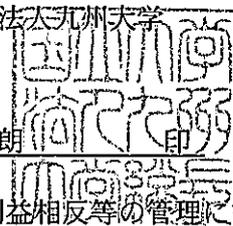
令和3年3月10日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 国立大学法大九州大学

所属研究機関長 職名 総長

氏名 石橋 達朗



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 3. 研究者名 (所属部局・職名) 大学院医学研究院・教授  
(氏名・フリガナ) 小田 義直・オダ ヨシナオ

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェック。クシ一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査に場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

令和3年 4月 9日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 国立研究開発法人  
国立成育医療研究センター

所属研究機関長 職名 理事長

氏名 五十嵐 隆



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 研究者名 (所属部局・職名) 病理診断部 統括部長  
(氏名・フリガナ) 義岡 孝子 (ヨシオカ タカコ)

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査の場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

- (留意事項)
- ・該当する□にチェックを入れること。
  - ・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

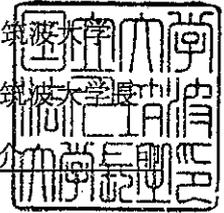
令和3年3月31日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 国立大学法人筑波大学

所属研究機関長 職名 国立大学法人筑波大学長

氏名 永田 恭介



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 3. 研究者名 (所属部局・職名) 筑波大学 医学医療系・教授  
(氏名・フリガナ) 増本 幸二 (マスモト コウジ)

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査の場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する口にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

令和3年4月27日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 近畿大学  
所属研究機関長 職名 学長  
氏名 細井 美彦



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
3. 研究者名 (所属部局・職名) 奈良病院・教授  
(氏名・フリガナ) 米倉 竹夫・ヨネツグ タケオ

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	近畿大学奈良病院	<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査に場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

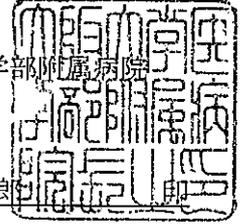
当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する口チェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

令和3年 1月 25日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 大阪大学医学部附属病院  
所属研究機関長 職名 病院長  
氏名 土岐 祐一



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 研究事業名 難治性疾患等政策研究事業
- 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期の QOL 向上に関する研究
- 研究者名 (所属部局・職名) 医学部附属病院・特任准教授 (常勤)  
(氏名・フリガナ) 上野 豪久・ウエノ タケヒサ

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査の場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

国立保健医療科学院長 殿

機関名 国立大学法人九州大学

所属研究機関長 職名 総長

氏名 石橋 達朗



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
3. 研究者名 (所属部局・職名) 大学院医学研究院・教授  
(氏名・フリガナ) 大賀 正一・オオガ ショウイチ

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査に場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する口にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

令和3年 3月26日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 独立行政法人労働者健康安全機構  
熊本労災病院

所属研究機関長 職名 院長

氏名 猪股 裕紀洋



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 3. 研究者名 (所属部局・職名) 小児外科・院長  
(氏名・フリガナ) 猪股 裕紀洋・イノマタ ユキヒロ

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	熊本労災病院	<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査に場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

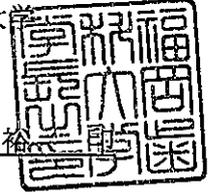
令和3年 3月22日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 福岡歯科大学

所属研究機関長 職名 学長

氏名 高橋 裕



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 3. 研究者名 (所属部局・職名) 口腔歯学部・准教授  
(氏名・フリガナ) 岡 暁子・オカ キョウコ

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査の場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

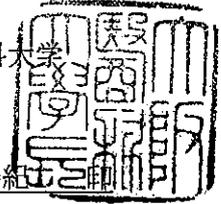
当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する口にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

令和3年 3月 31日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 大阪医科大学  
所属研究機関長 職名 学長  
氏名 大槻 勝純



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 2. 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 3. 研究者名 (所属部局・職名) 小児科 ・ 名誉教授  
(氏名・フリガナ) 玉井 浩 ・ タマイ ヒロシ

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査に場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。

令和3年3月31日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 地方独立行政法人長野県立病院機構  
長野県立こども病院

所属研究機関長 職名 病院長

氏名 中村 友彦



次の職員の令和2年度厚生労働科学研究費の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

- 研究事業名 難治性疾患政策研究事業
- 研究課題名 難治性小児消化器疾患の医療水準向上および移行期・成人期のQOL向上に関する研究
- 研究者名 (所属部局・職名) 病院長  
(氏名・フリガナ) 中村 友彦・ナカムラ トモヒコ

4. 倫理審査の状況

	該当性の有無		左記で該当がある場合のみ記入 (※1)		
	有	無	審査済み	審査した機関	未審査 (※2)
ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
遺伝子治療等臨床研究に関する指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
人を対象とする医学系研究に関する倫理指針 (※3)	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	県立こども病院倫理委員会	<input type="checkbox"/>
厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>
その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称: )	<input type="checkbox"/>	<input checked="" type="checkbox"/>	<input type="checkbox"/>		<input type="checkbox"/>

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェックし一部若しくは全部の審査が完了していない場合は、「未審査」にチェックすること。

その他 (特記事項)

(※2) 未審査に場合は、その理由を記載すること。

(※3) 廃止前の「疫学研究に関する倫理指針」や「臨床研究に関する倫理指針」に準拠する場合は、当該項目に記入すること。

5. 厚生労働分野の研究活動における不正行為への対応について

研究倫理教育の受講状況	受講 <input checked="" type="checkbox"/> 未受講 <input type="checkbox"/>
-------------	---

6. 利益相反の管理

当研究機関におけるCOIの管理に関する規定の策定	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究機関におけるCOI委員会設置の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合は委託先機関: )
当研究に係るCOIについての報告・審査の有無	有 <input checked="" type="checkbox"/> 無 <input type="checkbox"/> (無の場合はその理由: )
当研究に係るCOIについての指導・管理の有無	有 <input type="checkbox"/> 無 <input checked="" type="checkbox"/> (有の場合はその内容: )

(留意事項) ・該当する□にチェックを入れること。  
・分担研究者の所属する機関の長も作成すること。