

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 3 年度 総括・分担研究報告書

研究代表者 田口 智章

令和 4(2022) 年 3 月

目 次

・ 総括研究報告

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

・ 分担研究報告

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

2. ヒルシュスプルング病

家入 里志、小幡 聡

3. 乳幼児巨大肝血管腫

黒田 達夫

(資料 1) 295 乳幼児肝巨大血管腫

(資料 2) 疾患個票と診断基準の見直し

4. 非特異性多発性小腸潰瘍症

内田 恵一、松本 主之

5. 総排泄腔遺残症・外反症・MRKH 症候群

加藤 聖子、木下 義晶、浅沼 宏

(資料 1) 第 1 回市民公開講座・交流会 ポスター

(資料 2) 第 1 回市民公開講座・交流会 パンフレット

(資料 3) 第 5 回交流会ポスター

(資料 4) フェイスブック(総排泄腔疾患の会)トップページ

(資料 5) SNS 案内(総排泄腔疾患の会)

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

7. 仙尾部奇形腫

田尻 達郎、臼井 規朗

(資料 1) 論文: 小児外科疾患における公費負担医療の種類と申請方法 仙

尾部奇形腫

(資料2) 論文：仙尾部奇形腫の治療戦略

(資料3) 論文：胚細胞腫瘍

8. 短腸症

奥山 宏臣、仁尾 正記、松浦 俊治

9. 腹部リンパ管疾患

藤野 明浩、木下 義晶、野坂 俊介

10. 胃食道逆流症

深堀 優

(資料1) Current status of intractable pediatric gastroesophageal reflux disease in Japan: a nationwide survey

11. 食道閉鎖症

越永 従道、藤代 準

(資料1) 先天性食道閉鎖症術後の実態に関する全国アンケート調査 - 厚労科研 田口班班研究より

12. 高位・中間位鎖肛

淵本 康史、廣瀬 龍一郎

13. ASEAN 諸国への啓発と疫学研究

猪股 裕紀洋、松浦 俊治、吉岡 秀人

14. 小児歯科・口腔医学からの難病対策

岡 暁子

(資料1) アンケート用紙

(資料2) 審査結果・研究許可通知書

. 研究成果の刊行に関する一覧表

. 研究成果の刊行物・別刷

. 資料

1. 班会議

[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

[疾患グループ別会議]

1. ヒルシュスプルング病類縁疾患
2. ヒルシュスプルング病
3. 乳幼児巨大肝血管腫
4. 非特異性多発性小腸潰瘍症
5. 総排泄腔遺残症・外反症・MRKH 症候群
6. 難治性下痢症
7. 仙尾部奇形腫
8. 短腸症
9. 腹部リンパ管疾患
10. 胃食道逆流症
11. 食道閉鎖症
12. 高位・中間位鎖肛

2. 研究班名簿

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器疾患が存在する。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。

初年度及び2年度の2年間で、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。

さらに、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。

また、コロナ禍で対面会議が困難な為、遠隔会議システムを構築し、班員全員が参加する遠隔全体班

会議を年に2回行った。さらに疾患グループ別の遠隔会議を実施し、より内容を深めることができた。

分担研究者

田口 智章	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
中島 淳	横浜市立大学	医学研究科	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	小児外科系専門診療部外科	診療部長(主任)
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
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	大学院医学系研究科 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	地方独立行政法人 三重県立総合医療センター	小児外科	診療部長
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 義晶	新潟大学	小児外科	教授
浅沼 宏	慶應義塾大学	医学部 泌尿器科	准教授
虫明 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	小児内科系専門診療部消化器科	診療部長
水落 建輝	久留米大学	小児科	講師
虹川 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
白井 規朗	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 正記	東北大学	大学院医学系研究科	教授
松浦 俊治	九州大学	大学院医学系研究科 総合周産期母子医療センター	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	小児外科系専門診療部小児外科	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
深堀 優	久留米大学	外科学講座小児外科部門	准教授
越永 従道	日本大学	医学部 小児外科	教授
藤代 準	東京大学	医学部附属病院	教授
淵本 康史	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
尾花 和子	埼玉医科大学病院	大学院	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
吉住 朋晴	九州大学	大学院医学研究院 消化器・総合外科	准教授
桐野 浩輔	九州大学	大学院	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
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
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 豪久	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
清水 俊明	順天堂大学	小児科	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（ヒルシュスブルング病類縁疾患、腹部リンパ管腫、仙尾部奇形腫）、ヒルシュスブルング病類縁疾患の重症3疾患、ヒルシュ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、総排泄腔遺残・外反が指定難病に、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. ヒルシュ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. ヒルシュスブルング病（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、松本（主）
5. 総排泄腔遺残症・外反症・MRKH 症候群（指定難病） 加藤、木下、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 深堀
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、吉住
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は、小児期から移行期・成人期におよぶ稀少難治性消化管疾患群であり、うち、難病に指定された3疾患（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 (CIIP)）は重篤な経過をたどり、長期

に治療を要する疾患である。これら3疾患は、日本国内で4万出生に1例という稀少性に加え、同一疾患内でも病状バリエーションが大きいことが特徴である。このため、既策定のヒルシュスプルング病類縁疾患診療ガイドラインにより疾患概念に関する統一見解は得られたものの、日常診療に有用な新たな知見、診断法、治療法については十分な情報集積がなされていない。ガイドラインに対して新たな情報を賦与するためには、エビデンスの創出を図る必要がある。その足掛かりとして、病状病勢変化に応じた患者重症度を客観評価するために新たな評価方法の創出に取り組んでいる。並行して、指定難病3疾患のなかでisolated hypoganglionosisを中心に腸管生検方法や免疫学的病理組織評価方法の検討を進めている。また、漢方薬の効果などを含めこれまでの治療成績を議論する機会を設けている。

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。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。

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))

乳幼児肝巨大血管腫については、1) 2017年に総説の形で観光された診療ガイドラインをMINDS アニュアルに沿った形で改訂すること、2) 一般市民への情報発信を考えること、これらに加えて代表研究者との話し合いで新たに3) レジストリの構築を開始することの3点を活動目標とした。ガイドラインについては、今年度も引き続いてシステマティック・レビューを続けているが、新規

治療として注目されるプロプラノロールやシロリムスに関しては強いエビデンス総体は得られず、特に臨床研究などの進んでいるプロプラノロールに関しても本疾患と直接性の強い報告は見られなかった。これらの新規治療に関して、さらに継続して最新の文献を検索している。一方、新型コロナウイルス感染拡大により会場を設置した一般市民向けセミナーの開催はできず、webセミナーなどの開催形態を検討してゆくこととした。今年度に新たなテーマとされたレジストリの構築に関しては、海外文献などで成人期に有症状化する症例の報告が増えてきたことから、長い時間軸でデータ構造を蓄積する方針が固められ、検討が開始された。

この間、個票と診断基準の見直しの作業が入り、個票で新規治療に言及すると共に、頻度は少ないものの1歳を超えて成人期に症状が一挙に増悪する症例の報告が出てきているため、こうした症例を漏らさず診断出来るように診断基準に追記を行って、これらの改変につき日本小児外科学会の承認を受けた。

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、非特異的な組織像を呈する浅い潰瘍が小腸に多発する稀な疾患である。近年のエクソーム解析によって、プロスタグランジン輸送体をコードするSLCO2A1遺伝子の変異を原因とする遺伝性疾患であることが明らかとなり、Chronic Enteropathy Associated with SLCO2A1 gene (CEAS、SLCO2A1関連腸症)の疾患概念が確立してきた。慢性の鉄欠乏性貧血と低蛋白血症を主徴とし、炎症所見はないか軽微にとどまる。ばち指、皮膚肥厚や骨膜症などの消化管外徴候を伴うこともある。小腸病変の肉眼所見は輪走ないし斜走する帯状の潰瘍が枝分かれ、あるいは融合しながら多発する。中心静脈栄養療法以外の治療法に抵抗性であり、難治性の経過をたどる。

このような難治疾患の患者さんのQOL向上には、的確な診断基準とデータベース化、そして、充実したトランジションシステムが望まれる。

本研究では、まず、非特異性多発性小腸潰瘍症の遺伝学的検査を含めた新診断基準を作成し、日本小児外科学会、および、日本消化器病学会の承認を得た。そして、継続的に患者データベースを充実させ、小児期から成人期への移行期支援ガイドを作成している。

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」には、8項目の告示疾病が含まれている。これらの疾病の中に一次性、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“特異性難治性下痢症”があることが先行する班研究において明らかになった。

本年度当分担任研究班では、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』に改訂を加え、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・承認を得てこれを書籍化して出版した。また、“難治性下痢症”を小児慢性特定疾病の対象疾病とする申請、ならびに症例登録とコンサルテーションシステムの構築に向けて準備を進めた。

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）

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り、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望まれる。

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、刊行物などの成果物も増えている。直腸肛門研究会の保有する既存レジストリーとの連携について、同研究会での世話人会で草案について提案し、承認を得た。今後具体的なレジストリー構造についての検討を行う。

また患者交流会や、市民公開講座が積極的に行われ、SNSなどを通じての情報共有の手段の整備も進められている。さらに医療情報検索システムの構築などについて準備を進めている。

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）

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・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。

本研究では今年度、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実施した。国内日本小児外科学会認定施設・教育関連施設(A・B)計192施設への一次調査票の後、二次調査を行い73施設より381例の登録を得た。得られた情報のクリーニングを行うとともに、国際共同研究として進行中である、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）へ情報を提供した。

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。短腸症治療の現状として、中心静脈栄養に依存する短小腸による腸管吸収機能不全症候群は稀であり、予後についての調査はない。また腸管リハビリテーション医療の重要性はまだ本邦において認識されていない。欧米ではすでに中心静脈栄養を必須とする患者では、多科・多職種専門のチームによる中心静脈カテーテル管理、栄養評価、薬物療法、外科的治療などを行い、在宅経静脈栄養へむけた家族・地域支援を行うことが推奨されている（腸管リハビリテーションプログラム：IRP）。

今回、短腸症を含む腸管不全患者の実態調査を行い、本邦においても腸管不全患者は約380名程度存在しているが、施設としてNST活動は普及しているが腸管不全治療のチーム診療の経験はまだまだ少なく、各施設・主治医の工夫で治療が行われていた。

今後、短腸症患者全体の治療成績の向上には、ガイドラインなどによる治療の標準化や腸管不全治療に関する専門施設（センター）による診療支援体制の制度化などが必要と思われる。

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）

当分担研究は、主に小児において重篤な消化管通過障害、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、症例調査研究データから得られた知見をもとに、「後腹膜病変の診療アルゴリズム」および「硬化療法後の効果予測に関する研究」についての論文報告へ向けた作業を行った。

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・レビューを終了し推奨文案の作成を行った。

令和3年10月に第4回小児リンパ管疾患シンポジウムをWEB開催し、新しい治療薬、漢方薬についての最新情報や小児慢性特定疾患に関する説明など、主に患者・患者家族向けの内容で発信を行った。またHP「リンパ管疾患情報ステーション」に「患者さん体験ページ」として、患者さんの疑問に患者さんが体験談で答えるページを新設した。

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。

今年度は、小児難治性 GERD患者の現状調査の成果の内容を英文論文として投稿し、英文雑誌 Surgery Todayにアクセプトとなった。この調査結果をもとに小慢特定疾病調査票を作成し、難治性GERDの小児慢性特定疾患指定に向けた申請準備を行った。

「小児胃食道逆流症診療ガイドライン」作成を見据えたCQとなり得るような重要研究テーマを実施可能な範囲で行っていくこととした。

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、といった情報をもとに本症にかかわる政策研究の方向性を探索する。

本年度の詳細な解析では、少なくない長期フォローアップ例の存在や、長期にわたる社会的な援

助を要する症例、手術の影響と考えられる胸郭変形といった課題が見つかり、本症が独立した小児慢性特定疾病に指定されるよう申請を行っていくこととした。

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得られた排便機能についての解析を昨年度に引き続き行った。排便機能は、全体的に年齢とともに改善傾向はみられたが、中間位・高位型ともに成人になってもQOLに最も影響を及ぼす失禁スコアが2点以下の症例も少なくなかった。

このような結果も踏まえて、本症の小児慢性特定疾患指定を得るための申請準備を開始した。また、本症術後の管理法の標準化のために“術後排便管理の手引き書”を作成することとした。

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12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。

先行する研究班で開始した調査研究の結果を詳細に解析し、班全体での議論を通じて政策提言や小児慢性特定疾病への新規申請といった次のアクションを開始することができた。

いずれの疾患においても、長期的な予後に関する情報取得が望まれるものの、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に直面しており、長期予後に対する悉皆性の高い情報収集に関する新たな戦略を考える必要がある。

個々の疾患グループにおいては、患者さん・ご家族を対象とした情報共有や患者会への参画を積極的に行うことができおり、本研究領域における P P I を推進することができた。

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

吉丸耕一郎、松浦俊治、小幡 聡、小柳和子、田口智章

Hirschsprung 病類縁疾患

小児外科,53(3):308-312,2021

田口智章、吉丸耕一郎、近藤琢也、黒木まどか、貴島聡子、石井綾子

災害時小児周産期リエゾン

小児外科.53(11):1195-1200,2021

宗崎良太、田口智章

孤立性腸管重複症（後腹膜）

小児外科.53(9):990-993,2021

田口智章

Hirschsprung病

クリニカルガイド 小児科 専門医の診断・治療

水口 雅、山形崇倫 編集

P676-680、2021年5月1日、株式会社南山堂

田口智章

発行によせて

難治性下痢症診断の手引き - 小児難治性下痢症診断アルゴリズムとその解説 -

田口智章 編集、虫明聡太郎/位田 忍(難治性下痢症グループ)責任編集

P ,2021年10月20日、株式会社診断と治療

2) 海外

Takahashi Y, Obata S, Matsuura T, Kawano Y, Yanagi Y, Yoshimaru K, Izaki T, Taguchi T

The experiences of interval appendectomy for inflammatory appendiceal mass

Pediatrics International, 63(1):88-93,2021

Yuniartha R, Yamaza T, Sonoda S, Yoshimaru K, Matsuura T, Yamaza H, Oda Y, Ohga S, Taguchi T

Cholangiogenic potential of human deciduous pulp stem cell-converted hepatocyte-like cells

Stem Cell Research & Therapy, 12:57,2021

<https://doi.org/10.1186/s13287-020-02113-8>

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

Efficacy of Thoracoscopic repair of Congenital Diaphragmatic Hernia in neonates conducted from multicenter study in Japan

Surgery Today,2021

Shibui Y, Kohashi K, Tamaki A, Kinoshita I, Yamada Y, Yamamoto H, Taguchi T, Oda Y. The forkhead box M1 (FOXM1) expression and antitumor effect of FOXM1 inhibition in malignant rhabdoid tumor

Journal of Cancer Research and Clinical Oncology,147:1499-1518,2021

Yoshimaru K, Taguchi T, Fujiyoshi T, Kono T, Nway Nway Thin Aung, Mya Thanda Than, Yin Mar O, Kakazu M, Miyazaki K, Shibui Y, Takahashi Y, Kohashi K, Ei Ei Shwe, Tsuchihashi K, Endo M, Matsuura T, Oda Y, Aya Aye, Yoshioka Ha, Yoshioka Hi.

Surgical Extirpation of a Huge Desmoid Fibromatosis of the Right Buttock:Case Report of a Successful International Collaboration

SN Comprehensive Clinical Medicine,3:1746-1751,2021

Yoshimaru K, Kaku N, Taku K, Maki J, Taguchi T.
Mediastinal emphysema induced by minor intraoral toothbrush injury.
Pediatrics International,63:488-489,2021

Haruta M, Arai Y, Okita H, Tanaka Y, Takimoto T, Kamiyo T, Oue T, Souzaki R,
Taguchi T, Kuwahara Y, Chin M, Nakadate H, Hiyama E, Ishida Y, Koshinaga T, Kaneko
Y.
Frequent breakpoints of focal deletion and uniparental disomy in 22q11.1 or 11.2
segmental duplication region reveal distinct tumorigenesis in rhabdoid tumor of
the kidney.
Genes Chromosomes Cancer.60(8):546-558,2021
<https://doi.org/10.1002/gcc.22952>

Kawano T,Souzaki R, Sumida W, Ishimaru T, Fujishiro J, Hishiki T, Kinoshita Y,
Kawashima H,Uchida H, Tajiri T, Yoneda A, Oue T, Kuroda T, Koshinaga T, Hiyama E,
Nio M, Inomata Y, Taguchi T, Ieiri S.
Laparoscopic approach for abdominal neuroblastoma in Japan-Results from nationwide
multicenter survey.
Surgical Endoscopy,2021
DOI:10.1007/s00464-021-08599-4

Sasaki H, Nio M, Ando H, Kitagawa H, Kubota M, Suzuki T, Taguchi T, Hashimoto T.
Anatomical patterns of biliary atresia including hepatic radicles at the porta
hepatis influence short- and long-term prognoses
J Hepatobiliary Pancreatic Sci, 28(11):931-941,2021
DOI:10.1002/jhbp.989

Yoshimaru K, Matuura T, Yanagi Y, Obata S, Takahashi Y, Kajihara K, Ohmori A, Irie
K, Hino Y, Shibui Y, Tamaki A, Kohashi K, Oda Y, Taguchi T.
Reevaluation of concurrent acetylcholinesterase and hematoxylin and eosin staining
for Hirschsprung ' s disease.
Pediatrics International, 63(9):1095-1102,2021
DOI:10.1111/ped.14596

Inoue H, Matsunaga Y, Sawano T, Fujiyoshi J, Kinjo T, Ochiai M, Nagata K, Matsuura
T, Taguchi T, Ohga S.

Survival outcomes of very low birth weight infants with trisomy 18.

American Journal of Medical Genetics Part A.1-7,2021

DOI:10.1002/ajmg.a.62466

Kawano T, Souzaki R, Sumida W, Shimojima N, Hishiki T, Kinoshita Y, Uchida H, Tajiri T, Yoneda A, Oue T, Kuroda T, Hirobe S, Koshinaga T, Hiyama E, Nio M, Inomata Y, Taguchi T, Ieiri S.

Current thoracoscopic approach for mediastinal neuroblastoma in Japan-results from nationwide multicenter survey.

Pediatric Surgery International,37(12):1651-1658,2021

Fukahori S, Yagi M, Kawahara H, Masui D, Hashizume N, Taguchi T.

Current status of intractable pediatric gastroesophageal reflux disease in Japan: A nationwide survey.

Surgery Today,2021 accepted

Sonoda S, Yoshimaru K, Yamaza H, Yuniartha R, Matsuura T, Yamauchi-Tomoda E, Murata S, Nishida K, Oda Y, Ohga S, Tajiri T, Taguchi T, Yamaza T.

Biliary atresia specific deciduous pulp stem cells feature biliary deficiency.

Stem Cell Research & Therapy. 12(1), 2021

doi: 10.1186/s13287-021-02652-8.

Mori M, Watabe S, Taguchi T, Hasegawa H, Ishige M, Tanuma N, Hirakawa A, Koike R, Kusuda S.

Study protocol: a multicenter, uncontrolled, open-label study of palivizumab in neonates, infants, and preschool children at high risk of severe respiratory syncytial virus infection.

BMC Pediatr,21(1):106. doi: 10.1186/s12887-021-02567-6.

Kirino K, Nakahata T, Taguchi T, Saito MK.

Efficient derivation of sympathetic neurons from human pluripotent stem cells with a defined condition.

Sci Rep,8(1):12865. doi: 10.1038/s41598-018-31256-1.

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.

Pediatric Transplantation. 25(5) :e13907:,2021

doi: 10.1111/petr.13907

Nitani C, Hara J, Kawamoto H, Taguchi T, Kimura T, Yoshimura K, Hamada A, Kitano S, Hattori N, Ushijima T, Ono H, Nakamoto M, Higuchi T, Sato A.

Phase I study of tamibarotene monotherapy in pediatric and young adult patients with recurrent/refractory solid tumors.

Cancer Chemother Pharmacol. 88(1):99-107,2021

doi: 10.1007/s00280-021-04271-9.

Yoshimaru K, Yanagi Y, Obata S, Takahashi Y, Irie K, Omori A, Matsuura T, Taguchi T.

Acetylcholinesterase staining for the pathological diagnosis of Hirschsprung's disease.

Surgery Today,51:181-186,2021

doi:10.1007/s00595-020-02055-x

Yanagi Y, Matsuura T, Taguchi T.

Scaffold-Free Biofabrication of Liver

Kenzan Method for Scaffold-Free Biofabrication

Nakayama K Editor

Springer P79-90,2021

Yanagi Y, Xiu-Ying Zhang, Nagata K, Taguchi T.

Regeneration of the Diaphragm

Nakayama K Editor

Springer P139-148,2021

Kawakubo N, Taguchi T.

Tumors of the head and neck

Pediatric Surgical Oncology

Edited By Paul Losty, Michael La Quaglia, Sabine Sarnacki, Jörg Fuchs, Taguchi T.

October 14, 2021

Kinoshita Y, Taguchi T.

Testicular tumors

Pediatric Surgical Oncology

Edited By Paul Losty, Michael La Quaglia, Sabine Sarnacki, Jörg Fuchs, Taguchi T.
October 14, 2021

Souzaki R, Taguchi T.

Navigational Techniques in Pediatric Surgical Oncology
Pediatric Surgical Oncology
Edited By Paul Losty, Michael La Quaglia, Sabine Sarnacki, Jörg Fuchs, Taguchi T.
October 14, 2021

2. 学会発表

1) 国内

Fukuta A, Obata S, Jimbo T, Furuno W, Souzaki R, Matsuoka N, Katayama T, Kamimura T, Taguchi T.

The necessity of simulator training: A comparison between the experience and surgical accuracy.

第33回日本内視鏡外科学会総会、令和3年3月10日～13日、Web開催

Obata S, Kondo T, Toriigahara Y, Kono J, Takemoto J, Izaki T, Taguchi T.

Laparoscopic Heminephroureterectomy with Complete Duplicate Pelvis and Ureter; a pediatric case report.

第33回日本内視鏡外科学会総会、令和3年3月10日～13日、Web開催

田口智章.

小児消化器外科疾患のアジア開発国への展開.

第31回東北小児消化器病研究会、令和3年3月20日、Web開催

宮田潤子、小幡 聡、桐野浩輔、入江敬子、大森淳子、伊崎智子、木下義晶、松浦俊治、田口智章.

患者の語りからみえた総排泄腔遺残症のトランジション医療問題と包括的支援策.

第58回日本小児外科学会学術集会、令和3年4月28日～30日、Web開催

永田公二、近藤琢也、河野 淳、鳥井ケ原幸博、福田篤久、永田公二、近藤琢也、河野 淳、鳥井ケ原幸博、福田篤久、吉丸耕一郎、松浦俊治、田口智章.

超短腸症候群に対するSTEPの有用性に関する検討.

第58回日本小児外科学会学術集会、令和3年4月28日～30日、Web開催

吉丸耕一朗、松浦俊治、小幡 聡、梶原啓資、大森淳子、入江敬子、日野祐子、玉城昭彦、渋井勇一、孝橋賢一、小田義直、田口智章。

Immaturity of GangliaにおけるPalisading-like pattern –HE染色における新規病理所見-.
第58回日本小児外科学会学術集会、令和3年4月28日～30日、Web開催

吉丸耕一朗、桐野浩輔、松浦俊治、田口智章。

シンポジウム2：腸管神経再生；基礎研究から臨床応用まで「腸管神経再生の過去・現在・未来」.
第58回日本小児外科学会学術集会、令和3年4月28日～30日、Web開催

田口智章。

ロタウイルスワクチン～定期接種だからこそ注意すべき点～ 講演2：腸重積症の診断と治療 早期受診の重要性

第53回日本小児感染症学会総会・学術集会、令和3年10月9日、Web開催

永田公二、近藤琢也、福田篤久、川久保尚徳、小幡 聡、松浦俊治、田尻達郎、田口智章。

腋窩鏡切開を用いた食道閉鎖症根治術に関する治療成績の検討。

第37回日本小児外科学会秋季シンポジウム、令和3年10月28日～30日、Web開催

吉丸耕一朗、園田聡一郎、山内恵利佳、河野 淳、松浦俊治、山座孝義、小田義直、田尻達郎、田口智章。

hypoganglionosisに対するヒト脱落乳歯歯髄幹細胞移植による新規治療法開発。

第37回日本小児外科学会秋季シンポジウム、令和3年10月28日～30日、Web開催

宮田潤子、濱田裕子、藤田紋佳、森口晴美、川田紀美子、小幡 聡、桐野浩輔、林下里見、三原優希、植木慎悟、木下義晶、加藤聖子、田尻達郎、田口智章。

Web会議システムの利用による総排泄腔遺残症/外反症におけるピアサポートの新たな可能性。

第31回日本小児外科QOL研究会、令和3年10月28日～30日、Web開催

2) 海外

Yoshimaru K, Matsuura T, Obata S, Kohashi K, Oda Y, Tajiri T, Taguchi T.

Palisading-like pattern in Immaturity of Ganglia.

PAPS2021, November 14-18, 2021, Web開催

Kondo T, Nagata K, Jimbo T, Kono J, Yoshimaru K, Miyoshi K, Esumi G, Matsuura T, Masumoto K, Tajiri T, Taguchi T.

A unique salvage technique using the fibrous sheath method to preserve central veins in pediatric intestinal failure.

PAPS2021, November 14-18, 2021, Web開催

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

ヒルシユスプルング病類縁疾患

田口 智章 福岡医療短期大学 歯科衛生学科 学長
松藤 凡 聖路加国際大学・聖路加国際病院 小児総合医療センター長 小児外科部長
中島 淳 横浜市立大学医学研究科・肝胆膵消化器病学 教授
金森 豊 国立研究開発法人国立成育医療研究センター・小児外科系専門診療部 部長
教育研修センター 副センター長
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
吉丸 耕一郎 九州大学医学研究院・小児外科 講師
桐野 浩輔 九州大学医学研究院・小児外科 助教

【研究要旨】

ヒルシユスプルング病類縁疾患は、小児期から移行期・成人期におよぶ稀少難治性消化管疾患群であり、うち、難病に指定された3疾患（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)）は重篤な経過をたどり、長期に治療を要する疾患である。これら3疾患は、日本国内で4万出生に1例という稀少性に加え、同一疾患内でも病状バリエーションが大きいことが特徴である。このため、既策定のヒルシユスプルング病類縁疾患診療ガイドラインにより疾患概念に関する統一見解は得られたものの、日常診療に有用な新たな知見、診断法、治療法については十分な情報集積がなされていない。ガイドラインに対して新たな情報を賦与するためには、エビデンスの創出を図る必要がある。その足掛かりとして、病状病勢変化に応じた患者重症度を客観評価するために新たな評価方法の創出に取り組んでいる。並行して、指定難病3疾患のなかでisolated hypoganglionosisを中心に腸管生検方法や免疫学的病理組織評価方法の検討を進めている。また、漢方薬の効果などを含めこれまでの治療成績を議論する機会を設けている。

A. 研究目的

直腸に神経節細胞が存在するにもかかわらずヒルシユスプルング病と類似した病像を示す疾患群を、本邦では歴史的にヒルシユスプルング病類縁疾患と称してきた。しかしながら、複数の課題を抱えていた。1) 類義語が多く存在し整理されていない、2) 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、3) 稀少疾患であり、1施設当たりの症例数が少ない、4) 多施設共同研究

による実態調査が必要な疾患群であるなどの問題を解決するため、我々は、2016年度に、ヒルシユスプルング病類縁疾患診療ガイドラインを策定した。これにより、疾患概念や分類については一定のコンセンサスを得たが、実臨床に有効な診断方法や治療方法に関する記述を更新するためには、さらなるエビデンスの創出が必要な状況にある。研究班では、指定難病認定を受けた3疾患について、病状の程度や病勢の変化を客観評価するための新たな指針策定、個々

の症例の治療アウトカム情報集積、これまでの治療に関する総合評価を中心に研究活動を行うこと旨とした。

B．研究方法

本研究では、指定難病3疾患について病状病勢変化を客観評価するための新たな指針策定につとめる。過去に行った全国調査データ、および研究代表者所属施設において現在治療中の代表的重症症例病歴、理学所見、検査所見情報を集積する。このなかから病状病勢変化に伴う項目を抽出し、指針の策定帰結をめざした。また、全国の小児外科医を対象に研究会、シンポジウムを開催し、腸管生検方法や免疫学的病理組織評価方法、これまでの治療成績など議論する機会を設けた。

(倫理面への配慮)

研究の実施に必要な患者情報は、患者を「匿名化」することにより「特定の個人を識別することができない」状態に取り扱う。また、複数の集積情報を照合することによっても「特定の個人を識別することができない」加工情報として管理した。データ源との「対応表」についてはヒルシュスプルング病類縁疾患ガイドライン統括代表の九州大学大学院医学研究院小児外科分野においてのみ厳重に保管した。

C．研究結果

まずは、ガイドライン改定に至った道筋について研究グループ内議論を重ね、重症度

基準に関する記載の改訂が望ましいとの結論に至った。具体的なデータ収集・解析の方

法論についてグループ会議を行った。現在は、代表的重症症例の病歴、理学所見、検査

所見情報のなかから病状病勢変化に伴う項目抽出を遂行中である。

Isolated hypoganglionosisの早期診断法として、新生児期にS状結腸、回腸、空腸の3点に対して全層生検を行い、HuC/D染色による神経節細胞の数をカウントし評価する方法が有効であることが示された。診断基準に新たに組み込むべく、論文報告の準備中である。

シンポジウムを通し、大建中湯による腸間膜血流増強効果、免疫補助効果、蠕動支持効果はヒルシュスプルング病類縁疾患患者に有効であると共通認識が示された。

D．考察

ガイドラインの改訂が目下最も大きな目標であるが、研究班内の議論の中で多くの項目に関

してガイドライン内容を改定するほどの新たな知見は得られていないと判断された。また、新たなCQの候補となるような新規臨床疑問も想起されないと判断された。

指定難病3疾患は、いずれの症例も重症であるという国内でのコンセンサスは得られている。しかしながら、現行のガイドラインでは客観基準は提示されておらず、病状や病勢の変化を表す共通基準が定まっていない。治療に対するアウトカムの評価においても、前後の病状改善程度を客観的に表す指標は必要である。今後の研究を進めるにあたり、重症度基準の内容を見直すことに意義があるとの結論に至った。

Isolated hypoganglionosisの初期治療として、高位空腸瘻の造設が有効と考えられてきたが、複数施設でその有用性が認知されつつある。最近では、乳児期に適度の腸管切除と、Bishop-Koop型ストーマ造設により静脈栄養から離脱出来た症例も報告されている。これら貴重症例の情報を基に、今後、新生児期から乳児期の治療にフォーカスしたアルゴリズムを作成し有効性を示すことを計画している。

MMIHSおよび一部のCIIPの診断においては、遺伝子診断の導入案についても議論した。遺伝子診断のメリットとして、診断カテゴリーの細分化と再定義が可能となる、腸管全層生検が回避可能となる可能性がある、などが挙げられるが具体策の検討までには、議論は深まっていない。

CIIP、isolated hypoganglionosisの2疾患はMMIHSにと比べ、比較的予後が良い。過去の全国調査においても、研究代表者施設においても、小児期に発症し成人期へトランジションする症例が散見されるようになっている。対象疾患症例の経時的な臨床データ蓄積を鑑み、悉皆性の担保方法も議論せねばならない。疾患レジストリーの構築や、既存のプラットフォームとの連結を併行して準備する必要がある。

このように多角的にアプローチを積み重ねていくことにより、将来的に稀少疾患におけるエビデンス創出を実現できるのではないかと考えている。

E．結論

ガイドラインによりヒルシュスプルング病類縁疾患概念は統一された。目下、臨床に役立つ情報を賦与するべく多角的に研究活動を推進しており、エビデンス創出に繋げる情報集積に取り組んでいる。

F. 研究発表

1. 論文発表

欧文

- 1) Yada K, Migita M, Nakamura R, Abe S, **Matsufuji H**
Indocyanine green fluorescence during pediatric stoma closure.
Journal of Pediatric Surgery Case Reports 2020 61, 101595 doi.Org.
- 2) 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.
- 3) **Yoshimaru K**, Yanagi Y, Obata S, Takahashi Y, Irie K, Omori A, Matsuura T, **Taguchi T.** The pathological diagnosis using acetylcholinesterase staining of Hirschsprung's disease.
Surg Today. 2021; 51: 181-186.
- 4) **Yoshimaru K**, Matsuura T, Yanagi Y, Obata S, Takahashi Y, Kajihara K, Ohmori A, Irie K, Hino Y, Shibui Y, Tamaki A, Kohashi K, Oda Y, **Taguchi T.** Reevaluation of Concurrent AChE and HE staining for Hirschsprung's disease.
- 5) Pediatr Int. 2021; 63: 1095-1102.

和文

- 1) 矢田圭吾, 右田美里, **松藤 凡**, 田口智章.
小児外科領域小腸・大腸疾患における臨床研究の展望
小児外科52 pp723 - 726 2020.
- 2) **松藤 凡**, 矢田圭吾, 吉田響子.
Hirschsprung病・類縁疾患: 新生児イレウスの鑑別
小児内科, 53 pp280 284, 2021
- 3) **松藤 凡**, 矢田圭吾, 亀岡泰幸.
便秘. よくみる小児疾患101 監修, 五十嵐隆. 編集 神川 晃, 秋山千枝子.
総合医学社 pp242 245, 2021
- 4) **松藤 凡**.
- 5) 小児の慢性便秘症. 今日の治療指針 総編

集 福井次矢, 高木 誠, 小室一誠
医学書院 pp1489 1491, 2021.

- 6) 亀岡泰幸, 出口晴教, 矢田圭吾, **松藤 凡**.
小児外科疾患の家族内発生: Hirschsprung病類縁疾患の家族内発生.
小児外科53; 1285-1287, 2021.
- 7) **吉丸耕一朗**, 河野雄紀, 白井 剛, 鳥井ヶ原幸博, 梶原啓資, 内田康幸, 松浦俊治.
腸管神経異常に対するStem cell therapyの最前線.
小児外科53: 680-683, 2021.
- 8) **吉丸耕一朗**.
小児外科領域におけるstem cellを用いた病態解明と治療の展望.
日本周産期・新生児医学会雑誌. 2021; 56: 595-597.

2. 学会発表

国際学会

- 1) The 4th Joint Session between JDDW-KDDW-TDDW. (Kobe), Nov 5, 2020
Ohkubo H. **Nakajima A.**
Rising Star. Research progress of Chronic intestinal pseudo-obstruction (CIPO) in Japan and future perspective.
- 2) 54th Annual Meeting of the Pacific Association of Pediatric Surgeons, Nov 14-18, 2021.
Yoshimaru K, et al.
Past, Present, and Future of the Enteric Nerve System Regeneration.
Palisading-like pattern in Immaturity of Ganglia.

国内学会

- 1) 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.
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.
- 2) 第58回日本小腸学会学術集会, J Pタワー名古屋ホール&カンファレンス 愛知. 2020年10月24日.
大久保秀則, **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、SIB0 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．
- 3) 第58回日本小児外科学会，パシフィコ横浜
ノース・神奈川 28 April, 2021
吉丸耕一郎、桐野浩輔、松浦俊治、田口智章．
シンポジウム：腸管神経再生；基礎研究から臨床応用まで腸管神経再生の過去・現在・未来
- 4) 第25回日本小児外科漢方研究会（2021年10月29日、東京）
・シンポジウム 小児外科漢方の展開 - エビデンスの創出にむけて
セッション4 腸管運動・便秘
松藤 凡 会長により主催され、上記シンポジウムセッションにおいてヒルシュ類スプルング病類縁疾患、腸管運動改善における漢方製剤の有効性と今後の課題について、情報交換を行った。
- 5) 第25回日本小児外科漢方研究会 ベルサー
ル神田（東京）2021.10.29（金）
**武藤 充、松藤 凡、中島 淳、金森
豊、桐野浩輔、吉丸耕一郎、田口智章**
シンポジウム 小児外科漢方の展開-エビ
デンスの創出にむけて-
S5-3 ヒルシュスプルング病類縁疾患に対
する漢方治療について-ガイドライン総括及び
これまでの本邦報告まとめ

- 6) 第37回日本小児外科学会秋季シンポジウム，
ベルサール神田，東京．30 October, 2021.
吉丸耕一郎，園田聡一郎，山内恵利佳，河
野 淳，松浦俊治，山座孝義，小田義直，
田尻達郎，**田口智章**．
シンポジウム3「消化器再生」
hypoganglionosisに対するヒト脱落乳歯歯
髄幹細胞移植による新規治療法開発．

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

ヒルシユスブルグ病

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 九州大学大学病院 小児外科 助教

【研究要旨】

ヒルシユスブルグ病（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

ヒルシユスブルグ病（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

- (ア) 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。
- (イ) 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。
- (ウ) 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。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かった。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 ± 826.7 vs. TA群 : 159.0 ± 252.1 ($p < 0.05$)、手術時体重はS D群 7624.9 ± 4375.4 vs. TA群 : 5751.7 ± 1826.8 ($p < 0.05$)、出血量はS D群 13.5 ± 9.8 vs. TA群 : 4.5 ± 4.1 ($p < 0.05$)、在院日数はS D群 24.0 ± 8.3 vs. TA群 : 17.8 ± 7.2 ($p < 0.05$)、手術時間はS D群 : 225.8 ± 107.0 vs. TA群 : 265.9 ± 108.4 ($p=0.07$) という結果であった。合併症全体ではS D群 : 36 (52.2%) vs. TA

群：7（18.9%）（ $p=0.01$ ）とT A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T A群がS D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T A群がS D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) 手術時期に関する検討

国際多施設共同研究のメタアナリシスではTAEPTを含むSoave法においては2.5ヶ月未満に根治術を行った場合には、それ以降に行った場合に比較して劣るという結果が示された（参考文献1）。また鹿児島大学からの検討ではSoave法において手術時期を3 - 6ヶ月と6ヶ月以降で比較した場合には、3 - 6ヶ月に根治術を行った場合に排便機能が優れているという結果が得られた（参考文献2）。以上の結果からT A E P Tを含むSoave法で至適手術時期としては3 - 6ヶ月である可能性が示された。

- 参考文献1. Westfal ML, Okiemy O, Chung PHY, Feng J, Lu C, Miyano G, Tam PKH, Tang W, Wong KKY, Yamataka A, Guyer RA, Doody DP, Goldstein AM Optimal timing for soave primary pull-through in short-segment Hirschsprung disease: A meta-analysis. *J Pediatr Surg.* 2021 Jul 21:S0022-3468(21)00496-6. doi: 10.1016/j.jpedsurg.2021.07.007 .
2. Onishi S, Kaji T, Nakame K, Yamada K, Murakami M, Sugita K, Yano K, Matsui M, Nagano A, Harumatsu T, Yamada W, Matsukubo M, Muto M, Ieiri S. Optimal timing of definitive surgery for Hirschsprung's disease to achieve better long-term bowel function. *Surg Today.* 2022 Jan;52(1):92-97. doi: 10.1007/s00595-021-02356-9. Epub 2021 Aug 12
- 5) CQ案とSCOPE,及び診断アルゴリズムを作成

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。全国調査の結果とメタアナリシス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病事例の発生頻度、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。ガイドラインの作成および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) Masuya R, Muraji T, Harumatsu T, Muto M, Nakame K, Nanashima A, **Ieiri S**: Biliary atresia; graft-versus-host disease with maternal microchimerism as an etiopathogenesis. *Transfusion and Apheresis Science*, 2022, in press
- 2) Masuya R, Muto M, Murakami M, Sugita K, Yano K, Onishi S, Harumatsu T, Yamada K, Yamada W, Kaji T, Nanashima A, **Ieiri S**: Impact of the number of board-certified pediatric surgeons per pediatric population on the outcomes of laparoscopic fundoplication for neurologically impaired patients. *Journal of Laparoendoscopic & Advanced Surgical Techniques*, 2022, in press
- 3) Yano K, Sugita K, Muto M, Matsukubo M, Onishi S, Kedoin C, Matsui M, Murakami

- M, Harumatsu T, Yamada K, Yamada W, Kumagai K, Ido A, Kaji T, **leiri S**: The preventive effect of recombinant human hepatocyte growth factor for hepatic steatosis in a rat model of short bowel syndrome. *Journal of Pediatric Surgery*, 2022, in press
- 4) Yano K, Muto M, Harumatsu T, Nagai T, Murakami M, Kedoin C, Nagano A, Matsui M, Sugita K, Onishi S, Yamada K, Yamada W, Matsukubo M, Kaji T, **leiri S**: Analyzing the Conversion Factors Associated with Switching from a Single-incision, One-puncture Procedure to a Two-site, Three-port Procedure in Pediatric Laparoscopic Appendectomy. *Journal of Pediatric Endoscopic Surgery*, January 2022. DOI: 10.1007/s42804-021-00126-5
 - 5) Harumatsu T, Sugita K, **leiri S**, Kubota M: Risk factor analysis of irreversible renal dysfunction based on fetal ultrasonographic findings in patients with persistent cloaca: Results from a nationwide survey in Japan, *Journal of Pediatric Surgery*, 2022 Feb; 57(2):229-234. doi: 10.1016/j.jpedsurg.2021.10.038. Epub 2021 Oct 30.
 - 6) 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. *Surgery Today*, 52(1):12-21, 2022
 - 7) Shiroshita H, Inomata M, Akira S, Kanayama H, Yamaguchi S, Eguchi S, Wada N, Kurokawa Y, Uchida H, Seki Y, **leiri S**, Iwazaki M, Sato Y, Kitamura K, Tabata M, Mimata H, Takahashi H, Uemura T, Akagi T, Taniguchi F, Miyajima A, Hashizume M, Matsumoto S, Kitan So, Watanabe M, Sakai Y: Current Status of Endoscopic Surgery in Japan: The 15th National Survey of Endoscopic Surgery by the Japan Society for Endoscopic Surgery. *Asian Journal of Endoscopic Surgery*, First published: 26 December 2021 <https://doi.org/10.1111/ases.13012>
 - 8) Murakami M, Poudel S, Bajracharya J, Fukuhara M, Kiriyaama K, Shrestha M, Chaudhary R, Pokharel R, Kurashima Y, **leiri S**: Support for Introduction of Pediatric Endosurgery in Nepal as Global Pediatric Surgery: Preliminary Needs Assessment survey. *Journal of Laparoendoscopic & Advanced Surgical Techniques*, 31(12) : 1357-1362, 2021
 - 9) Sugita K, Kaji T, Yano K, Matsukubo M, Nagano A, Matsui M, Murakami M, Harumatsu T, Onishi S, Yamada K, Yamada W, Muto M, Kumagai K, Ido A, **leiri S**: The protective effects of hepatocyte growth factor on the intestinal mucosal atrophy induced by total parenteral nutrition in a rat model. *Pediatric Surgery International*, 37(12):1743-1753, 2021
 - 10) Kawano T, Souzaki R, Sumida W, Shimojima N, Hishiki T, Kinoshita Y, Kawashima H, Uchida H, Tajiri T, Yoneda A, Oue T, Kuroda T, Hirobe S, Koshinaga T, Hiyama E, Nio, M, Inomata Y, Taguchi T, **leiri S**: Current thoracoscopic approach for mediastinal neuroblastoma in Japan—Results from nationwide multicenter survey—. *Pediatric Surgery International*, 37(12):1651-1658, 2021
 - 11) Kawano T, Sozaki R, Sumida W, Ishimaru T, Fujishiro J, Hishiki T, Kinoshita Y, Kawashima H, Uchida H, Tajiri T, Yoneda A, Oue T, Kuroda T, Koshinaga T, Hiyama E, Nio, M, Inomata Y, Taguchi T, **leiri S**: Laparoscopic approach for abdominal neuroblastoma in Japan -Results from nationwide multicenter survey -. *Surgical Endoscopy*, 2021 Jun 18. doi: 10.1007/s00464-021-08599-4. Online ahead of print.
 - 12) Onishi S, Nakame N, Sugita K, Yano K, Matsui M, Nagano A, Harumatsu T, Yamada K, Yamada W, Matsukubo M, Kaji T, **leiri S**: The Optimal Timing of Definitive Surgery for Achieving a Better Long-term Bowel Function in Hirschsprung 's Disease. *Surgery Today*, 2022 Jan;52(1):92-97. doi: 10.1007/s00595-021-02356-9. Epub 2021 Aug 12.
 - 13) Muto M, Sugita K, Ibara S, Masuya R, Matsukubo M, Kawano T, Saruwatari Y, Machigashira S, Sakamoto K, Nakame K, Shinyama S, Torikai T, 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. *Pediatric Surgery International*, 37(3):411-417, 2021
- 14) Nakame K, Onishi S, Murakami M, Nagano A, Matsui M, Nagai T, Yano K, Harumatsu T, Yamada K, Yamada W, Masuya R, Muto M, Kaji T, **leiri S**: A retrospective analysis of the real-time ultrasound-guided supraclavicular approach for the insertion of a central venous catheter in pediatric patients— A comparison of the brachiocephalic vein and internal jugular vein –. *The Journal of Vascular Access*, 2021 Apr 7:11297298211008084. doi: 10.1177/11297298211008084.
- 15) Sugita K, Ibara S, Harumatsu T, Ishihara C, Naito Y, Murakami M, Machigashira S, Noguchi N, Kaji T, **leiri S**: Potential onset predictive factors for focal intestinal perforation in extremely-low-birth-weight infants based on a coagulation and fibrinolysis system analysis at birth: A Case-Control Study of Ten years ' experience at a single institution. *Journal of Pediatric Surgery*, 56(7):1121-1126, 2021
- 16) Matsukubo M, Kaji T, Onishi S, Harumatsu T, Nagano A, Matsui M, Murakami M, Sugita K, Yano K, Yamada K, Yamada W, Muto M, **leiri S**: Differential gastric emptiness according to preoperative stomach position in neurological impaired patients who underwent laparoscopic fundoplication and gastrostomy. *Surgery Today*, 51:1918-1923, 2021
- 17) Kawano T, Sugita K, Kedoin C, Nagano A, Matsui M, Murakami M, Kawano M, Yano K, Onishi S, Harumatsu T, Yamada K, Yamada W, Masuya R, Matsukubo M, Muto M, Machigashira S, Nakame K, Mukai M, Kaji T, **leiri S**: Retroperitoneal teratomas in children: a single institution experience. *Surgery Today*, 2022 Jan; 52(1):144-150. doi: 10.1007/s00595-021-02327-0. Epub 2021 Jun 19.
- 18) 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. *Surgery Today*, 51(4): 568–574, 2021
- 19) 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 long-term parenteral feeding in a rat model of short-bowel syndrome? *Pediatric Surgery International*, 37(2):247-256, 2021
- 20) Kaji T, Yano K, Onishi S, Matsui M, Nagano A, Sugita K, Harumatsu T, Yamada K, Yamada W, Matsukubo M, Muto M, **leiri S**: The evaluation of eye gaze using an eye tracking system in simulation training of real-time ultrasound-guided venipuncture. *The Journal of Vascular Access*, 2021 Feb 12:1129729820987362. doi: 10.1177/1129729820987362. Online ahead of print.
- 21) Matsukubo M, Yano K, Kaji T, Sugita K, Onishi S, Harumatsu R, 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. *Pediatric Surgery International*, 37(3):353-361, 2021
- 22) Harumatsu T, Kaji T, Nagano A, Matsui M, Yano K, Onishi S, Yamada K, Yamada W, Matsukubo M, Muto M, **leiri S**: Early definitive operation for patients with anorectal malformation was associated with a better long-term postoperative bowel function. *Pediatric Surgery International*, 37(4):445-450, 2021.
- 23) Muto M, Sugita K, Ibara S, Masuya R, Matsukubo M, Kawano T, Saruwatari Y, Machigashira S, Sakamoto K, Nakame K, Shinyama S, Torikai T, 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. *Pediatric Surgery International*, 37(3):411-417, 2021
- 24) Kawano T, **leiri S**: Laparoscopic Orchidopexy. In: Martin Lacher, Oliver J. Muensterer editors: Video Atlas of Pediatric Endosurgery(VAPE), A Step-By-Step Approach to Common Operations, pp195-198, Springer Nature Switzerland, 2021
- 25) **leiri S**, Nakame K, Yamada K: Congenital Diaphragmatic Hernia Thoracoscopic approach and Laparoscopic approach. In: Martin Lacher, Oliver J. Muensterer editors: Video Atlas of Pediatric Endosurgery(VAPE), A Step-By-Step Approach to Common Operations, pp255-259, Springer Nature Switzerland, 2021
- 26) **leiri S**, Harumatsu T, Muraji T: Chapter 10 Epidemiology: Incidence, Gender Ratio and Ethnic Variations. In Nio M: editor. Introduction of Biliary Atresia, pp65-67, Springer, Singapore, 2021
- 27) Onishi S, **leiri S**: Letter to editor regarding 53rd Annual Pacific Association of Pediatric Surgeons Meeting. *Journal of Pediatric Surgery*. 2022 Feb;57(2):328. doi: 10.1016/j.jpedsurg.2021.08.025. Epub 2021 Sep 9.
- 28) Machigashira S, Kaji T, Matsui M, Nagano A, Murakami M, Sugita K, Matsukubo M, **leiri S**: Laparoscopic retrograde biliary drainage tube stenting technique of hepaticojejunostomy for preventing anastomotic stenosis of a small hepatic duct – a case of choledochal cyst in a small infant. *Journal of Laparoendoscopic & Advanced Surgical Techniques & Part B:Videoscopy*,31(1), 2021
- 29) Matsui M, Yano K, Kaji T, Harumatsu T, Onishi S, Yamada K, Matsukubo M, **leiri S**: Laparoscopic super-low anterior resection for congenital rectal stenosis using Swenson ' s technique. *Journal of Laparoendoscopic & Advanced Surgical Techniques & Part B:Videoscopy*,31(1), 2021
- 30) Nagano A, Onishi S, Tazaki Y, Kobayashi H, **leiri S**: Fetal small bowel volvulus without malrotation detected on prenatal ultrasound. *Pediatrics International*, 63(7):845-846, 2021
- 31) Sugita K, Kaji T, Nagano A, Muto M, Nishikawa T, Masuda H, Imakiire R, Okamoto Y, Imamura M, **leiri S**: Successful laparoscopic extirpation of a vasoactive intestinal polypeptide-secreting neuroblastic tumor originating from the right adrenal gland: A report of an infantile case. *Asian Journal of Endoscopic Surgery*, 14(3):611-614, 2021
- 32) Hozaka Y, Sasaki K, Nishikawa T, Onishi S, Noda M, Tsuruda Y, Uchikado Y, Kita Y, Arigami T, Mori S, Maemura K, **leiri S**, Kawano Y, Natsugoe S, Ohtsuka T: Successful treatment of esophageal cicatricial atresia that occurred during the healing process after chemotherapy in a pediatric patient with anaplastic large cell lymphoma through minimally invasive esophagectomy: A case report. *Surgical Case Reports*,7(1):41, 2021
- 33) Harumatsu T, Kaji T, Nagano A, Matsui M, Murakami M, Sugita T, 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. *Surgical Case Reports*, 7(1):11, 2021
- 34) Murakami M, Kaji T, Nagano A, Matsui M, Onishi S, Yamada K, **leiri S**: Complete laparoscopic choledochal cyst excision and hepaticojejunostomy with laparoscopic Roux-Y reconstruction using a 5-mm stapler: A case of a 2-month-old infant. *Asian Journal of Endoscopic Surgery*, 2021 Feb 15. doi: 10.1111/ases.12928. Online ahead of

print.

- 35) **leiri S**, Ikoma S, Harumatsu T, Onishi S, Murakami M, Muto M, Kaji T: Transperineal transection through “Neo-Anus” for recto-bulbar urethral fistula using a 5-mm stapler in laparoscopically assisted anorectoplasty - A novel and secure technique. *Asian Journal of Endoscopic Surgery*, 4(4):828-830, 2021
- 36) **leiri S**, Hino Y, Irie K, Taguchi T: Single incision laparoscopic repair for late onset congenital diaphragmatic hernia using oval-shaped multichannel port device (E•Z ACCESS Oval type) - 2 months infantile case of Bochdalek Hernia. *Asian Journal of Endoscopic Surgery*, 2022 Jan; 15(1):240-243. doi: 10.1111/ases.12947. Epub 2021 May 2
- 37) **leiri S**, Kai H, Hirose R: Thoracoscopic intraoperative esophageal close technique for long gap esophageal atresia. *Asian Journal of Endoscopic Surgery*, 2022 Jan; 15(1):240-243. doi: 10.1111/ases.12947. Epub 2021 May 2
- 38) **leiri S**, Nagata K: Laparoscopic transposition for crossing vessels (vascular hitch) in pure extrinsic pelvic-ureteric junction obstruction: A successful case report of a two-year-old infant with horseshoe kidney. *Surgical Case Reports*. 7(1):103, 2021
- 39) Nagano A, Onishi S, Kedoin C, Matsui M, Murakami M, Sugita K, Yano K, Harumatsu T, Yamada K, Yamada W, Matsukubo M, Muto M, Kaji T, **leiri S**: A rare case of accessory liver lobe torsion in a pediatric patient who showed recurrent epigastralgia and who was treated by elective laparoscopic resection. *Surgical Case Reports*, 7(1):143, 2021
- 40) Baba T, Kedoin C, Yano K, Yamada K, Yamada W, Matsukubo M, Muto M, Kaji T, **leiri S**: Feasible laparoscopic retroperitoneal splenopexy and gastropexy using a needle grasper for wandering spleen with gastric volvulus: A case report of a three-year-old boy. *Journal of Laparoendoscopic & Advanced Surgical Techniques & Part B: Videoscopy*,31(5), 2021
- 41) Baba T, Kawano T, Saito Y, Onishi S, Yamada K, Yamada W, Masuya R, Nakame K, Kawasaki Y, Iino S, Sakoda M, Kirishima M, Kaji T, Tanimoto A, Natsugoe S, Ohtsuka T, Moritake H, **leiri S**: A malignant perivascular epithelioid cell neoplasm in liver: A report of a pediatric case. *Surgical Case Reports*. 7(1):212, 2021
- 42) Harumatsu T, Komori K, **leiri S**, Hirobe S: Preoperatively detected fallopian tube torsion using MRI: A case report. *Pediatrics International*. 63(10):1258-1260, 2021
- 43) Masuya R, Miyoshi K, Nakame K, Nanashima A, **leiri S**: Laparoscopic repositioning of an aberrant right hepatic artery and hepaticojejunostomy for pediatric choledochal cyst: A case report. *International Journal of Surgery Case Reports*.2021 Sep; 86:106300. doi: 10.1016/j.ijscr.2021.106300. Epub 2021 Aug 11.
- 44) Onishi S, Kedoi C, Murakami M, Higa N, Yoshida A, Onitsuka K, Moriyama T, Yoshimoto K, **leiri S**: Image-guided confirmation of a precision pull-through procedure during laparoscopically assisted anorectoplasty in an open MRI operating theater: First application in an infantile case with anorectal malformation. *Surgical Case Reports*. 7(1):211, 2021
- 45) Yamada W, Kaji T, Harumatsu T, Matsui M, **leiri S**: Recurrent intussusceptions due to small intestinal adenomyoma: A case report. *Pediatrics International*, 2022, in press
- 46) Ikoma S, Yano K, Harumatsu T, Muto M, **leiri S**: Left paraduodenal hernia with intestinal volvulus mimicking midgut volvulus. *Pediatrics International*, *Pediatrics International*. 2022 Jan; 64(1):e14964. doi: 10.1111/ped.14964
- 47) Sugita K, Onishi S, Kedoin C, Matsui M, Murakami M, Yano K, Harumatsu T, Yamada, K, Yamada W, Matsukubo M, Muto M, Kaji T, **leiri S**: A safe and effective laparoscopic Ladd 's

- procedure technique involving the confirmation of mesenteric vascular perfusion by fluorescence imaging using indocyanine green: A case report of an infant. *Asian Journal of Endoscopic Surgery*, 2022 Jan 5. doi: 10.1111/ases.13026. Online ahead of print.
- 48) Muto M, Onishi S, Murakami M, Kedoin C, Yano K, Harumatsu T, Yamada K, Yamada W, Kaji T, **leiri S**: Useful traction technique for laparoscopic fundoplication without removing proceeding gastrostomy in a neurologically impaired patient with a body deformity, *Asian Journal of Endoscopic Surgery*. 2022 Jan 23. doi: 10.1111/ases.13028. Online ahead of print.
- 49) Onishi S, Murakami M, Kedoin C, Matsui M, Sugita K, Yano K, Harumatsu T, Yamada K, Yamada W, Matsukubo M, Muto M, Kaji K, **leiri S**: Intraoperative Visualization of Urethra using Illuminating Catheter in Laparoscopy assisted Anorectoplasty for Imperforated anus -Novel and Safe Technique for Preventing Urethral Injury *Asian Journal of Endoscopic Surgery*, 2022, in press
- 50) **leiri S**, Koga Y, Onishi S, Murakami M, Yano K, Harumatsu T, Yamada K, Muto M, Hayashida M, Kaji T: An ambidextrous needle driving and knot tying helps perform secure hepaticojejunostomy of choledochal cyst. *Journal of Hepato-Biliary-Pancreatic Sciences*, 2021 Dec 13. doi: 10.1002/jhbp.1100. Online ahead of print.
- 51) **家人里志**: 総論; 第22章 術前術後管理と術後合併症, 標準外科学, 医学書院、東京、2022
- 52) **家人里志**, 監修: 高松英夫、福澤正洋, 編集: 上野 滋, 仁尾正記, 奥山宏臣 標準小児外科学 第8版, 【消化器(実質臓器)・体表・泌尿器生殖器】[19] 脾・門脈, 医学書院, 東京, 2022
- 53) 山田耕嗣、矢野圭輔、武藤 充、**家人里志**: 『小児救急標準テキスト-basic編』II 疾患・外傷編 D)外科的治療もしくは外科コンサルトが必要な疾患 消化器外科 (6) 中腸軸捻転, 中外医学社, 東京, 2022
- 54) 矢野圭輔、山田耕嗣、武藤 充、**家人里志**: 『小児救急標準テキスト-basic編』II 疾患・外傷編 D)外科的治療もしくは外科コンサルトが必要な疾患 消化器外科 (6) 腸閉塞, 中外医学社, 東京, 2022
- 55) 武藤 充、矢野圭輔、山田耕嗣、**家人里志**: 『小児救急標準テキスト-basic編』II 疾患・外傷編 D)外科的治療もしくは外科コンサルトが必要な疾患 泌尿器科 (3)尿管管遺残症, 中外医学社, 東京, 2022
- 56) 松井まゆ, 春松敏夫, 川野孝文, 村上雅一, 長野綾香, 杉田光士郎, 矢野圭輔, 大西 峻, 加治 建, **家人里志**: 経陰嚢操作を加え高位精巣摘除術を行った幼児精巣原発卵黄嚢腫瘍の2例. *日本小児外科学会雑誌*, 58(1): 2022
- 57) 祁答院千寛, 春松敏夫, 矢野圭輔, 長野綾香, 松井まゆ, 村上雅一, 杉田光士郎, 武藤 充, 加治 建, **家人里志**: 外傷性膀胱損傷後の膀胱性嚢胞に対し腹腔鏡下嚢胞開窓ドレナージが奏功した1例, *日本小児外科学会雑誌*, 57(2):487, 2021
- 58) 町頭成郎, 井手迫俊彦, 村上雅一, 川野正人, 杉田光士郎, 松久保眞, 川野孝文, 松田良一郎, 五反田丈徳, **家人里志**: 小児急性陰嚢症に対するTWISTスコアの有用性の検討. *日本小児泌尿器科学会雑誌*, 31(21): 2022
- 59) 馬場徳朗、鈴東昌也、矢野圭輔、向井基、野口啓幸、後藤倫子、武藤 充、松久保眞、**家人里志**: 大網被覆の有無からみた小児腫瘤形成性虫垂炎の臨床像の検討. *日本小児救急医学会雑誌*, 2022, in press
- 60) 馬場徳朗, 生駒真一郎, 村上雅一, 杉田光士郎, 松久保眞, 武藤 充, 川野孝文, 町頭成郎, 野口啓幸, **家人里志**: 年長児腸重積症自験10例に対する臨床的検討. *日本小児外科学会雑誌*, 57(7): 1049-1056, 2021
- 61) 矢野 圭輔, 春松 敏夫, 山田 耕嗣, 杉田 光士郎, 町頭 成郎, 大西 峻, 武藤 充, 加治 建, 垣花 泰之, **家人里志**, 小児外傷性肝損傷に対する重症度別診断アプローチとフォローアップ方法に関する検討, *日本小児救急医学会雑誌*, 20(3):418-42, 2021
- 62) 鳥飼源史、高橋大二郎、藤江由夏、後藤仰子、蓮田慶太郎、**家人里志**: 固有筋層の部分的欠損を伴った超低出生体重児の限局性小腸穿孔の一例. *日本小児外科学会雑誌*, 57(7): 1094-1098, 2021
- 63) 榎屋 隆太, 中目 和彦, 楯 真由美, 黒木

- 純, 河野 文彰, 市原 明子, 池田 拓人, 武野 慎祐, 七島 篤志, **家入里志**, 胃穿孔による汎発性腹膜炎を生じた急性胃軸捻転の1例, 日本小児外科学会雑誌, 57(6):1002-1007, 2021
- 64) 永井 太一郎, 大西 峻, 連 利博, 武藤 充, 矢野 圭輔, 春松 敏夫, 山田 耕嗣, 山田 和歌, 加治 建, **家入里志**, 画像診断と気管支鏡所見が不一致であった声門下嚢胞の1例, 日本小児外科学会雑誌, 57(6):976-980, 2021
- 65) 杉田 光士郎, 野口 啓幸, 松久保 眞, 村上 雅一, 町頭 成郎, 家入 里志, 逆Y字皮膚切開による臍形成術(VY皮弁法)の治療成績アンケートによる患者満足度調査, 日本小児外科学会雑誌57(6):938-945, 2021
- 66) 菱木 知郎, **家入里志**, 米田 光宏, 小野 滋, 田尻 達郎, 各領域から考える外科専門医制度 小児外科領域から考える外科専門医制度, 日本外科学会雑誌, 122(5):529-531, 2021
- 67) 松久保 眞, 春松 敏夫, 武藤 充, 長野 綾香, 松井 まゆ, 矢野 圭輔, 山田 耕嗣, 山田 和歌, 加治 建, **家入里志**, 術前診断が可能であったが腸管切除を要した小腸間膜裂孔ヘルニアの1例, 日本小児外科学会雑誌, 57(4):735-741, 2021
- 68) 山田 耕嗣, 祁答院 千寛, 長野 綾香, 松井 まゆ, 村上 雅一, 矢野 圭輔, 杉田 光士郎, 大西 峻, 春松 敏夫, 山田 和歌, 松久保 眞, 武藤 充, 加治 建, **家入里志**, 【シミュレーションとナビゲーション】腹腔鏡手術トレーニングシミュレータ, 小児外科, 53(5):499-503, 2021
- 69) 大西 峻, 山田 耕嗣, 祁答院 千寛, 松井 まゆ, 長野 綾香, 村上 雅一, 矢野 圭輔, 杉田 光士郎, 春松 敏夫, 山田 和歌, 松久保 眞, 武藤 充, 加治 建, **家入里志**, 【シミュレーションとナビゲーション】3Dプリンターを用いた疾患型シミュレータ, 小児外科, 53(5):494-498, 2021
- 70) **家入里志**, 大西 峻, 祁答院 千寛, 長野 綾香, 松井 まゆ, 村上 雅一, 杉田 光士郎, 矢野 圭輔, 春松 敏夫, 山田 耕嗣, 山田 和歌, 松久保 眞, 武藤 充, 加治 建, 【小児外科疾患における公費負担医療の種類と申請方法】Hirschsprung病, 小児外科, 53(3):303-307, 2021
- 71) 町頭 成郎, 中目 和彦, 村上 雅一, 川野 正人, 矢野 圭輔, 山田 耕嗣, 川野 孝文, 加治 建, 上塘 正人, 茨 聡, **家入里志**, 【出生前診断された小児外科疾患の鑑別と周産期管理】梨状窩嚢胞, 小児外科, 53(2):121-125, 2021
- 72) 山田耕嗣, **家入里志**: 臨床各科 差分解説 「シミュレータを用いた内視鏡外科手術トレーニング」週刊日本医事新報, 5046:p48, 2021
- 73) 町頭成郎, **家入里志**: 臨床各科 差分解説 「腸管不全関連肝障害(IFALD)に対する脂肪乳剤の影響」週刊日本医事新報, 5055:p44, 2021
- 74) **家入里志**, 中目和彦: 臨床各科 差分解説 「小児外科領域におけるロボット手術」週刊日本医事新報, 5079:p46, 2021
- 75) **家入里志**, 中目 和彦, 長野 綾香, 松井 まゆ, 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, 村上 雅一, 杉田 光士郎, 術後機能を考慮した小児呼吸器外科手術 先天性嚢胞性肺疾患を中心に, 日本小児呼吸器学会雑誌, 31(2):152-158, 2021
- 76) 矢野圭輔, 杉田光士郎, **家入里志**: GLP-2によるIFALD克服を目指した革新的治療法の開発. Precision Medicine, 4(14): 69-73, 2021
- 77) 大西 峻, 川野孝文, 祁答院千寛, 杉田光士郎, 長野綾香, 松井まゆ, 村上雅一, 矢野圭輔, 春松敏夫, 山田耕嗣, 山田和歌, 松久保眞, 武藤 充, 加治 建, **家入里志** 特集【小児外科疾患の家族内発生】14.Hirschsprung病, 小児外科, 53(12):1281-1284, 2021
2. 学会発表
- 1) **家入里志**, 矢野圭輔, 祁答院千寛, 長野綾香, 松井まゆ, 村上雅一, 杉田光士郎, 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: 働き方改革とキャリア形成の両立を目指してー教育的立場と大学病院労務管理の観点から Establishment of both reforming of working practices and career path for pediatric surgeons , 第58回日本小児外科学会学術集会, 2021.4.28-30, 横浜市
- 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

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は、1) 2017年に総説の形で観光された診療ガイドラインをMINDSアニュアルに沿った形で改訂すること、2) 一般市民への情報発信を考えること、これらに加えて代表研究者との話し合いで新たに3) レジストリの構築を開始することの3点を活動目標とした。ガイドラインについては、今年度も引き続いてシステムティック・レビューを続けているが、新規治療として注目されるプロプラノロールやシロリムスに関しては強いエビデンス総体は得られず、特に臨床研究などの進んでいるプロプラノロールに関しても本疾患と直接性の強い報告は見られなかった。これらの新規治療に関して、さらに継続して最新の文献を検索している。一方、新型コロナウイルス感染拡大により会場を設置した一般市民向けセミナーの開催はできず、webセミナーなどの開催形態を検討してゆくこととした。今年度に新たなテーマとされたレジストリの構築に関しては、海外文献などで成人期に有症状化する症例の報告が増えてきたことから、長い時間軸でデータ構造を蓄積する方針が固められ、検討が開始された。

この間、個票と診断基準の見直しの作業が入り、個票で新規治療に言及すると共に、頻度は少ないものの1歳を超えて成人期に症状が一挙に増悪する症例の報告が出てきているため、こうした症例を漏らさず診断出来るように診断基準に追記を行って、これらの改変につき日本小児外科学会の承認を受けた。

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、乳幼児期に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、致命的な経過をとり、一部の症例では乳幼児期を乗り切った後に非代償性の肝不全兆候を呈する。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。本邦においても厚生労働省難治性疾患克服研究事業の一環として症例調査が行われ、疾患の診断基準や重症度分類が策定されて、小児慢性特定疾病、難病の指定も受けるに至ってい

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稀少であり、本疾患に関する文献報告などは限定的で、MINDSマニュアルに沿ったガイドラインへの改訂が課題であった。

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。

治療に関して、2017年ガイドライン策定の少し前よりプロプラノロールの血管腫に対する有用性の報告が散見されるようになり、その後、徐々に大きなシリーズでの報告が出始めている。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・血管奇形、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。これは組織学的に毛管腫、血管奇形双方の背景が推定される肝巨大血管腫に対する有効な新規薬物療法として、大きな注目を集めているが、これまでのところでは前向き試験やRCTにより本疾患に対するmTOR阻害剤の有用性を明らかにした報告はない。加えてこれまでの後方視的研究では、比較的大きなシリーズで肝病変のmTOR阻害剤の非感受性を記述したものもみられる。

このような本疾患の背景を受けて、本研究課題では、最も中心的な目的として改めてMINDS2014年版以降のガイドライン作成手順に準拠した形で、乳幼児肝巨大血管腫に対する診療ガイドラインの改訂を目指した。すでにCQ見直しと新たなSCOPE策定が行われ、聖路加国際病院図書館で体系的文献検索を行って、昨年度よりシステマティック・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に向けに公費負担の制度と併せて啓蒙的活動を行う事为目标とした。

また、新たな目標として、本疾患のレジストリ構築を目指すことが提案され、今年度より検討を開始することとなった。

B．研究方法

1) ガイドライン改訂

(1) 文献検索ならびにシステマティック・レビュー

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・レビューが行われた。検索された文献の検討において、前節で述べられた新規薬物療法に関して、本疾患への直接性ならびにエビデンスレベルの強い文献が、体系的文献検索の時点でほぼ皆無であることが分かってきた。このため、これらの項目に関して、さらに最新の情報を得るために、焦点を絞った文献検索とシステマティック・レビューを継続して行った。

(2) 疾患個票・診断基準の改訂

進行中の体系的文献検索では、海外より乳幼児期を過ぎて成人期に有症状化する症例や、成人期発症症例が散見されるようになった。これを受けて、今年度中の疾患個票および診断基準の見直し作業で、新たな情報を反映させて個票と診断基準の改訂を行った。

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。

3) レジストリ構築の検討

本疾患のレジストリを構築する方向性で、データ構造などについて検討を開始した。

（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

(1) 文献検索ならびにシステマティック・レビュー

本年度もシステマティック・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、探索中のプロプラノロールおよびmTOR阻害剤に関する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やはり検策

しえなかった。これら新規薬物療法のうち、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かなり散見されるようになったが、肝血管腫に特化した直接性のある報告は今年度の探索でも無かった。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、現時点でもほとんどが症例報告で、後方視的な検討を含めても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多くの症例の検討と思われた。昨年度の報告にも述べたように、この研究では対象例中6例肝血管腫症例で、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、このまま改訂作業を続けると、今回の改訂では新規薬物治療の効果に関する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。

(2) 疾患個票・診断基準の改訂

疾患個票の見直しに当たっては、これまでの文献検索と、システムティック・レビューの結果を反映するようにした。最も重要な改訂点は、新規薬物治療として、プロプラノロールとmTOR阻害剤に関する記述を追記した。しかしながら、上述のように効果に関するエビデンス総体が強くないことを明記し、特にmTOR阻害剤では、現時点で有用性が期待できるものの明らかな有用性を証明した報告がないことも併記し、治療の選択肢とはなり得るものの、効果の保証がないことが分かるようにした。また、敢えて追記は簡便で短い文章とし、これら新規治療が過度に評価されない様に留意した。

一方、昨年度までの検討で、成人期に有症状化する症例の報告が集められている。この中には小児期より肝病変の存在が診断されていて、成人期に至って、従来指摘されていた慢性の肝不全徴候の進行のみならず、高拍出性心不全や消費性凝固障害のような急性期症状で発症し、肝移植などの治療を要した症例が含まれる。中には小児期の肝病変については知られず、成人期に、従来は乳児期の本疾患の症状と考えられていた症状、徴候で発症した症例も見られている。こうした治験の蓄積を受けて、乳幼児期を過ぎて成人期に有症状化して診断された症例も、本疾患に含まれるように、診断基準を改定した。文献報告ではこうした症例の中で最も病変の大きさの小さな症例では径10cmで、新しい

基準では径10cm以上を巨大血管腫と見做し得るようにし、成人期の診断例でも肝に巨大ないしびまん性の病変があり、有症状であることを本疾患の診断基準とした。この改訂基準に関して、日本小児外科学会へ検討・審議を求め、承認を得た。

その他、用語の使い方など細かい点を含めて新旧対照表を作成し、これに関しても学会承認を得た。さらに議論が追加され、肝血管腫の合併病変として知られる皮膚血管腫に関しては、特異性が低く、特に有症状の肝巨大血管腫との関連性が薄いことから、添付の診断基準最終案では、この項目は削除された。

2) 一般啓蒙活動の検討

今年度は、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はweb開催の形で開催された。しかしながら、新型コロナウイルス感染拡大により、会場を設置することはできず、予め登録された参加者に招待URLを送付する形をとった。血管腫に関しては、患者組織などのシステムがなく、参加登録の呼びかけが十分にできないことから、今年度も見送らざるを得なかった。稀少な症例の掘り起こしと、患者会の様な組織整備、一般に対する情報発信の方法などの課題が浮き彫りにされた

3) レジストリ構築の検討

今年度、研究代表者との議論のなかで、本疾患のレジストリ構築につき検討することが指摘された。これを受けて、レジストリの構築につき検討され、稀少な症例を出来るだけ掘り起こしてデータベース化することは重要であることに関してはコンセンサスが得られた。症例数が稀少であることに加えて、乳幼児期に限らず成人期まで長い時間的スパンで情報を収集してゆく必要があることが、レジストリのデータ構造ならびにそのアップロード・システムはかなり複雑になると思われた。これらについてはさらに慎重に審議を続けてゆく必要がある。

D. 考察

巨大な脈管腫瘍・奇形に対しては、近年の血管腫に対する新たな概念・分類の提唱や、プロプラノロールや、さらにはmTOR阻害剤と言った新たな治療薬の導入によって、革命的な診療方針の転換が期待された。本研究課題の主眼である肝巨大血管腫に対する診療ガイドラインの改訂では、こうした最新の概念や治療戦略を反映

することが期待されていた。しかしながら今年度の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においても、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、現時点で見つかっていない。

継続中のシステマティック・レビューの中でこれまでに明らかになってきた問題点を、もう一度、まとめる。

- (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、未確立である
- (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

ガイドラインの推奨文の策定は、次年度以降になるが、現時点では新規治療の有用性に関して、弱いにせよこれを推奨する十分なエビデンスは乏しく、MINDSマニュアルに沿った臨床課題とその回答を主軸にしたガイドライン策定は非常に難しいように思われる。

しかしながら、これまでのレビューのより、新たな所見は蓄積しており、今年度にたまたま研究班で行われた疾患個票と診断基準の見直しには、これらが反映された。成人期に有症状化する症例を大幅に本疾患の繰り入れることは、本疾患を扱う上で非常に大きな変更である。本疾患の病理組織学的背景が明らかでないため、従来の乳幼児期発症例と成人期発症例で、病変の組織に相違があるかどうか、今後明らかにしなければいけない課題である。

一方で、臨床的観点からは、成人症例も含めたこれらの症例には極めて強い類似性があり、今回の改訂は妥当であると考えられる。

ガイドラインとして、次回改訂時の形態については、次年度までの検索結果でMINDSマニュアル様式か、再び総説としてこれに追加情報を付記するか、最終的に判断しなければならない。

さらに課題として、稀少症例に対するコロナ禍における情報発信の難しさも、浮き彫りにされた。稀少疾患であるが故に、症例の組織化は重要になってくるように思われる。そうした意味合いでも、レジストリ構築への方向性は、今後、重要になってくると思われる。長い時間的

スパンにわたりデータのアップロードが必要になると思われるが、実際にどのようなシステムで、経済的にどのようにレジストリ事業を構築してゆくかは大きな問題である。

次年度以降の議論の進捗に伴い、この課題も解決が必要である。

E. 結論

乳幼児肝巨大血管腫診療ガイドラインの更新・改訂作業を進めた。今年度も引き続いてシステマティック・レビューを続けているが、新規治療として注目されるプロプラノロールに関する本疾患と直接性の強い報告は見られず、mTOR阻害剤についても肝巨大血管腫に対する有用性を明らかにした報告は見られていない。これらの新規治療に関して、さらに継続して最新の文献を検索している。一方、この間に個票と診断基準の見直しの作業が入り、個票で新規治療に言及すると共に、頻度は少ないものの1歳を超えて成人期に症状が一挙に増悪する症例の報告が出てきたことに基づいて、こうした症例を漏らさず診断出来るように診断基準に追記を行った。これらの改変については日本小児外科学会の承認を受けた。

今年度も、新型コロナウイルス感染拡大により会場を設置した一般市民向けセミナーの開催はできず、webセミナーなどの開催形態を続けて検討してゆくこととした。また、今年度に新たにレジストリの構築が検討課題に加えられた。長い時間軸でデータ構造を蓄積する方針が固められ、検討が開始された。

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：313-317

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

非特異性多発性小腸潰瘍症

内田 恵一 三重県立総合医療センター 診療部長兼小児外科部長

【研究要旨】

非特異性多発性小腸潰瘍症は、非特異的な組織像を呈する浅い潰瘍が小腸に多発する稀な疾患である。近年のエクソーム解析によって、プロスタグランジン輸送体をコードする *SLCO2A1* 遺伝子の変異を原因とする遺伝性疾患であることが明らかとなり、Chronic Enteropathy Associated with *SLCO2A1* gene (CEAS、*SLCO2A1* 関連腸症) の疾患概念が確立してきた。慢性の鉄欠乏性貧血と低蛋白血症を主徴とし、炎症所見はないか軽微にとどまる。ばち指、皮膚肥厚や骨膜炎などの消化管外徴候を伴うこともある。小腸病変の肉眼所見は輪走ないし斜走する帯状の潰瘍が枝分かれ、あるいは融合しながら多発する。中心静脈栄養療法以外の治療法に抵抗性であり、難治性の経過をたどる。

このような難治疾患の患者さんのQOL向上には、的確な診断基準とデータベース化、そして、充実したトランジションシステムが望まれる。

本研究では、まず、非特異性多発性小腸潰瘍症の遺伝学的検査を含めた新診断基準を作成し、日本小児外科学会、および、日本消化器病学会の承認を得た。そして、継続的に患者データベースを充実させ、小児期から成人期への移行期支援ガイドを作成している。

A．研究目的

非特異性多発性小腸潰瘍症は、小児期から成人期に発症する慢性消化管疾患であり、本邦における症例数は約200例と考えられている稀少難治性疾患である。現在確立された治療法はなく、難治性の経過をたどることがあり、小児期から移行期、成人期にかけて、シームレスなフォローアップが患者さんのQOLの向上には不可欠である。本研究の目的は、遺伝学的異常を含めたシームレスな新診断基準を作成し、充実した患者データベースを作成する事により臨床像の研究を行い、小児期から成人期への充実したトランジションシステムを構築することである。

B．研究方法

厚生労働科学研究費補助金難治性疾患等政策研究事業「難治性炎症性腸管障害に関する調査研究」班（久松班）と協力し、非特異性多発性小腸潰瘍症の症例を集積し、患者データベース

作成により臨床・遺伝学的特徴を明らかにする。それらをもとに、遺伝学的異常を含めたシームレスな新診断基準を作成する。また、小児外科疾患や小児性腸疾患の移行期医療の資料を参考に、本症に対する移行期支援ガイドを作成する。

（倫理面への配慮）

遺伝学的検査を研究グループの施設で行う際には、各施設の倫理委員会での承認後に、匿名化を行い患者情報と検体を収集し、*SLCO2A1* 遺伝子異常の検査はDNAエクソーム解析を行う。

C．研究結果

【新診断基準について】

下記のように、非特異性多発性小腸潰瘍症の新診断基準を作成し、久松班、本班、日本小児外科学会、日本消化器病学会の承認を得た。

< 診断基準 >

Definiteを対象とする。

非特異性多発性小腸潰瘍症の診断基準

主要所見

A. 臨床的事項

長期にわたる鉄欠乏性貧血と低蛋白血症

B. 消化管病変（十二指腸～回腸、主に回腸）*

1) と3)、又は2) と3) を認めるもの

- 1) 多発する非対称性の変形や狭窄、輪状狭窄
- 2) 境界鮮鋭で斜走、横走する浅い潰瘍、地図状・テープ状潰瘍
- 3) 生検組織や切除標本の病理組織学的検査で肉芽腫などの特異的炎症所見が見られない

C. *SLC02A1* 遺伝学的検査

病的バリエーションを認める

D. 鑑別疾患

- 1) 腸結核（疑診例を含む）
- 2) クローン病
- 3) 腸管ベーチェット病 / 単純性潰瘍
- 4) 薬剤性腸炎
- 5) 好酸球性胃腸炎
- 6) 放射線性腸炎
- 7) 虚血性小腸炎
- 8) 地中海熱関連腸炎
- 9) リンパ増殖性疾患などの小腸腫瘍
- 10) 感染性腸炎、など

副所見

- 1) 消化管生検組織や切除標本中の血管内皮における *SLC02A1* 蛋白発現低下
- 2) 尿中プロスタグランジン代謝産物（PGE-MUM）濃度上昇
- 3) 肥厚性皮膚骨膜炎に合致する所見

< 診断のカテゴリー >

Definite :

3つの主要所見A～Cのうち2つ以上を満たし、Dを除外したもの。

Possible :

主要所見のA又はBを満たし、副所見のいずれかを認め、Dを除外したもの。

【患者データベースについて】

2011年11月から2021年12月までに、71例において、*SLC02A1* 遺伝子の病的変異を認めている。

【トランジションシステムの構築について】

下記のように、非特異性多発性小腸潰瘍症の移行期支援ガイドを作成し、難病センターのHPに掲載する予定である。

< 非特異性多発性小腸潰瘍症の移行期支援ガイド >

2021年11月27日

1. 疾患名および病態

【非特異性多発性小腸潰瘍症】

浅い潰瘍が主に小腸に多発する稀な疾患であり、近年プロスタグランジン輸送体をコードする *SLC02A1* 遺伝子の病的バリエーションを原因とする遺伝性疾患であることが明らかとなった。慢性の鉄欠乏性貧血と低蛋白血症を主徴とし、炎症所見はないか軽微にとどまる。

2. 一般的な治療概略

【症状】

長期にわたる鉄欠乏性貧血や低蛋白血症、そして、消化管狭窄症状として腹痛がある。

【診断時期】

乳幼児期から成人期

【検査】

内視鏡検査：十二指腸から回腸に、輪状または帯状の浅い潰瘍が多発する。
SLC02A1 遺伝学的検査：病的バリエーションを認める。

除外診断：腸結核、クローン病、腸管ベーチェット病 / 単純性潰瘍、薬剤性腸炎、好酸球性胃腸炎、放射線性腸炎、虚血性小腸炎、地中海熱関連腸炎、リンパ増殖性疾患などの小腸腫瘍、感染性腸炎、など

【内科治療、外科治療】

内科的治療：根治療法はなく、鉄剤、輸血、経腸栄養療法、経静脈栄養療法が行われる。

外科的治療：十二指腸狭窄や小腸狭窄に対して手術が必要になることがある。

3. 合併症、後遺障害とその対応

【消化吸収障害】

持続性栄養障害による、ビタミン・微量元素欠乏、骨粗しょう症、脂肪肝をきたすことがある。

【合併疾患】

ばち指、皮膚肥厚、骨膜症を呈する肥厚性皮膚骨膜症（指定難病165）に関しては、皮膚科でのフォローが必要である。

4. 社会支援

【小児慢性特定疾患事業】

対象疾患となっている。

【特定疾患治療研究事業】

指定難病として対象疾患となっている。

【身体障害者手帳】

小腸機能障害の障害程度が該当する場合、対象となる。

【特別児童扶養手当】

精神又は身体に障害を有する児童について、生活に影響する支障の程度により都道府県単位で認定される。所得制限がある。

【生活用具支給補助】

本疾患に関して特別なものはありません。

【自立支援医療（育成医療）】

中心静脈栄養法を行っている場合に対象となります。

5. 移行期、成人期の問題点

生涯にわたって経過観察が必要であるため、可能ならば、主診療科を小児診療科（小児科、小児外科）から、成人診療科（消化器内科、消化器外科）に適切な時期に、移行すべきである。

【ヘルスリテラシー・自己管理能力の獲得】

移行期、成人期では、自分の疾患を理解し、自分の体調や内服薬剤を自己管理できることは重要である。

【就学、就労】

病状が不安定で就学、就労が困難な場合や、心理的ストレスを抱える場合がある。

【医療費、保険制度】

上記社会支援参照

【妊娠、出産】

妊娠・出産を希望する場合には、本疾患の主治医や、産科、消化器内科などの医療者間の連携を要する。

【継続すべき治療】

定期的に血液検査や内視鏡検査での経過観察が必要である。合併症発症時には病態に応じた治療が必要である。

【小児診療科から成人診療科へ】

移行に要する期間は様々であり、移行期（トランジション）医療の成功の可否は、医療者間の密な連携と詳細な情報提供が重要である。

【専門医師とのネットワーク作り】

稀少疾患であるため、診療科医師は、厚生労働省難治性疾患等政策研究事業研究で本疾患を担当する研究班や、炎症性腸疾患などを担当する難治性炎症性腸管障害に関する研究班に所属する医師との連携を整えるべきである。

【参考資料】各学会ホームページからダウンロード可能

日本小児外科学会 「外科疾患を有する児の成人期以降についてのガイドブック」

日本小児栄養消化器肝臓学会 「成人移行期小児炎症性腸疾患患者の自立支援のための手引書」、「小児炎症性腸疾患患者の消化器内科・外科への移行支援」

D. 考察

本症は、本邦で疾患概念が確立し、病因である遺伝学的異常も明らかにされた疾患である。今回、遺伝学的異常を含めた新診断基準が作成され、世界で唯一の診断基準であると思われる。本症への治療はいまだ未確立であるが、診療医には移行期支援ガイドを参考にさせていただくことで、患者さんのQOL向上に寄与できるものと考ええる。

今後、患者データベースを充実させ臨床像・遺伝学的特徴をより明らかにするとともに、疾患アトラスの改訂も予定しており、患者さんのQOL向上、治療法の確立に貢献していきたいと考える。

E. 結論

難治性小児消化器疾患の一つである非特異性多発性小腸潰瘍症の医療水準向上、および、移行期・成人期のQOL向上を目指し、本症の新診断基準を作成し、患者データベースの充実化を図り、小児期から成人期への移行期支援ガイドを作成した。

F. 研究発表

1. 論文発表

- 1) 梅野 淳嗣, 冬野 雄太, 松野 雄一, 岡本 康治, 鳥巢 剛弘. 【炎症性腸疾患診療の新たな展開】非特異性多発性小腸潰瘍症 (CEAS). 臨牀と研究. 98・573-578・2021
- 2) 松本 主之, 梅野 淳嗣. 【消化管の非腫瘍性疾患-最新の知見と注目すべき疾患-】CEAS:疾患概念、臨牀・病理像、確定診断. 病理と臨牀. 39・560-564・2021
- 3) 梅野 淳嗣, 冬野 雄太, 松野 雄一, 鳥巢 剛弘. 【最近注目されている腸の炎症性疾

患】非特異性多発性小腸潰瘍症/CEAS . 日本大腸肛門病学会雑誌 . 74 . 581-587 . 2021

- 4) 内田恵一、井上幹大、小池勇樹、松下航平、長野由佳、問山裕二、梅野淳嗣、松本主之、田口智章 . 小児外科疾患における公費負担医療の種類と申請方法 非特異性多発性小腸潰瘍症 . 小児外科 . 53 . 332-336 . 2021

2. 学会発表

- 1) 内田恵一、井上幹大、小池勇樹、松下航平、長野由佳、佐藤友紀、田口智章、問山裕二 . 非特性多発性小腸潰瘍症CEASに対する厚労省政策研究事業の二つの班の連携 . 第58回日本小児外科学会 . 2021 . 4 . (横浜)

- 2) 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内視鏡的特徴 . 第12回日本炎症性腸疾患学会学術集会 . 2021, 11. (東京)

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 慶応義塾大学医学部泌尿器科 准教授

宮田 潤子 九州大学大学院保健学部門 講師

【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

- 直腸肛門奇形研究会の疾患登録との連携を考えている。2021年10月15日の同研究会の世話人会にて草案について提案し、承認を得た。
- 直腸肛門奇形研究会登録を1次登録として利用し、前向きに2次登録として新たなレジストリーを確立する。その調査内容は小児慢性特定疾病や指定難病の個票の内容を参考にする。患者さんが出生後、5歳時、10歳時、15歳時、20歳時など5年毎位に追跡調査を行う。
- 患者さんがレジストリーの存在を認識して、こういう内容で登録してほしいとか、自分の登録内容を見ることができるようにしてほしいとかいうような要望など、患者さん自身がかかわることができるような登録システムも考えている。

診療科間の情報共有

➤ 学術集会

- 第121回日本外科学会定期学術集会 パネルディスカッション「中間位・高位鎖肛術後の生殖機能の実際」
産婦人科における総排泄腔遺残症の管理 (加藤聖子)
中間位・高位鎖肛、総排泄腔遺残術後の生殖機能障害とその治療・管理 (浅沼宏)
- 思春期医療研究会 特別講演2021年4月17日
総排泄腔遺残症の管理における産婦人科医の役割 (加藤聖子)
- 第57回日本周産期・新生児学会学術集会 倫理委員会シンポジウム「重症新生児の長期予後と出生前診断」
Cloacal malformationの出生前診断と生後管理 (城戸咲、加藤聖子)
- 第71回愛媛県産婦人科医会学術集談会および第37回愛媛県産婦人科医会臨床集談会 特別講演
産婦人科における性分化疾患の治療 (加藤聖子)
- 2020年 2021年 第29回日本小児泌尿器科学会総会・学術集会 ショートレクチャー
総排泄腔異常症の治療戦略」(木下義晶)
- 2021年 第30回日本小児泌尿器科学会総会・学術集会教育セミナー「総排泄腔異常症」(木下義晶)
- 第36回新潟産科婦人科手術・内視鏡下手術研究会 特別講演
総排泄腔異常症に対する治療戦略 (木下義晶)
- 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学術集会 Joint Session (2021年12月)
「総排泄腔遺残症：生涯的な機能予後を考える」(木下義晶)
- 第30回日本小児泌尿器科学会総会・学術集会 シンポジウム2
小児泌尿器科疾患の発生と成長・発達
染色体異常を有する小児泌尿器科疾患の管理：手術療法の適否を含

めて (浅沼宏)

- 乳幼児健診を中心とする小児科医のための研修会 Part V第2回泌尿器科領域
停留精巣・陰嚢水腫・陰唇癒合 (浅沼宏)
- 第58回日本小児外科学会学術集会 共通管長4.5cmの症例に対する腹腔鏡補助下PUM (田中裕次郎、浅沼宏)
- 第68回日本小児保健協会学術集会 総排泄腔遺残症の子どもを持つ母親の体験
(三原 優希, 濱田 裕子, 宮田潤子, 藤田 紋佳, 森口 晴美, 田口智章, 伊崎 智子)
- 第58回日本小児外科学会学術集会 パネル・ディスカッション1
「医療の狭間を作らない; トランジション医療や医療児ケアの在り方」患者の語りからみえた総排泄腔遺残症のトランジション医療問題と包括的支援策.
(宮田潤子, 小幡 聡, 桐野 浩輔, 入江 敬子, 大森 淳子, 伊崎 智子, 木下 義晶, 松浦 俊治, 田口智章)
- 第31回日本小児外科QOL研究会 Web 会議システムの利用による総排泄腔遺残症/外反症におけるピアサポートの新たな可能性
(宮田潤子, 濱田裕子, 藤田紋佳, 森口晴美, 川田紀美子, 小幡聡, 桐野浩輔, 林下里見, 三原優希, 植木慎悟, 木下義晶, 加藤聖子, 田尻達郎, 田口智章)

➤ 刊行物

- 【小児外科疾患における公費負担医療の種類と申請方法】
総排泄腔遺残症
木下 義晶 小児外科53(3) : 319-322, 2021
- 【早期発見!搬送・紹介のタイミングもわかる 新生児の外科疾患10】
鎖肛・総排泄腔異常症(総排泄腔遺残・総排泄腔外反)
木下 義晶 with NEO 34(2) : 270-273, 2021
- 発生学から考えてみよう!小児の

先天疾患 水腎症、総排泄腔外反
浅沼 宏，高橋遼平，大家基嗣
小児科診療84(8)：1097-1104，
2021

- 外来で役立つ知識：外陰部・会陰部・肛門部周辺の疾患 陰核肥大
浅沼 宏，高橋遼平，大家 基嗣
小児外科53(6)：611-615，2021
- ARTにより妊娠成立後、帝王切開術で生児を獲得し得た総排泄腔遺残症術後患者の1例
磯邊 明子，蔵本 和孝，友延 尚子，河村 圭子，濱田 律雄，宮崎 順秀，江頭 活子，城戸 咲，加藤 聖子 日本女性医学学会雑誌28(4)：577-580，2021
- 総排泄腔遺残症患者の体験 継続的・包括的支援体制の構築に向けて
Experience of patients with persistent cloaca - To construct a continuous and comprehensive support system -
林下 里美，濱田 裕子，宮田 潤子，藤田 紋佳，森口 晴美，伊崎 智子，加藤 聖子，田口 智章 看護研究集録 28：84-111，2021

患者・市民への情報提供手段

- 市民公開講座
2021年2月：第1回オンライン市民公開講座（資料1）
2022年3月：第2回オンライン市民公開講座開催予定
一部動画で限定公開している。
- 患者交流会（資料2、3）
- 「総排泄腔疾患の会」のFacebook、Instagram、Twitterアカウントを作成し、SNS発信を行っている。（資料4、5）
- 医療情報検索システム
都道府県、施設名、対応可能な診療科、特殊外来などを示した情報検索システムについて難病支援センターのホームページに紐づけるなどの手段や管理、更新について検討し、準備を進めている。

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について、同研究

会での世話人会で草案について提案し、承認を得た。今後具体的に内容についての検討を行う。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、刊行物などの成果物も増えている。また患者交流会や、市民公開講座が積極的に行われ、SNSなどを通じての情報共有の手段の整備も進められている。さらに医療情報検索システムの構築などについて準備を進めている。次期研究課題として2017年に窪田班にて策定されたガイドライン改訂に向けての準備も始めることとする。

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

1. 論文発表
- 1) 【小児外科疾患における公費負担医療の種類と申請方法】
総排泄腔遺残症
木下 義晶 小児外科53(3)：319-322，2021
- 2) 【早期発見!搬送・紹介のタイミングもわかる 新生児の外科疾患10】
鎖肛・総排泄腔異常症(総排泄腔遺残・総排泄腔外反)
木下 義晶 with NEO 34(2)：270-273，2021
- 3) 発生学から考えてみよう!小児の先天疾患 水腎症、総排泄腔外反
浅沼 宏，高橋遼平，大家基嗣 小児科診療84(8)：1097-1104，2021
- 4) 外来で役立つ知識：外陰部・会陰部・肛門部周辺の疾患 陰核肥大
浅沼 宏，高橋遼平，大家 基嗣 小児外科53(6)：611-615，2021
- 5) ARTにより妊娠成立後、帝王切開術で生児を獲得し得た総排泄腔遺残症術後患者の1例
磯邊 明子，蔵本 和孝，友延 尚子，河村 圭子，濱田 律雄，宮崎 順秀，江頭 活子，城戸 咲，加藤 聖子
日本女性医学学会雑誌28(4)：577-580，2021
- 6) 総排泄腔遺残症患者の体験 継続的・包括的支援体制の構築に向けて
Experience of patients with persistent cloaca - To construct a continuous and comprehensive support system -

林下 里美, 濱田 裕子, 宮田 潤子, 藤田
紋佳, 森口 晴美, 伊崎 智子, 加藤 聖子,
田口 智章 看護研究集録 28: 84-111,
2021

2. 学会発表
 - 1) 第121回日本外科学会定期学術集会 パネル
ディスカッション「中間位・高位鎖肛術後
の生殖機能の実際」
産婦人科における総排泄腔遺残症の管理
(加藤聖子)
中間位・高位鎖肛、総排泄腔遺残術後の生
殖機能障害とその治療・管理 (浅沼宏)
 - 2) 思春期医療研究会 特別講演2021年4月17日
総排泄腔遺残症の管理における産婦人科医
の役割 (加藤聖子)
 - 3) 第57回日本周産期・新生児学会学術集会
倫理委員会シンポジウム「重症新生児の長
期予後と出生前診断」
Cloacal malformationの出生前診断と生後
管理 (城戸咲、加藤聖子)
 - 4) 第71回愛媛県産婦人科医会学術集談会およ
び第37回愛媛県産婦人科医会臨床集談会
特別講演
産婦人科における性分化疾患の治療 (加
藤聖子)
 - 5) 2020年 2021年 第29回日本小児泌尿器科
学会総会・学術集会 ショートレクチャー
総排泄腔異常症の治療戦略 (木下義晶)
 - 6) 2021年 第30回日本小児泌尿器科学会総
会・学術集会教育セミナー
「総排泄腔異常症」 (木下義晶)
 - 7) 第36回新潟産科婦人科手術・内視鏡下手術
研究会 特別講演
総排泄腔異常症に対する治療戦略 (木下
義晶)
 - 8) 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学術集会 Joint
Session (2021年12月)
「総排泄腔遺残症：生涯的な機能予後を考
える」 (木下義晶)
 - 9) 第30回日本小児泌尿器科学会総会・学術集
会 シンポジウム2 小児泌尿器科疾患の発
生と成長・発達
染色体異常を有する小児泌尿器科疾患の管
理：手術療法の適否を含めて (浅沼宏)
 - 10) 乳幼児健診を中心とする小児科医のための
研修会 Part V第2回 泌尿器科領域
停留精巣・陰嚢水腫・陰唇癒合 (浅沼宏)
 - 11) 第58回日本小児外科学会学術集会
共通管長4.5cmの症例に対する腹腔鏡補助下
PUM (田中裕次郎、浅沼宏)
 - 12) 第68回日本小児保健協会学術集会
総排泄腔遺残症の子どもを持つ母親の体験
(三原 優希, 濱田 裕子, 宮田 潤子, 藤田
紋佳, 森口 晴美, 田口 智章, 伊崎 智子)
 - 13) 第58回日本小児外科学会学術集会 パネ
ル・ディスカッション1
「医療の狭間を作らない；トランジション
医療や医療児ケアの在り方」患者の語りか
らみえた総排泄腔遺残症のトランジション
医療問題と包括的支援策。
(宮田 潤子, 小幡 聡, 桐野 浩輔, 入江
敬子, 大森 淳子, 伊崎 智子, 木下 義晶,
松浦 俊治, 田口 智章)
 - 14) 第31回日本小児外科QOL研究会
Web 会議システムの利用による総排泄腔遺
残症/外反症におけるピアサポートの新たな
可能性
(宮田潤子, 濱田裕子, 藤田紋佳, 森口晴
美, 川田紀美子, 小幡 聡, 桐野浩輔, 林下
里見, 三原優希, 植木慎悟, 木下義晶, 加藤
聖子, 田尻達郎, 田口智章)
- 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

難治性下痢症

虫明 聡太郎 近畿大学奈良病院・小児科 教授
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
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

【研究要旨】

本年度、当分担研究班では、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』に改訂を加え、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・承認を得てこれを書籍化して出版した。また、“難治性下痢症”を小児慢性特定疾病の対象疾病とする申請、ならびに症例登録とコンサルテーションシステムの構築に向けて準備を進めた。

A．研究目的

「特発性難治性下痢症」は、治療を必要とする病態の成人期への移行、症例数、および成因が不明である点において難病指定の要件を満たす疾病であるが、本疾病は難病として指定されていない。また、小児慢性特定疾病の疾病分類では「12．慢性消化器疾患」の大分類に「1．難治性下痢症」が掲げられているが、「特発性難治性下痢症」は個別疾病に該当する細分類にも組み入れられていない。当初、班会議の活動では疾病分類の大項目を変更することは難しいこと、およびmiscellaneousな疾患概念を細分類に組み込むことは難しいとの見解が示されていたが、今回、これまで一連の活動によって「特発性難治性下痢症」を新たに定義して診断方法を明文化した上で、これを細分類項目の疾病として承認されるよう活動を進めること、および小児の遷延性下痢に関する症例相談と症例登録のための環境を整備することを目的とした。

B．研究方法

『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』に改訂を加え、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・承認を得てその書籍化プロセスを進めた。また、「特発性難治性下痢症」を小児慢性特定疾病の細分類項目に挙げるための必要事項を討議した。

（倫理面への配慮）

本研究は前年度において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。

C．研究結果

- 2020年までに原案を作成し、日本小児栄養消化器肝臓学会ガイドライン委員会の査読を受けた「難治性下痢症の診断アルゴリズムとその解説（正規版・簡易版）」について改訂作業を行い、2021年2月、「同学会の承認するガイドラインとして十分である」との評価を得た。これに基づき、診断と治療社より『難治性下痢症診断の手引き-小児難治性下痢症診断アルゴリズムとその解説-』を出版した（2021年10月20日発行）。
- 2021年9月のグループ会議において、今後の活動目標として“難治性下痢症”を小児慢性特定疾患（小慢）の対象疾病とするよう申請することを決定した。その理由は、特

発性難治性下痢症が治療を必要とする病態の成人期への移行、症例数、および成因が不明である点において難病指定の要件を満たすにも関わらず、これが小慢の対象疾病となっていないことにある。これについて11月のグループ会議において、小児慢性特定疾病の大分類の項目としての「難治性下痢症」中の細分類に「難治性乳児下痢症およびその他の難治性下痢症」を対象疾病病名として追加し、小児慢性特定疾病として認定を受けるよう活動することとした。

- 3) 症例登録とコンサルテーションシステムの構築：現在、当分担研究班メンバーで全国の小児医療機関から乳幼児の遷延性下痢に関する症例相談を受け、個別に回答している。今後は日本小児栄養消化器肝臓学会HPに小児難治性下痢症の診断アルゴリズムに関するリンクを張り*、これを通じて症例相談を受けて回答ないし診断治療に関する情報提供やアドバイスを行う型式をとることとした。（*簡易版は一般向けに近日中、正規版はJSPGHAN学会員向けに2022年5月に施行する予定である。）

D．考察

「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。本研究班の活動により、まず小児期の慢性疾病として「難治性乳児下痢症およびその他の難治性下痢症」を小児慢性特定疾病に上げることは、将来「特発性難治性下痢症」が難病指定されるために必要な過程である。また、今後の症例相談と登録を進めることによって、希少な成因不明の難治性下痢症例の中から網羅的遺伝子解析や蛋白解析により新規な疾患原因が解明されることが期待される。

E．結論

本研究は、難治性下痢症患者が必要とする医療的補助を受けることが可能となるために必要であり、本邦における成因不明の難治性下痢の症例集積と、新たな病因病態解明の基盤となるものである。

F．研究発表

1. 論文発表
 - 1) 虫明聡太郎：周期性嘔吐の診断と治療．小児科診療Up-to-Date 50:17-20, 2021.
 - 2) 上原悠, 近藤宏樹, 一木美穂, 井上智弘, 虫明聡太郎：多剤薬剤過敏症を合併したクローン病初発例に対して ウステキヌマブを使用し寛解導入に成功した1例．近畿大医誌46; 39-44, 2021.
 - 3) 一木美穂, 近藤宏樹, 井上智弘, 南方俊祐, 船戸契, 虫明聡太郎：周期性嘔吐症候群の発作期におけるアトロピン硫酸塩の有効性．日小栄消肝臓学会誌 35(2); 63-69, 2021.
 - 4) 虫明聡太郎：診断手順：アルゴリズムと診断法．位田忍、工藤孝広編：はじめて学ぶ子どもの下痢・便秘．診断と治療社，東京，pp.28-32，2021
 - 5) 虫明聡太郎：経腸栄養剤・栄養補助食品の種類と小児への利用．小児内科 53(11):1873-1876, 2021.
 - 6) Ando K, Fujiya M, Watanabe K, Hiraoka S, Shiga H, Tanaka S, Iijima H, Mizushima T, Kobayashi T, Nagahori M, Ikeuchi H, Kato S, Torisu T, Kobayashi K, Higashiyama M, Fukui T, Kagaya T, Esaki M, Yanai S, Abukawa D, Naganuma M, Motoya S, Saruta M, Bamba S, Sasaki M, Uchiyama K, Fukuda K, Suzuki H, Nakase H, Shimizu T, Iizuka M, Watanabe M, Suzuki Y, Hisamatsu T: A nationwide survey concerning the mortality and risk of progressing severity due to arterial and venous thromboembolism in inflammatory bowel disease in Japan. J Gastroenterol 2021; 56: 1062–1079
 - 7) Nakase H, Hayashi Y, Hirayama D, Matsumoto T, Matsuura M, Iijima H, Matsuoka K, Ohmiya N, Ishihara S, Hirai H, Abukawa D, Hisamatsu T, J-COSMOS group: Interim analysis of a multicenter registry study of COVID-19 patients with inflammatory bowel disease in Japan (J-COSMOS). J Gastroenterol 2022; doi: 10.1007/s00535-022-01851-1
 - 8) 蛇川大樹：発症機序からの分類．位田忍、工藤孝広編：はじめて学ぶ子どもの下痢・便秘．診断と治療社，東京，pp.18-21，2021
 - 9) 蛇川大樹：慢性下痢．小児科診療 84増刊：

260-263 , 2021

- 10) Morita M, Takeuchi I, Kato M, Migita O, Jimbo K, Shimizu H, Yoshimura S, Tomizawa D, Shimizu T, Hata K, Ishiguro A, Arai K: Intestinal outcome of bone marrow transplantation for monogenic inflammatory bowel disease. *Pediatr Int.* 2022 Jan;64(1):296-302.
- 11) Miura M, Shimizu H, Saito D, Miyoshi J, Matsuura M, Kudo T, Hirayama D, Yoshida M, Arai K, Iwama I, Nakase H, Shimizu T, Hisamatsu T: Multicenter, cross-sectional, observational study on Epstein-Barr viral infection status and thiopurine use by age group in patients with inflammatory bowel disease in Japan (EBISU study). *J Gastroenterol. J Gastroenterol.* 2021 Dec;56(12):1080-1091.
- 12) Isshiki K, Kamiya T, Endo A, Okamoto K, Osumi T, Kawai T, Arai K, Tomizawa D, Ohtsuka K, Nagahori M, Imai K, Kato M, Kanegane H: Vedolizumab therapy for pediatric steroid-refractory gastrointestinal acute graft-versus-host disease. *Int J Hematol.* 2021 Nov 1. doi: 10.1007/s12185-021-03245-0. Online ahead of print.
- 13) Shimizu H, Arai K, Asahara T, Takahashi T, Tsuji H, Matsumoto S, Takeuchi I, Kyodo R, Yamashiro Y: Stool preparation under anaerobic conditions contributes to retention of obligate anaerobes: potential improvement for fecal microbiota transplantation. *BMC Microbiol.* 2021 Oct 9;21(1):275.
- 14) Ono S, Takeshita K, Kiridoshi Y, Kato M, Kamiya T, Hoshino A, Yanagimachi M, Arai K, Takeuchi I, Toita N, Imamura T, Sasahara Y, Sugita J, Hamamoto K, Takeuchi M, Saito S, Onuma M, Tsujimoto H, Yasui M, Taga T, Arakawa Y, Mitani Y, Yamamoto N, Imai K, Suda W, Hattori M, Ohara O, Morio T, Honda K, Kanegane H: Hematopoietic cell transplantation rescues inflammatory bowel disease and dysbiosis of gut microbiota in XIAP deficiency. *J Allergy Clin Immunol Pract.* 2021 Oct;9(10):3767-3780.
- 15) Ito N, Takeuchi I, Kyodo R, Hirano Y, Sato T, Usami M, Shimizu H, Shimizu T, Arai K: Features and Outcomes of Children with Ulcerative Colitis who Undergo a Diagnostic Change: A Single-Center Experience. *Pediatr Gastroenterol Hepatol Nutr.* 2021 Jul;24(4):357-365.
- 16) Ishihara J, Arai K, Kudo T, Nambu R, Tajiri H, Aomatsu T, Abe N, Kakiuchi T, Hashimoto K, Sogo T, Takahashi M, Etani Y, Yasuda R, Sakaguchi H, Konishi KI, Obara H, Kakuma T, Yamashita Y, Mizuochi T: Serum Zinc and Selenium in Children with Inflammatory Bowel Disease: A Multicenter Study in Japan. *Dig Dis Sci.* 2021 Jun 8. doi: 10.1007/s10620-021-07078-z. Online ahead of print.
- 17) Yamada M, Sakamoto S, Sakamoto K, Uchida H, Shimizu S, Osumi T, Kato M, Shoji K, Arai K, Miyazaki O, Nakano N, Yoshioka T, Fukuda A, Kasahara M, Imadome KI: Fatal Epstein-Barr virus-associated hemophagocytic lymphohistiocytosis with virus-infected T cells after pediatric multivisceral transplantation: A proof-of-concept case report. *Pediatr Transplant.* 2021 May;25(3):e13961.
- 18) 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 .
- 19) 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* 2021 Jan;24(1):7-18.
- 20) 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.

- 21) Fujino A, Fuchimoto Y, Baba Y, Isogawa N, Iwata T, Arai K, Abe M, Kanai N, Takagi R, Maeda M, Umezawa A: First-in-human autologous oral mucosal epithelial sheet transplantation to prevent anastomotic re-stenosis in congenital esophageal. *Stem Cell Research & Therapy*. accepted.
- 22) Kudo T, Jimbo K, Shimizu H, Iwama I, Ishige T, Mizuochi T, Arai K, Kumagai H, Uchida K, Abukawa D, Shimizu T: Qing-Dai for pediatric ulcerative colitis multicenter survey & systematic review. *Pediatrics International*. accepted on November 26, 2021
- 23) Kobayashi M, Takeuchi I, Kubota M, Ishiguro A, Arai K. Severe hip arthritis as an initial presenting symptom of pediatric ulcerative colitis. *Pediatrics International* accepted on Nov 19, 2021
- 24) 佐藤琢郎; 竹内一朗; 清水泰岳; 伊藤夏希; 宇佐美雅章; 荻田博也; 福家辰樹; 野村伊知郎; 大矢幸弘; 義岡孝子; 新井勝大. 小児期発症好酸球性食道炎5症例の臨床像の検討. *日本小児科学会雑誌*. 2021 ; 125 (4) 631-637
- 25) 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*. 2021 Jun;36(6):1538-1544.
- 26) 山川 祐輝, 水落 建輝, 坂口 廣高, 石原潤, 山下 裕史朗. 小児炎症性腸疾患におけるメサラジン不耐症. *日本小児科学会雑誌* 2021;125(4):607-611.
- 27) 水落建輝 (分担執筆) . はじめて学ぶ 子どもの下痢・便秘 . 診断と治療社 2021年12月3日初版
- 28) 安田亮輔, 坂口廣高, 水落建輝 . 消化器に関する病態 嘔吐. *小児科診療* 2021;84: 264-267.
- 29) 安田亮輔, 坂口廣高, 水落建輝 . 各病態における輸液の考え方 消化器疾患 急性胃腸炎. *小児内科* 2021;53(4):618-621.
- 30) Kato M, Jimbo K, Nagata M, Endo Y, Kashiwagi K, Maruyama K, Ito N, Tokushima K, Arai N, Kyodo R, Sato M, Miyata E, Hosoi K, Inage E, Ikuse T, Fukunaga H, Kudo T, Shimizu T. Novel pediatric granulomatosis with polyangiitis with a marked bloody pericardial effusion and bloody stool: a case report. *Allergy Asthma Clin Immunol*. 2021 Dec 4;17(1):124.
- 31) Arai N, Kudo T, Tokita K, Kyodo R, Sato M, Miyata E, Hosoi K, Ikuse T, Jimbo K, Ohtsuka Y, Shimizu T. Expression of Oncogenic Molecules in Pediatric Ulcerative Colitis. *Digestion*. 2021 Oct 29:1-9.
- 32) Hojo M, Nagahara A, Kudo T, Takeda T, Ikuse T, Matsumoto K, Ueda K, Ueyama H, Matsumoto K, Asaoka D, Shimizu T. Endoscopic findings of Helicobacter pylori gastritis in children and young adults based on the Kyoto classification of gastritis and age-associated changes. *JGH Open*. 2021 Aug 27;5(10):1197-1202.
- 33) Kudo T, Horiuchi A, Horiuchi I, Kajiyama M, Morita A, Tanaka N. Pedunculated colorectal polyps with heads ≤ 1 cm in diameter can be resected using cold snare polypectomy. *Acta Gastroenterol Belg*. 2021 Jul-Sep;84(3):411-415.
- 34) Miura M, Shimizu H, Saito D, Miyoshi J, Matsuura M, Kudo T, Hirayama D, Yoshida M, Arai K, Iwama I, Nakase H, Shimizu T, Hisamatsu T. Multicenter, cross-sectional, observational study on Epstein-Barr viral infection status and thiopurine use by age group in patients with inflammatory bowel disease in Japan (EBISU study). *J Gastroenterol*. 2021 Sep 30.
- 35) Ohmiya N, Oka S, Nakayama Y, Iwama I, Nakamura M, Shimizu H, Sumioka A, Abe N, Kudo T, Osawa S, Honma H, Okuhira T, Mtsufuji S, Imaeda H, Ota K, Matsuoka R, Hotta N, Inoue M, Nakaji K, Takamaru H, Ozeki K, Kobayashi T, Hosoe N, Tajiri H, Tanaka S. Safety and Efficacy of the Endoscopic Delivery of Capsule Endoscopes in Adult and Pediatric Patients: A Multicenter Japanese Study

- (Advance-J Study). *Dig Endosc.* 2021 Aug 11.
- 36) Inage E, Tanaka Y, Matsui K, Yamada H, Kojima M, Toriumi S, Kudo T, Baba Y, Shimizu T. Gender disparities in the pediatric allergy-related guidelines in Japan. *Pediatr Int.* 2021 Jul 30.
- 37) Ishihara J, Arai K, Kudo T, Nambu R, Tajiri H, Aomatsu T, Abe N, Kakiuchi T, Hashimoto K, Sogo T, Takahashi M, Etani Y, Yasuda R, Sakaguchi H, Konishi KI, Obara H, Kakuma T, Yamashita Y, Mizuochi T. Serum Zinc and Selenium in Children with Inflammatory Bowel Disease: A Multicenter Study in Japan. *Dig Dis Sci.* 2021 Jun 8.
- 38) Kudo T, Horiuchi A, Kyodo R, Tokita K, Tanaka N, Horiuchi I, Sano K. Mucosal defect size predicts the adequacy of resection of ≤ 10 mm nonpedunculated colorectal polyps using a new cold snare polypectomy technique. *Eur J Gastroenterol Hepatol.* 2021 May 21.
- 39) Morita A, Kudo T, Horiuchi A, Kajiyama M, Tanaka N, Takada H. Short-term intensive gastrointestinal endoscopy training program. *Pediatr Int.* 2021 Apr 4.
- 40) Kudo T, Horiuchi A, Kyodo R, Horiuchi I, Arai N, Kajiyama M, Tanaka N. Linked colour imaging versus white-light colonoscopy for the detection of flat colorectal lesions: A randomized controlled trial. *Colorectal Dis.* 2021 Jun;23(6):1414-1420.
- 41) Arai N, Kudo T, Tokita K, Kyodo R, Sato M, Miyata E, Hosoi K, Ikuse T, Jimbo K, Ohtsuka Y, Shimizu T. Effectiveness of Biological Agents in the Treatment of Pediatric Patients with Crohn's Disease and Anal Fistulae. *Digestion.* 2021;102(5):783-788.
- 42) 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.* 2021 Jun;36(6):1545-1549.
- 43) 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.* 2021;66:1548-1555.
- 44) 伊藤夏希, 工藤孝広. 【子どもの栄養-未来を見据えて】病態による栄養管理の実際 炎症性腸疾患. *小児内科* 2021;53:1915-1918.
- 45) 工藤孝広. 【消化管内視鏡治療-基本から高難度まで】小児における内視鏡治療 小児における内視鏡治療. *消化器内視鏡* 2021;33増刊:426-430.

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

仙尾部奇形腫

田尻 達郎 九州大学大学院小児外科学分野 教授・京都府立医科大学大学院医学

研究科小児外科学 教授

臼井 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。

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上クローズアップされるようになって来ている（Masahata K, et al: *Pediatr Surg Int*, 2020）。

本研究は、令和3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、クリニカルクエスチョンとして、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）を通して提供する。

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）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。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。
- （イ）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。
- （ウ）2020年10月に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。
- （エ）2020年11月に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。
- （オ）2021年1月に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施設に送付した。
- （カ）2021年2月～9月に二次調査票を回収し，最終的に73施設より381例の登録をいただいた。EUPSAへのECD入力を完了した。
- （キ）現在データクリーニングおよび解析を行っており，今後国際・国内学会での発表と英文論文発表準備を行っていく。
- （ク）仙尾部奇形腫のガイドラインや予後の広報のため，口演や総説の執筆を行った。
 1. 文野誠久，田尻達郎：【小児外科疾患における公費負担医療の種類と申請方法】仙尾部奇形腫。小児外科，53；286-289，2021。（資料1）
 2. 田尻達郎：仙尾部奇形腫の治療戦略【教育講演】。第57回日本周産期・新生児医学会学術集会，2021年7月11日；宮崎。（資料2）
 3. 文野誠久：胚細胞腫瘍【教育講演】。小児外科第36回卒後教育セミナー，2021年5月1日；Web。（資料3）

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上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

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実施中である。

F . 研究発表

1. 論文発表
- 1) Tanaka T, Togashi Y, Takeuchi Y, Higashi M, Fumino S, Tajiri T: Immunohistochemical staining of phosphorylated ERK in post chemotherapeutic samples is a potential predictor of the prognosis of neuroblastoma. *Pediatr Surg Int*, 37: 287-291, 2021. doi: 10.1007/s00383-020-04806-w.
- 2) Togashi T, Tanaka T, Takemoto M, Takeuchi Y, Higashi M, Fumino S, Tajiri T: Anti-relapse effect of trametinib on a local minimal residual disease neuroblastoma mouse model. *J Pediatr Surg*, 56: 1233-1239, 2021. doi: 10.1016/j.jpedsurg.2021.03.031.
- 3) Takemoto M, Tanaka T, Tsuji R, Togashi Y, Higashi M, Fumino S, Tajiri T: The synergistic antitumor effect of combination therapy with a MEK inhibitor and YAP inhibitor on pERK-positive neuroblastoma. *Biochem Biophys Res Commun*, 570: 41-46, 2021. doi: 10.1016/j.bbrc.2021.07.028.
- 4) 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*, 41: 814-823, 2021. doi: 10.1038/s41372-020-00833-6.
- 5) Okawada M, Ohfuji S, Yamoto M, Urushihara N, Terui K, Nagata K, Taguchi T, Hayakawa M, Amari S, Masumoto K, Okazaki T, Inamura N, Toyoshima K, Inoue M, Furukawa T, Yokoi A, Kanamori Y, Usui N, Tazuke Y, Saka R, Okuyama H; Japanese Congenital Diaphragmatic Hernia Study Group: Thoracoscopic repair of congenital diaphragmatic hernia in neonates: findings of a multicenter study in Japan. *Surg Today*, 2021, in press. doi: 10.1007/s00595-021-02278-6.
- 6) Kawanishi Y, Endo M, Fujii M, Masuda T, 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, Taguchi T, Okuyama H: Optimal timing of delivery for pregnancies with prenatally diagnosed congenital diaphragmatic hernia: a propensity-score analysis using the inverse probability of treatment weighting. *J Perinatol*, 41: 1893-1900, 2021. doi: 10.1038/s41372-021-01118-2.
- 7) 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*, 51: 880-890, 2021. doi: 10.1007/s00595-020-02156-7.
- 8) Terui K, Furukawa T, Nagata K, Hayakawa M, Okuyama H, Amari S, Yokoi A, Masumoto K, Yamoto M, Okazaki T, Inamura N, Toyoshima K, Uchida K, Okawada M, Sato Y, Usui N: Best pre-ductal PaO₂ prior to extracorporeal membrane oxygenation as predictor of

- mortality in patients with congenital diaphragmatic hernia: a retrospective analysis of a Japanese database. *Pediatr Surg Int*, 2021, in press. doi: 10.1007/s00383-021-04995-y.
- 9) Kawano T, Souzaki R, Sumida W, Ishimaru T, Fujishiro J, Hishiki T, Kinoshita Y, Kawashima H, Uchida H, Tajiri T, Yoneda A, Oue T, Kuroda T, Koshinaga T, Hiyama E, Nio M, Inomata Y, Taguchi T, Ieiri S: Laparoscopic approach for abdominal neuroblastoma in Japan: results from nationwide multicenter survey. *Surg Endosc*, 2021, in press. doi: 10.1007/s00464-021-08599-4.
 - 10) Kambe K, Fumino S, Sakai K, Higashi M, Aoi S, Furukawa T, Tajiri T: Predictive factors for fundoplication following esophageal atresia repair. *Pediatr In*, 2021, in press. doi: 10.1111/ped.15026.
 - 11) Kawano T, Souzaki R, Sumida W, Shimojima N, Hishiki T, Kinoshita Y, Uchida H, Tajiri T, Yoneda A, Oue T, Kuroda T, Hirobe S, Koshinaga T, Hiyama E, Nio M, Inomata Y, Taguchi T, Ieiri S: Current thoracoscopic approach for mediastinal neuroblastoma in Japan- results from nationwide multicenter survey. *Pediatr Surg Int*, 37: 1651-1658, 2021. doi: 10.1007/s00383-021-04998-9.
 - 12) Sonoda S, Yoshimaru K, Yamaza H, Yuniartha R, Matsuura T, Yamauchi-Tomoda E, Murata S, Nishida K, Oda Y, Ohga S, Tajiri T, Taguchi T, and Yamaza T: Biliary atresia-specific deciduous pulp stem cells feature biliary deficiency. *Stem Cell Res Ther*, 12: 582, 2021. doi: 10.1186/s13287-021-02652-8.
 - 13) Masahata K, Ichikawa C, Higuchi K, Makino K, Abe T, Kim K, Yamamichi T, Tayama A, Soh H, Usui N: A Rare Case of Immature Sacrococcygeal Teratoma With Lymph Node Metastasis in a Neonate. *J Pediatr Hematol Oncol*, 43: e1186-e1190, 2021. doi: 10.1097/MPH.0000000000002042.
 - 14) 文野誠久: 疾患別ガイド 神経芽腫 (NB). *JCCG長期フォローアップガイドライン作成ワーキンググループ編 小児がん治療後の長期フォローアップガイド*. 東京: クリニコ出版, pp175-185, 2021.
 - 15) 文野誠久, 永藪和也, 田尻達郎: 【これでわかる 婦人科稀少腫瘍】卵巣腫瘍 卵黄嚢腫瘍. *産科と婦人科*, 88: 212-216, 2021.
 - 16) 青井重善, 田尻達郎: 【小児外科疾患における公費負担医療の種類と申請方法】小児慢性特定疾病と指定難病. *小児外科*, 53: 257-260, 2021.
 - 17) 文野誠久, 田尻達郎: 【小児外科疾患における公費負担医療の種類と申請方法】仙尾部奇形腫. *小児外科*, 53: 286-289, 2021.
 - 18) 文野誠久: 【周産期の周辺を強化する-プレコンセプションケアと産後ケアの充実に向けて】他科と連携したプレコンセプションケアと産後ケア 内科医/小児科医との連携移行期医療への対応 小児外科疾患. *周産期医学*, 51: 611-614, 2021.
 - 19) 文野誠久, 高山勝平, 田尻達郎: 【シミュレーションとナビゲーション】小児がん (リンパ管奇形を含む). *小児外科*, 53: 554-558, 2021.
 - 20) 文野誠久, 田尻達郎: 【局所進行癌に対する集学的治療】局所進行性小児固形がんに対する集学的治療. *京府医大誌*, 130: 375-382, 2021.
 - 21) 高山勝平, 文野誠久, 田尻達郎: 【消化管重複症のすべて】胆嚢, 胆管. *小児外科*, 53: 961-964, 2021.
2. 学会発表
 - 1) 田尻達郎: 巨大後腹膜奇形腫の手術戦略【特別講演】. 第121回日本外科学会定期学術集会, 2021年4月9日; Web.
 - 2) 田尻達郎: 仙尾部奇形腫の治療戦略【教育講演】. 第57回日本周産期・新生児医学会学術集会, 2021年7月11日; 宮崎.
 - 3) 文野誠久: 胚細胞腫瘍【教育講演】. 小児外科第36回卒後教育セミナー, 2021年5月1日; Web.
 - 4) Fumino S, Furukawa T, Aoi S, Higashi M, Kim K, Takayama S, Tajiri T: Usefulness of navigation surgery for pediatric neoplastic diseases. The 53rd Annual Congress of the International Society of Paediatric Oncology (SIOP), 2021 Oct 21-24; Web.
 - 5) Takemoto M, Tanaka M, Tsuji R, Togashi Y, Higashi M, Fumino S, Tajiri T: The synergistic anti-tumor effect of

combination therapy with a MEK inhibitor and YAP inhibitor on pERK-positive neuroblastoma. 54th Pacific Association of Pediatric Surgeons (PAPS), 2021 Nov 14-18; Web.

- 6) 文野誠久, 古川泰三, 青井重善, 坂井宏平, 富樫佑一, 坂野慎哉, 浅野麻衣, 本郷文弥, 田尻達郎: 小児期に診断された多発性内分泌腺腫症MEN2Bにおける小児外科医の包括的役割と領域横断的治療戦略【外科学再興シンポジウム; 遺伝性腫瘍に対する包括的な取り組みと問題点】. 第121回日本外科学会定期学術集会, 2021年4月10日; Web.
- 7) 高山勝平, 文野誠久, 坂井宏平, 東 真弓, 青井重善, 古川泰三, 田尻達郎: 小児領域における術中イメージングとナビゲーション【シンポジウム; 小児領域における術中イメージングとナビゲーション】. 第121回日本外科学会定期学術集会, 2021年4月9日; Web.
- 8) 古川泰三, 坂井宏平, 東 真弓, 文野誠久, 青井重善, 田尻達郎: 小児外科疾患手術における他科との合同手術戦略【ワークショップ; 小児領域における他診療科との合同手術】. 第121回日本外科学会定期学術集会, 2021年4月10日; Web.
- 9) 坂井宏平, 東 真弓, 文野誠久, 青井重善, 古川泰三, 田尻達郎: 当院における小児外科医と医療的ケア児(者)との関わり【パネルディスカッション; 医療の狭間を作らない; トランジション医療や医療児ケアの在り方】. 第58回日本小児外科学会学術集会, 2021年5月1日; 神奈川(ハイブリッド).
- 10) 文野誠久, 古川泰三, 青井重善, 金 聖和, 高山勝平, 杉山庸一郎, 平野 滋, 打谷円香, 田尻達郎: 頸部リンパ管奇形に対する積極的外科切除と集学的治療による新たな治療戦略【シンポジウム; 頭頸部リンパ管腫の診断と治療】. 第16回日本小児耳鼻咽喉科学会総会・学術講演会, 2021年7月9日; 大阪.
- 11) 文野誠久, 高木大輔, 高山勝平, 金 聖和, 青井重善, 古川泰三, 宮地 充, 家原知子, 相部則博, 田尻達郎: 小児におけるネスキープを用いた被ばく低減外科治療の提案【シンポジウム; 体内空間可変治療(スパーサー留置治療)の現状】. 日本放射線腫瘍学会第34回学術大会, 2021年11月14日; Web.
- 12) 長野心太, 文野誠久, 廣畑吉昭, 高山勝平, 金 聖和, 東 真弓, 青井重善, 古川泰三, 岸田綱郎, 松田 修, 田尻達郎: biosheetとdirect reprogrammingによる誘導筋芽細胞による骨格筋シートの開発~腹壁欠損モデルマウスを用いて~【シンポジウム; 泌尿器・多能性幹細胞】. 第37回日本小児外科学会秋季シンポジウム, 2021年10月30日; 東京(ハイブリッド).
- 13) 青井重善, 古川泰三, 坂井宏平, 東 真弓, 文野誠久, 田尻達郎: 小児外科専門医不在・不足地域での小児外科医療 地方病院との連携・京都府の場合【シンポジウム; 小児外科専門医不在・不足地域での小児外科医療】. 第83回日本臨床外科学会総会, 2021年11月20日; Web.
- 14) 青井重善, 金 聖和, 古川泰三, 文野誠久, 高山勝平, 東 真弓, 田尻達郎: 当施設における直腸肛門奇形治療・慢性期管理の要点と問題点【ディベート; 直腸肛門奇形術後の排泄管理~私はこうやって管理している~】. 第83回日本臨床外科学会総会, 2021年11月20日; Web.
- 15) 坂井宏平, 東 真弓, 文野誠久, 青井重善, 古川泰三, 田尻達郎: 当院における医療的ケア児(者)のトランジションの実際【パネルディスカッション; 小児外科疾患のトランジションの今後】. 第83回日本臨床外科学会総会, 2021年11月19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 大阪大学大学院医学系研究科小児成育外科 教授
松浦 俊治 九州大学病院総合周産期母子医療センター 准教授
仁尾 正記 東北大学大学院医学系研究科 客員教授

研究協力者

田附 裕子 大阪大学大学院医学系研究科小児成育外科 准教授

【研究要旨】

短腸症治療の現状として、中心静脈栄養に依存する短小腸による腸管吸収機能不全症候群は稀であり、予後についての調査はない。また腸管リハビリテーション医療の重要性はまだ本邦において認識されていない。欧米ではすでに中心静脈栄養を必須とする患者では、多科・多職種専門のチームによる中心静脈カテーテル管理、栄養評価、薬物療法、外科的治療などを行い、在宅経静脈栄養へむけた家族・地域支援を行うことが推奨されている（腸管リハビリテーションプログラム：IRP）。今回、短腸症を含む腸管不全患者の実態調査を行った。本邦においても腸管不全患者は約380名程度存在しているが、施設としてNST活動は普及しているが腸管不全治療のチーム診療の経験はまだまだ少なく、各施設・主治医の工夫で治療が行われていた。

今後、短腸症患者全体の治療成績の向上には、ガイドラインなどによる治療の標準化や腸管不全治療に関する専門施設（センター）による診療支援体制の制度化などが必要と思われる。

A．研究目的

短腸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。しかし、本邦では、診療ガイドラインは作成されておらず、適切な診療が提供されているとは言い難い。また本邦での疫学調査も行われておらず、短腸症の診療実態は不明である。このような背景のもと、本邦における短腸症の疫学・診療実態調査に基づくエビデンスを創出し、短腸症の標準治療体制を確立することを目的とする。結果として、短腸症患者の予後・QOLの改

善を目指す。

B．研究方法

- 1) 短腸症と含む腸管不全患者の疫学調査、診療実態調査を実施して本邦での患者数や診療実態を明らかにする。まず、第50回日本小児外科代謝研究会において、小児腸管不全患者の診療に関する実態調査を行い、本邦における診療実態の全体像を把握する。
- 2) この調査で収集された短腸症例に対して、2次調査を行う。
- 3) 短腸症に対する内科ならびに外科治療を適正化し、合併症を予防・軽減することを目的とした、クリニカルクエスチョンを作成し、システムチックレビューを行い、国内

外のエビデンスを集積する。

- 4) 得られたエビデンス総体をもとに本邦独自の短腸症診療ガイドラインを作成する。短腸症における診療ガイドラインを策定する。また、短腸症患者のレジストリを作成し、症例を収集し、診療ガイドラインとともに、短腸症患者における腸管リハビリテーションプログラムのプロトコルの作成を目指す。

(倫理面への配慮)

腸管不全患者の診療に関する実態調査において、施設名・患者個人情報などは含まれない。調査内容は、大阪大学医学部倫理委員会における承認を得、また、日本小児外科代謝栄養研究会の役員会で承認を得て行った。

C. 研究結果

- 1) 短腸症と含む腸管不全患者の疫学調査・診療実態調査報告

消化管機能の問題によりTPNを60日以上要する腸管機能不全患者を対象とし、日本小児外科代謝研究会における幹事および施設代表者：67施設に対し、2020年2月20日～5月15日にアンケートを実施した。回答率は84%（56施設）で、のべ386人のIF患者に対する治療経験の回答があった。アンケート結果を2021年において解析した。主な疾患は短腸症166人、運動機能障害150人であった。NST活動は全施設で実施されていたが、腸管リハビリテーションチームの活動は7%の施設でのみ実施されていた。その他、アンケート調査項目（カテーテル管理方法、輸液処方内容、TPN合併症の有無、HPN指導方法、経腸栄養、外科治療、内科治療、栄養評価方法、就学の状況）について集計を行った。腸管不全患者のカテーテル管理において、使用するカテーテルは皮下トンネル型のカテーテルの使用が標準的で、日常のカテーテルロックやカテーテル血栓予防にはヘパリンが使用されていた。またカテーテル閉塞時の対応としてはウロキナーゼやヘパリンが使用されていたが、入れ替えを優先するという施設も多かった。カテーテル血流感染時の対応として入れ替え/抜去の経験について、エタノールロックの経験を8割の施設で認めた。腸管不全患者における輸液に関して、学童期以後は市販製剤の利用経験が多いが、乳幼児では使用される割合はすくなく、これは小児蛋白製剤としてのプレアミンPの使用頻

度にも一致していた。しかし本邦では小児用蛋白製剤を含む市販輸液は未販売であり、小児高カロリー輸液製剤に対する要望も8割の施設で回答があった。脂肪製剤においては、主として本邦で販売されている大豆由来脂肪製剤を9割の施設で使用しているが、3系脂肪製剤を使用した経験が5割の施設からあった。この3系脂肪製剤については、あれば使用する/すぐに使用するという回答が多く、今後3系脂肪製剤の国内販売が期待される。HPNの指導は医師・看護師により導入され、患者家族に行われて、輸液管理において間欠投与を優先する施設が6割あったが、9割の施設で低血糖の経験もありHPN管理において家族への低血糖に関する知識の提要も重要とおもわれる。腸管不全患者においても経腸栄養は選択され、新生児期には母乳と成分栄養剤、幼児期には成分栄養剤と半消化態栄養剤が多く選択されていた。外科的治療経験としては、胃瘻・腸瘻・癒着手術の経験が多く、腸管延長術も20施設で経験していた。短腸症に対する内科的治療は、整腸剤、制酸剤、止瀉薬の順に多く、本邦では漢方の使用が随分多くみられた。外来診療において、本邦では栄養状態の評価を小児外科医が実施している施設が51%で、小児科医が主体となる施設は28%のみであった。栄養状態の評価項目は網羅されているが、施設によりばらつきがあり、今後標準化が必要と思われた。社会生活において、普通学校は33%で、支援付の普通学校26%、支援学校（医学的）20%であり、中心静脈栄養を必要とする腸管不全患者における社会支援の充足が切望される結果であった。

- 2) 二次調査：上記実態調査で該当患者の診療経験があると回答した施設を対象とし、今後、二次調査を行う予定である。

#1 プライマリ・アウトカム：生存率（*1）、中心静脈依存度（*2）

*1：生存率（短期：発症後1年、長期：調査時）、*2：中心静脈栄養依存度

#2 セカンダリ・アウトカム：初回退院時の入院期間、中心静脈栄養依存期間、中心静脈カテーテル留置期間、合併症の有無

3) 短腸症における診療ガイドラインの策定
Mindsガイドラインに準じ、CQの設定を行い、1次スクリーニングを行った。1次スクリーニングの結果は表のとおりである。現在、2次スクリーニングの文献を収集し、今後Mindsにそってシステマティックレビューをチームにより行われる予定である。以下に設定したCQを概説する。

CQ 1 . 短腸症の重症度と臨床経過について：短腸症の重症度（残存腸管長さ、回盲弁の有無等）に関するデータを集積し、予後・臨床経過についてレビューする。

2020ver. の CQ1
一次スクリーニング: 597文献
Clinical trial: 24
Comparative study:47
Systematic Review:2
Guidline:8
Evaluation stuy:15
Meta-Analysis: 3
Multicentral study: 14
Observation study: 12
Randomized control study : 6

CQ 2 . 短腸症に対する内科的治療の有効性について：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。こうした個々の症状に対して複数の薬物療法が選択されるが、エビデンスに乏しく、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、消化管ホルモン、止痢剤、制酸剤など）の有用性を検討する。

2020ver. のCQ5= CQ2
一次スクリーニング: 389文献
Clinical trial: 45
Comparative study:8
Systematic Review:19
Guidline:1
Meta-Analysis: 1
Multicentral study: 8
Randomized control study : 31

CQ 3 . 短腸症に対する外科的治療の有効性について：短腸症においては腸管吸収面積の減少、通過時間の短縮などにより、十分な消化吸収が困難となる。そのため、腸管吸収面積の増大、通過時間延長を目的とした種々の外科的治療（腸管連続性の確立、

腸管延長術、小腸移植など）が試みられている。しかし個々の外科的治療の有効性については未だ明らかではない。個々の外科的治療の有効性について検討する。

2020ver. の CQ4= CQ3
一次スクリーニング: 475文献
Clinical trial: 4
Systematic Review:8
Guidline:1
Meta-Analysis: 2
Multicentral study: 10
Randomized control study : 1

CQ 4 . 短腸症の合併症の予防と治療方法について：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。これらの合併症は患者のQOLを低下させ、生命予後にも大きく関与する。近年、カテーテル関連血流感染の予防・治療を目的としたエタノールロックが報告されているが、そ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 -3系脂肪製剤や -3/ -6系脂肪製剤の有効性も報告されているが、本邦ではいまだ未承認薬である。エタノールロック、 -3系脂肪製剤など、文献検索によるシステマティックレビューから、短腸症における合併症の予防と治療方法についてのエビデンスを創出する。

2020ver. の CQ2 =CQ4
一次スクリーニング: 669文献
Clinical trial: 23
Comparative study:33
Systematic Review:19
Guidline:2
Evaluation study:3
Meta-Analysis: 8
Multicentral study: 16
Randomized control study : 13

CQ 5 . 腸管リハビリテーションプログラムの有用性について：短腸症をはじめとした腸管不全に対しては、内科的・外科的治療、各種栄養指標の定期的モニタリング、長期中心静脈カテーテル管理に加えて、在宅医療との連携が必須であり、欧米を中心に多科・多職種によるIRPが実践されている。このIRPの有用性に関する

エビデンスを集積することは、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。システマティックレビューによりIRPに関するエビデンスを創出する。

2020ver.の CQ6 = CQ5
一次スクリーニング: 391文献
Clinical trial: 7
Comparative study: 20
Systematic Review: 3
Guideline: 3
Evaluation study: 8
Meta-Analysis: 3
Multicentral study: 5
Randomized control study: 2

D. 考察

短腸症治療の現状として、中心静脈栄養に依存する短小腸による腸管吸収機能不全症候群は稀であり、予後についての調査はない。患者数は、平成23年(2011年)の全国調査で中心静脈栄養に依存している短腸症は約61名であったのに対し、2020年の小児施設を対象とした全国調査では中心静脈栄養に依存している短腸症は166例と増加している。発症機序が不明なうえ根本的治療がないため、患者は年々増加傾向にある。

平成23年(2011年)の腸管不全の全国調査で短腸症128例中90%近くの患者は生存している一方で、51%が年1回以上の敗血症などの重症感染症を併発している。また、年に数例の多臓器不全患者が移植待機中に死亡している。以上より、不可逆性・進行性の疾患であることから、長期的QOLは低く、多臓器不全に至った重症例の生命予後は極めて不良である。

我々の調査においても一定数の短腸症患者が、各々の施設で診療を継続されており、今後標準的な治療ガイドラインは必須と思われる。

しかし、腸管リハビリテーション医療の重要性はまだ本邦において認識されていない。欧米ではすでに中心静脈栄養を必須とする患者では、多科・多職種専門のチームによる中心静脈カテーテル管理、栄養評価、薬物療法、外科的治療などを行い、在宅経静脈栄養へむけた家族・地域支援を行うことが推奨されている(腸管リハビリテーションプログラム: IRP)。小児発症例においては、成人期移行医療(トランジショナルケア)も重要な課題であるがトランジショナル問題の解決には到底至っていない。さらに重症例は小腸移植の適応であり、適切な時期に移植医療機関への紹介が重要であるが、その数は限定的である。今後、本邦でも多科・多職種連携の腸管リハビリテーション医療が、腸

管不全患者診療の主体となることが切望される。

そのためには、ガイドラインの導入が必要である。先述の通り、短腸症に対する治療は、症例の重症度等により異なり、医師主体の治療となっていることが多い。ガイドライン導入により、一定の治療指針に基づいた多職種によるチーム医療の実践が期待される。

E. 結論

短腸症を含む腸管不全患者の実態調査を行った。本邦においても腸管不全患者は約380名程度存在しているが、施設としてNST活動は普及しているが腸管不全治療のチーム診療の経験はまだまだ少なく、各施設・主治医の工夫で治療が行われていた。

今後、短腸症患者全体の治療成績の向上には、ガイドラインなどによる治療の標準化や腸管不全治療に関する専門施設(センター)による診療支援体制の制度化などが必要と思われる。昨年より、本邦でもGLP2アナログの使用が可能になったが、今後、短腸症を含めた腸管不全患者の治療においては、小児市販輸液・3系脂肪製剤などの国内販売が期待されていることがアンケートよりわかった。今後これらの新規治療薬が、本邦における診療ガイドラインに標準掲載されることが期待される。

F. 研究発表

1. 論文発表

- 1) 田附裕子、米山千寿、塚田 遼、當山千巖、東堂まりえ、岩崎 駿、出口幸一、阪龍太、上野豪久、和佐勝史、奥山宏臣: 在宅中心静脈栄養患者における院内セレン製剤の投与量についての検討. 外科と代謝・栄養55(2) 100-106, 2021

2. 学会発表

- 1) 奥山宏臣、宇田川恵理、田附裕子、長谷川みゆき、水島恒和、中村志郎 本邦におけるレセプトデータを用いた短腸症候群(SBS)に伴う腸管不全患者の実態に関する調査 日本外科代謝栄養学会(58)神戸10/7-9 2021
- 2) 田附裕子、堺 貴彬、堺 大地、五味卓、出口幸一、野村元成、正嶋和典、渡邊美穂、神山雅史、上野豪久、奥山宏臣 成人期になってから栄養障害が出現した短腸症. 小児外科わからん会(83) 大阪/WEB 3/6/ 2021
- 3) 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 "腸管リハビリテーションの現状と課題～腸管不全治療センター活動から見えてきたもの～". 日本腸管リハビリテーション・小腸移植研究会 (33) 神田 / WEB 3/13/ 2021
- 4) 田附裕子、堺貴彬、堺大地、五味 卓、上野豪久、渡邊美穂、野村元成、正嶋和典、出口幸一、奥山宏臣 小児超短腸症候群患者に対する Spiral intestinal lengthening and tailoring (SILT) の経験 日本小児外科学会学術集会 (58) 横浜 / WEB 4/28-30/ 2021
- 5) 田附裕子、宇田川恵理、長谷川みゆき、水島恒和、奥山宏臣. 腸管不全を伴う小児短腸症候群の本邦リアルワールドにおける治療実態について. 日本小児外科学会学術集会 (58) 横浜 / WEB, 4/28/ 2021
- 6) 田附裕子: 腸管不全を伴う短腸症における腸管リハビリテーションの現状. 日本小児外科学会学術集会 (58) , 横浜 / WEB, 4/29/ 2021
- 7) 田附裕子. 腸管不全治療の現状と工夫. 短腸症の会 WEB 9/19/2021
- 8) 田附裕子、塚田 遼、當山千巖、東堂まりえ、岩崎 駿、上野豪久、奥山宏臣. 在宅中心静脈栄養患者における院内セレン製剤の投与量についての検討. 日本外科代謝栄養学会学術集会 (55) 神戸10/8/2021
- 9) 田附裕子、宇田川恵理、長谷川みゆき、水島恒和、中村志郎、奥山宏臣. 腸管不全を友愛小児短腸症候群の本邦におけるリアルワールドにおける治療実態について. 日本小児外科代謝栄養研究会 (50) 神田 / WEB 11/28/2021
- 10) 田附裕子、奥山宏臣. 「小児腸管不全に対する腸管リハビリテーション」アンケート結果報告 日本小児外科代謝栄養研究会 (50) . 神田 / WEB 11/28
- 11) 山野由貴、木村武司、井上泰輔、福井美穂、大沼真輔、里村宜紀、福岡智哉、安田紀恵、橘真紀子、別所一彦、大園恵一、上野豪久、田附裕子、奥山宏臣、石橋怜奈、長井直子 "経静脈栄養の調整により成長障害の改善が得られた超短腸症候群の2例". 日本小児外科代謝栄養研究会 (50) 神田 / WEB 11/28/2021
- 12) 児玉 匡、井深奏司、阪 龍太、田附裕子、奥山宏臣. "青年期に超短腸症となり専門施設と連携した腸管リハビリテーションを行っている一例" 日本小児外科代謝栄養研究会 (50) 神田 / WEB 11/28/2021
- 13) 田附裕子. ご存知ですか? セレン「腸管不全患者におけるセレン製剤の使用経験」. 藤本製薬株式会社 / 静脈栄養WEBセミナー WEB 11/9/2021
- 14) 田附裕子. 短腸症に対する最近の薬物療法 武田薬品工場株式会社 / 短腸症候群 全国Webセミナー WEB 12/2/2021
- 15) 田附裕子、阿部 薫、小谷芳香、上野豪久、渡邊美穂、野村元成、正嶋和典、出口幸一、奥山宏臣. 腸管不全患者における年齢に応じたストーマ位置変更の経験 近畿小児ストーマ管理研究会 (9) 神戸 12/8/2021

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

腹部リンパ管腫

藤野 明浩 国立成育医療研究センター小児外科系専門診療部小児外科 診療部長

木下 義晶 新潟大学医歯学系 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。昨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が、bの論文発表を元に提言することを見込んでおり、現在待機中である。
- 2, 2020年9月に第57回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。詳細な報告については現在論文化の準備中である。また並行して、「後腹膜病変の診療アルゴリズム」作成と「硬化療法後の効果予測に関する研究」を開始した。
- 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つのCQを担当する。現在システムティック・レビューが終わり（資料1）、推奨文の確定作業中である。順調に進んでおり、

2022年度内に出版される見込みである。

4, データベースのオープン化に向けての準備については、本年度現時点では報告すべき進捗はない。データベースの検討論文の完了を待ってオープン化する予定である。

5, 令和3年10月に第4回小児リンパ管疾患シンポジウムをWEB開催し(資料2)、新しい治療薬、漢方薬についての最新情報や小児慢性特定疾患に関する説明など、主に患者・患者家族向けの内容で発信を行った。本シンポジウムはメディアにも取り上げられ、日本医事新報に掲載された(資料3)。

HP「リンパ管疾患情報ステーション」に「患者さん体験ページ」(資料3)患者さんの疑問に患者さんが体験談で答えるページを新設した。誤情報が掲載されないように医療的な部分は医療従事者が事前にチェックをし、今後、質問・回答ともに患者さんに募集しながら内容の充実を図っていく。

【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2年目としての進捗を得たが、最終年に統括を行う。

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その一部が難治性であることが知られる。

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(2017年)が、ガイドラインではCQとして掲載されない多くの臨床課題が浮上している。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、その順に解析が進められており、結果が待たれる。

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(腹部リンパ管腫(リンパ管奇形))が部位として対象外になっているが、頸部・顔面と同様に難治性である腹部の巨大病変については、対象範囲の拡大により難病指定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、有効性が期待されていた薬(シロリムス)の治験が進められ、当研究班で構築し維持しているデータベースが生かすことが一つの目的であったが、治験は無事終了し、手続きが進められた結果、2021年9月に難治性リンパ管疾患が適応として承認され、シロ

リムス内服薬（ラパリムス錠1mg）を臨床の場で保険治療として用いることが出来るようになった。

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。

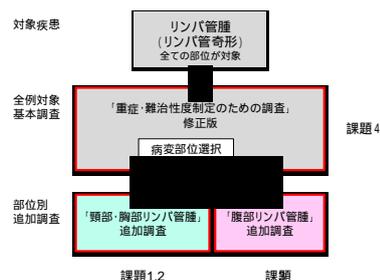
- 1 頸部・胸部リンパ管腫における気管切開の適応に関する検討
- 2 乳び胸水に対する外科的治療の現状
- 3 リンパ管腫症・ゴーハム病の実際（範囲は胸部を越えて構わない）
- 4 縦隔内リンパ管腫における治療の必要性

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つのクリニカルケースを担当した。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っている。2022年内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・ゴーラ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回を令和3年10月にWEB開催（資料1）した。今後も2年に一度のペースで開催し、新規情報の発信を行っていく。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」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）については対象を顔面・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という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会集會にて腹部病変の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。

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。症例調査研究データのまとめ等（論文発表を含む）を元に提言することを見込んでおり、現在待機中である。

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会集會で集計結果が発表された。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。

特に後腹膜病変については別に検討して報告する見込みである（下図）。

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

後腹膜病変の解析

• 腹部病変登録	219例	後腹膜病変	108例 (49%)
• 治療			
外科的切除	38例 (25%)	→ 難治性11例(切除2回以上)	8例
硬化療法	22例 (20%)	→ 外科的切除あり	9例
無治療	40例	いずれも軽症・消失	
• 転帰			
難治性	23例 (21%)		
• Etc.			

↓
診療アルゴリズム作成に向けての検討・解析

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を担当している。

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・レビューを終え（資料1）推奨作成から確定の作業中であるが、2022年内の完成（出版）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続いている。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よ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。

データベースのオープン化に向けての準備については、本年度現時点では報告すべき進捗はない。データベースの検討論文の完了を待ってオープン化する予定である。

5) 医療・社会への情報還元（HP充実、シンポジウム開催）

令和3年10月に第4回小児リンパ管疾患シンポジウムをWEB開催（資料2）し、新しい治療薬、漢方薬についての最新情報や小児慢性特定疾患に関する説明など、主に患者・患者家族向けの内容で発信を行った。終了後にはさらにHPリンパ管疾患情報ステーション内よりシンポジウム講演の後日配信を1ヶ月間おこなった。本シンポジウムはメディアにも取り上げられ、日本医事新報に掲載されている（資料3）。

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76万件を超え、「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。（下図）

今年度は、HP内に2021年10月に薬事承認された「シロリムス関連ページ」と、患者さんの疑問に患者さんが体験談で答える「患者さん体験ページ」を新設した（資料4）。「患者さん体験ページ」については、誤情報が掲載されないように医療的な部分は医療従事者が事前にチェックをし、今後、質問・回答ともに患者さんに募集しながら内容の充実を図っていく。

新リンパ管疾患情報ステーションhome

2022/ 2/ 1

2021年10月シロリムス関連・患者さん体験ページ新設！

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、昨年度に一次集計の学会報告がなされた。論文発表が遅れているが、そのまとめが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ことが見込まれている。

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・拡充している。また前年度は「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、一般化したため本年度は10月にZoomウェビナーを用いて完全webのシンポジウムを開催した。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。

ガイドラインの改定においては、厚労科研秋田班と連携して作業が進めており、現在推奨文の確定の作業中である。研究期間内に出版されるペースで作業は進んでいる。

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いきたい。また国に難病としての提言を進めていきたい。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継続的に進められている。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・管理について临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難治性の基準など具体的なデータをさらに提示する必要があると思われるが、前述の調

査研究結果のまとめを待つ。

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望まれる。

F. 研究発表

- 論文発表
 - 高橋正貴, 藤野明浩:【出生前診断された小児外科疾患の鑑別と周産期管理】リンパ管腫・血管腫. 2021小児外科. 53(2): 211-217
 - 高橋正貴, 金森豊, 沓掛真衣, 山岸徳子, 古金遼也, 小林完, 森禎三郎, 狩野元宏, 米田光宏, 藤野明浩:【必携!外傷と外科疾患への対応】ていねいな診療を必要とする疾患 頸部腫瘍 第4咽頭溝由来瘻孔. 2021小児内科.53(2): 298-302
 - 藤野明浩:【小児外科疾患における公費負担医療の種類と申請方法】リンパ管腫(リンパ管奇形).2021小児外科;53(3): 278-281
 - 藤野明浩:小児リンパ管疾患に対する最近の研究. 2021日本小児放射線学会雑誌 Jpn Soc Pediatr Radiol; 37(2): 121-126
 - Mori T, Fujino A, Takahashi M, Furugane R, Kobayashi T, Kano M, Yoneda A, Kanamori Y, Suzuki R, Nishi K, Kamei K, Itamura M. Successful endoscopic surgical treatment of pleuroperitoneal communication in two infant cases Surgicla Case Report. 2021. 8. 7: 181-181
 - Takahashi Y, Kinoshita Y, Kobayashi T, Arai Y, Ohyama T, Yokota N, Saito K, Sugai Y, Takano S. Management of refractory chylothorax in the neonatal intensive care unit: A 22-year experience. Pediatr Int. 2021 Oct 27. doi: 10.1111/ped.15043. Online ahead of print. PMID: 34706149
- 学会発表
 - 高橋正貴, 藤野明浩, 松岡健太郎, 野坂俊介, 宮坂実木子, 小関道夫, 黒田達夫, 上野滋, 義岡孝子, 出家享一, 梅澤明弘, 金森豊: リンパ管疾患の病理学的な嚢胞形態の検討. 第58回日本小児外科学会学術集会 横浜, 2021.4.28
 - 高橋正貴, 森禎三郎, 藤野明浩, 西健太郎, 鈴木竜太郎, 亀井宏一, 古金遼也, 狩野元宏, 沓掛真衣, 小林完, 山岸徳子, 米田光宏, 金森豊: 乳幼児の横隔膜交通症に

対する ICG 蛍光ナビゲーション手術の有用性. 第58回日本小児外科学会学術集会 横浜, オンデマンド 2021.5.14~5.28

- 3) ○高橋良彰, 木下義晶, 小林 隆, 荒井勇樹, 大山俊之, 横田直樹, 斎藤浩一: 当院 NICU で経験した乳び胸症例の検討. 第58回日本小児外科学会学術集会 横浜, オンデマンド 2021.5.14~5.28
- 4) ○藤野明浩: 嚢胞状リンパ管奇形(リンパ管腫)の発生と進展に関する臨床的考察. 第45回日本リンパ学会, シンポジウム2「発生遺伝学と形態学からリンパ管異常症を診る」 WEB開催, 2021.6.4
- 5) ○藤野明浩: 小児腸重積の診療ガイドラインの改訂に向けて CQ34、37超音波下悲観血整復術は有効か? について. 第34回日本小児救急医学会学術集会 シンポジウム3 奈良市, 2021.6.4
- 6) ○上野滋, 藤野明浩, 木下義晶, 岩中督, 森川康英, 小関道夫, 野坂俊介, 松岡健太郎, 臼井規朗, 渡辺 稔彦, 小児呼吸器形成異常・低形成疾患に関する実態調査および診療ガイドライン作成に関する研究班(臼井班): 頭頸部リンパ管腫の診断と治療 頭頸部および縦隔に及ぶリンパ管腫に対する気管切開の適応について 全国調査結果から. 第16回日本小児耳鼻咽喉科学会総会学術集会シンポジウム5 大阪, 2021.7.9
- 7) ○西健太郎, 鈴木竜太郎, 高橋正貴, 森禎三郎, 横田俊介, 灘大志, 村越未希, 加納優治, 佐藤舞, 小椋雅夫, 藤野明浩, 亀井宏一: 腹膜透析中に発症した横隔膜交通症の乳幼児例に対する外科的治療. 第56回小児腎臓病学会学術集会 高知, 2021.7.9
- 8) ○藤野明浩, 高橋正貴, 加藤源俊: 頭頸部リンパ管腫の診断と治療 リンパ管腫(嚢胞状リンパ管奇形)の発生と治療. 第16回日本小児耳鼻咽喉科学会総会学術集会シンポジウム5 大阪, 2021.7.9

- 9) ○藤野明浩: 頭頸部リンパ管腫の診断と治療 リンパ管腫(嚢胞状リンパ管奇形)の発生と治療. 第16回日本小児耳鼻咽喉科学会総会学術集会シンポジウム5 大阪市, 2021.7.9
- 10) ○藤野明浩: 講義7「リンパ管奇形」. (第17回日本血管腫血管奇形学会学術集会) 第12回血管腫血管奇形講習会 岐阜, WEB参加, 2021.10.2
- 11) ○高橋正貴, 金森豊, 森禎三郎, 古金遼也, 小林 完, 橋詰直樹, 狩野 元宏, 渡辺栄一郎, 米田 光宏, 藤野明浩: 全結腸型・小腸型ヒルシュスプリング病の4例. 第50回日本小児外科代謝研究会 東京, 2021.10.29
- 12) ○藤野明浩, 高橋正貴, 橋詰直樹, 小林完, 古金遼也, 森禎三郎, 狩野元宏, 渡辺栄一路, 米田光宏, 金森 豊: リンパ管腫(嚢胞状リンパ奇形)の治療戦略とQOLに関する検討. 第31回日本小児外科QOL研究会 川崎, 2021.11.6

(その他)

- 1) 第4回小児リンパ管疾患シンポジウム開催 2021.10.17 WEB開催
- 2) HP: リンパ管疾患情報ステーション <http://lymphangioma.net> 「シロリムス関連ページ」、「患者さん体験ページ」新設
- 3) 世界初の薬物療法 難治性リンパ管疾患の治療に新たな選択肢, ノーベルファーマ主催 「難治性リンパ管疾患治療の最新動向に関するWebセミナー」, WEB開催, 2021.10.26

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

胃食道逆流症

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。小慢および難病指定が必要な小児難治性GERDを認めれば、それらの指定を目指す。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。

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の詳細な内容についての英文論文化と、難治性GERDの小児慢性特定疾患の選定に向けての方向性の検討を行った。

小児難治性 GERD患者の現状調査の成果の内容については英文論文として、英文雑誌Surgery Todayに投稿し、令和3年11月16日にアクセプトとなった。

難治性GERDの小児慢性特定疾患の選定は、基礎疾患毎に分けずに選定を目指す方針となり小慢特定疾病調査票を作成した。申請にあたって、「難治性」GERD の定義は、日本小児外科学会などでの総意形成がされることが望ましい。小慢の制度としては、知的障害のみ、発達障害のみ、慢性疾病に寄らない重症心身障害などは、小慢の対象とはみなしてはいない。などの課題が明らかになった。

また、今後の研究の方向性として、「小児胃食道逆流症診療ガイドライン」作成の際にCQとなり得るような重要研究テーマを実施可能な範囲で行っていくこととした。

難治性GERDの小児慢性特定疾患への選定に向けて検討する中で、明らかになった課題の解決に向けてさらに検討を進めると共に、将来の「小児胃食道逆流症診療ガイドライン」作成の際のエビデンス創出を目的とした研究立案を進める。

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、小慢および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。小慢および難病指定が必要な小児難治性GERDを認めれば、それらの指定を目指す。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

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の詳細な内容についての英文論文化と、難治性GERDの小児慢性特定疾患の選定に向けての方向性の検討を行った。

（倫理面への配慮）

本研究については中心となる久留米大学医学部（研究番号:18215）にて倫理委員会の承認を得て実施されている。

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の詳細な内容については英文論文として、英文雑誌Surgery Todayに投稿し、令和3年11月16日にアクセプトとなった。

前年度に、難病指定が必要と考えられる難治性小児胃食道逆流症例の抽出と詳細な病態分析を行い、小児慢性特定疾患への選定および難病指定へ向けての可能性について考察を行った。班会議での議論では、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。一方で、小児慢性特定疾患への選定に関しては選定される可能性がある。しかし、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。

本年度は、昨年度の班会議での結論を踏まえて、まず小児慢性特定疾患の選定を目指すこととし、難治性GERDとして目指すか、あるいは、疾患別に個別に目指すかについて再度検討を行うこととした。難治性GERDとして目指す場合、利点として、主要3疾患（重症心身障がい児・食道閉鎖・先天性心疾患）以外の、少数だがその他の医療扶助を受けていない疾患も対象と出来るが、欠点として対象症例の約半数を重症心身障がい児症例が占めることになる。一方、疾患別に目指す場合は利点として、選定が必要な疾患に絞れる。具体的には、重症心身障がい児症例：既に医療扶助を受けていることが多いため、敢えて選定を目指す必要がないかも知れない、食道閉鎖症：食道閉鎖症として選定を目指す、先天性心疾患：左心低形成症候群、内臓錯位症候群など、既に選定されている疾患が多いため、これらに追加申請を検討する、などである。欠点としてはこれらの主要3疾患以外は選定から外れる。これらの検討結果を基に、小児慢性特定疾患の選定の方向性について意見を募った。第一回班会議において、小児慢性特定疾患の選定においては、生命を長期にわたって脅かす疾病でなくとも、慢性に経過する疾病で、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れば積極的に選定を目指すべき、という意見や、主要3疾患以外の少数の疾患の症例についても扶助されるようにした方が良い、などの肯定的な意見を得、今後、難治性GERDとして小児慢性特定疾患の選定を目指す方針となった。

この結果を受けて、難治性GERDの小慢特定疾病調査票を作成し、成育医療研究センターの盛

一先生にご相談したところ、小慢申請にあたって主に以下の2点について指摘を受けた。

「難治性」GERDの定義について、現在は研究班としての総意の段階で、今後、日本小児外科学会などでの総意形成がされることが望ましい。障害・福祉施策との棲み分け：現在は未だ、小慢の制度としては、知的障害のみ、発達障害のみ、慢性疾病に寄らない重症心身障害などは、小慢の対象とはみなしてはいない。これらの指摘点について、討議を行い、の総意形成の方法については日本小児外科学会内で、所定の手続きを行って承認を得る必要がある。小慢申請にあたって、重心症例を含むかどうかについてはもう少し検討の必要がある。難治性GERDの定義について、再度、研究班内で総意形成を行った方がよいだろう、との方向性が示された。

・今後の研究の方向性

「小児胃食道逆流症診療ガイドライン」作成が今後の重要な研究課題となる。しかし、ガイドライン作成にはかなりの準備を要し、実行するにはハードルが上がるため、まずは将来CQとなり得るような重要研究テーマを実施可能な範囲で行っていくこととした。まずは、将来の「小児胃食道逆流症診療ガイドライン」作成の際の、噴門形成術の適応に関するCQのエビデンス創出を目的とした研究構想「NCDデータの噴門形成術の入力データ活用による重症GERDの特徴のエビデンスの創出」などを今後検討していく。

D. 考察

本年度は、小児難治性 GERD患者の現状調査の成果を英文論文として報告することができた。

難治性GERDの小児慢性特定疾患への選定に向けての方向性は、主要3疾患別に分けない方向性となったが、検討を進めていく中で、重心症例を含めるか、と難治性GERDの定義について再度研究班内で総意形成の必要性などが改めて課題として浮上した。

また、将来の「小児胃食道逆流症診療ガイドライン」作成の際の、噴門形成術の適応に関するCQのエビデンス創出を目的とした研究の立ち上げなども今後検討していく方針である。

E. 結論

難治性GERDの小児慢性特定疾患への選定に向けて検討する中で、明らかになった課題の解決に向けてさらに検討を進めると共に、将来の「小児胃食道逆流症診療ガイドライン」作成の

際のエビデンス創出を目的とした研究立案を進める。

F. 研究発表

1. 論文発表

- 1) Imagawa K, Fukahori S, Hashizume N, Saikusa N, Higashidate N, Ishii S, Masui D, Sakamoto S, Tsuruhisa S, Nakahara H, Tanaka Y, Yagi M, Yamashita Y. QOL of caregivers supporting neurologically impaired patients underwent surgery. *Pediatr Int.* 2022, in press
- 2) Fukahori S, Yagi M, Kawahara H, Masui D, Hashizume N, Taguchi T. Current status of intractable pediatric gastroesophageal reflux disease in Japan: a nationwide survey *Surg Today.* 2022 Online ahead of print.
- 3) Nakahara H, Hashizume N, Yoshida M, Fukahori S, Ishii S, Saikusa N, Koga Y, Higashidate N, Sakamoto S, Tsuruhisa S, Tanaka Y, Yamashita Y, Yagi M. Creatinine-to-cystatin C ratio estimates muscle mass correlating the markers of the patients with severe motor and intellectual disabilities *Brain Dev.* 2021 Online ahead of print.
- 4) Masui D, Fukahori S, Hashizume N, Ishii S, Higashidate N, Koga Y, Sakamoto S, Tsuruhisa S, Nakahara H, Saikusa N, Tanaka Y. Influence of laparoscopy-aided gastrostomy on gastroesophageal reflux in neurologically impaired patients using multichannel intraluminal impedance pH measurements *Esophagus.* 2021 Online ahead of print.
- 5) Masui D, Fukahori S, Hashizume N, Ishii S, Higashidate N, Sakamoto S, Tsuruhisa S, Nakahara H, Saikusa N, Tanaka Y, Yagi M. Simultaneous Evaluation of Laryngopharyngeal Reflux and Swallowing Function Using Hypopharyngeal Multichannel Intraluminal Impedance Measurements in Neurologically Impaired Patients *J Neurogastroenterol Motil.* 27(2):198-204, 2021
- 6) Hashizume N, Shin R, Akiba J, Sotogaku N, Asagiri K, Hikida S, Fukahori S, Ishii S, Saikusa N, Koga Y, Egami H, Tanaka Y, Nishi A, Yagi M. The herbal medicines Inchinkoto and Saireito improved hepatic fibrosis via aquaporin 9 in the liver of a rat bile duct ligation model *Pediatr Surg Int.* 37(8):1079-1088, 2021
- 7) Konishi KI, Mizuochi T, Takei H, Yasuda R, Sakaguchi H, Ishihara J, Takaki Y, Kinoshita M, Hashizume N, Fukahori S, Shoji H, Miyano G, Yoshimaru K, Matsuura T, Sanada Y, Tainaka T, Uchida H, Kubo Y, Tanaka H, Sasaki H, Murai T, Fujishiro J, Yamashita Y, Nio M, Nittono H, Kimura A. A Japanese prospective multicenter study of urinary oxysterols in biliary atresia. *Sci Rep.* 11(1):4986, 2021
- 8) Sakamoto S, Hashizume N, Fukahori S, Ishii S, Saikusa N, Higashidate N, Aramaki S, Matsuo Y, Takeshita E, Tanaka Y, Yamashita Y, Yagi M. Complications in patients with neurological impairment after gastrostomy. *Pediatr Int.* 63(11):1357-1362, 2021
- 9) 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 志保利, 中原 啓智, 七種 伸行, 田中 芳明, 八木 実
【必携!外傷と外科疾患への対応】ていねいな診療を必要とする疾患 胃食道逆流症 食道裂孔ヘルニアを含めて *小児内科* 53(2):274-279, 2021
- 10) Hashizume N, Tanaka Y, Asagiri K, Fukahori S, Ishii S, Saikusa N, Yoshida M, Tanikawa K, Asakawa T, Yagi M. Perioperative reactive oxygen species in infants with biliary atresia: A retrospective observational study. *Medicine (Baltimore)* 99(31): e21332, 2020
- 11) 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.
- 12) 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.

- 13) 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
- 14) 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:小児の酸関連疾患について:小児胃食道逆流症のトリセツ
第48回日本小児栄養消化器肝臓学会,
2021.10.3 ランチョンセミナー

- 2) 升井 大介, 深堀 優, 中原 啓智, 鶴久 士保利, 坂本 早季, 東館 成希, 橋詰 直樹, 七種 伸行, 石井 信二, 田中 芳明, 八木 実:重症心身障害者における下咽頭インピーダンスpH検査による咽頭流と嚥下機能評価の試み 日本食道学会学術集会 2021.09
- 3) 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
- 4) 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
- 5) 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た。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．研究結果を参照)

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。今後は、小児慢性特定疾病の指定を受けることをめざし活動することとした。

F．研究発表
1. 論文発表
今後、英文論文を予定している。

2. 学会発表
2021年第58回日本小児外科学会で上記の内容を発表した(抄録添付)。

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

澁本 康史 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

【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、小児慢性特定性疾患、ならびに指定難病への指定を目指し、小児期から成人期にかけての適切な政策医療を施行していただくことを目的とする。また疾患の啓発と情報提供を行っていく。

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、9、12、15、18、21、24、27、30歳の患者を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以前行った該当年齢（6、12、18歳）を該当年齢を更に増やして6、9、12、15、18、21、24、27、30歳とし、追加調査を行った。39施設中24施設から回答があり、予定症例数は357例中186例で、有効症例数は162例であった。

➤ このうちJASGAPスコアを測定できる調査が行われた病型の内訳は中間位50例、高位71例であった。

JASGAPの調査からQOLに最も影響を及ぼすのは失禁スコア（0-3、大きいほど失禁が少ない）であるため失禁スコアを解析すると

失禁スコア	3	2-0	
中間位	30	20	40%
高位	33	38	54%
カイ2乗検定P=0.14			
20歳以上失禁スコア	3	2-0	
中間位	5	2	29%
高位	8	8	50%

Fisher検定 P=0.62

上記のようになり、成人でQOLに最も影響

を及ぼすとされる失禁スコアが2点以下の割合は、中間位・高位型患者を含めて40%を超えているというデータが得られた。JASGAPスコアは、年齢とともに改善する傾向もあったが、20歳以上の失禁に関して解析するとNが少ないながらも、失禁スコアが2点以下の割合は、中間位・高位型患者が29%、50%と多くの患者がまだ十分なQOLが成人になっても十分なQOLが得られていない結果が得られた。染色体異常の有無、髄膜瘤の有無での解析では失禁スコアに有意差はなかった。

D．考察

JASGAPスコア全体的に年齢とともに改善傾向はみられたが、中間位、高位型ともに成人になってもQOLに最も影響を及ぼす失禁スコアが2点以下の割合が高かった。

以上の結果も踏まえて、国立成育医療研究センターの盛一先生にも相談しながら、まずは小児慢性特定疾患への認定を得る努力をすることとなった（2021/10/11のグループ別会議により）。

更に、術後の管理法の標準化のために“術後排便管理の手引き書”を作成する予定である。

E．結論

中間位、高位鎖肛型ともに成人になってもQOLの低下に影響する失禁スコアが低い症例も多く、小児慢性特定疾患への認定申請を行う。

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 九州大学病院総合周産期母子医療センター 准教授

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

一昨年度末以来、小児胆道系疾患に対する生体肝移植の実施について、現地治療対象症例の絞り込みや日本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、人的交流が不可能な状況が持続し、診療や研究の実施

が困難であった。現地の意思への治療助言などは継続してwebで行った。感染状況の好転をみて、次年度実施すべく、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
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

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】

小児歯科・口腔医学からの難病対策チームでは、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、口腔機能に関連する実態を調査することを目的として、まず、歯科受診の実態についてアンケート調査を行うこととした（資料1）。今年度は、福岡歯科大学研究倫理委員会への申請を行い、承認を得たため、実施を開始した（資料2）。

研究成果の刊行に関する一覧表

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
Muto M, Kaji T, Onishi S, Yano K, Yamada W, Ieiri S	An overview of the current management of short bowel syndrome in pediatric patients.	Surgery Today	52(1)	12-21	2022
Yano K, Sugita K, Muto M, Matsukubo M, Onishi S, Kedoin C, Matsui M, Murakami M, Harumatsu T, Yamada K, Yamada W, Kumagai K, Ido A, Kaji T, Ieiri S	The preventive effect of recombinant human hepatocyte growth factor for hepatic steatosis in a rat model of short bowel syndrome.	Journal of Pediatric Surgery		in press	2021
Yano K, Muto M, Harumatsu T, Nagai T, Murakami M, Kedoin C, Nagano A, Matsui M, Sugita K, Onishi S, Yamada K, Yamada W, Matsukubo M, Kaji T, Ieiri S	Analyzing the Conversion Factors Associated with Switching from a Single-incision, One-puncture Procedure to a Two-site, Three-port Procedure in Pediatric Laparoscopic Appendectomy.	Journal of Pediatric Endoscopic Surgery		in press	2021
Harumatsu T, Sugita K, Ieiri S, Kubota M	Risk factor analysis of irreversible renal dysfunction based on fetal ultrasonographic findings in patients with persistent cloaca: Results from a nationwide survey in Japan	Journal of Pediatric Surgery		30;S0022 - 3468(21)00751-X.	2021
Murakami M, Poudel S, Bajracharya J, Fukuhara M, Kiriya K, Shrestha M, Chaudhary R, Pokharel R, Kurashima Y, Ieiri S	Support for Introduction of Pediatric Endosurgery in Nepal as Global Pediatric Surgery: Preliminary Needs Assessment survey.	Journal of Laparoendoscopic & Advanced Surgical Techniques	31(12)	1357-1362	2021
Sugita K, Kaji T, Yano K, Matsukubo M, Nagano A, Matsui M, Murakami M, Harumatsu T, Onishi S, Yamada K, Yamada W, Muto M, Kumagai K, Ido A, Ieiri S	The protective effects of hepatocyte growth factor on the intestinal mucosal atrophy induced by total parenteral nutrition in a rat model.	Surgery International	37(12)	1743-1753	2021
Kawano T, Sozaki R, Sumida W, Shimojima N, Hishiki T, Kinoshita Y, Kawashima H, Uchida H, Tajiri T, Yoneda A, Oue T, Kuroda T, Hirobe S, Koshinaga T, Hiyama E, Nio, M, Inomata Y, Taguchi T, Ieiri S	Current thoracoscopic approach for mediastinal neuroblastoma in Japan—Results from nationwide multicenter survey—	Pediatric Surgery International	37(12)	1651-1658	2021

研究成果の刊行に関する一覧表

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
Kawano T, Sozaki R, Sumida W, Ishimaru T, Fujishiro J, Hishiki T, Kinoshita Y, Kawashima H, Uchida H, Tajiri T, Yoneda A, Oue T, Kuroda T, Koshinaga T, Hiyama E, Nio, M, Inomata Y, Taguchi T, Ieiri S	Laparoscopic approach for abdominal neuroblastoma in Japan -Results from nationwide multicenter survey -	Surgical Endoscopy		in press	2021
Onishi S, Nakame N, Sugita K, Yano K, Matsui M, Nagano A, Harumatsu T, Yamada K, Yamada W, Matsukubo M, Kaji T, Ieiri S	Optimal Timing of definitive Surgery for Hirschsprung's disease to achieve a better long-term bowel function.	Surgery Today	52	92-97	2022
Muto M, Sugita K, Ibara S, Masuya R, Matsukubo M, Kawano T, Saruwatari Y, Machigashira S, Sakamoto K, Nakame K, Shinyama S, Torikai T, Hayashida Y, Mukai M, Ikee T, Shimono R, Noguchi H, Ieiri 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.	Pediatric Surgery International	37(3)	411-417	2021
Nakame K, Onishi S, Murakami M, Nagano A, Matsui M, Nagai T, Yano K, Harumatsu T, Yamada K, Yamada W, Masuya R, Muto M, Kaji T, Ieiri S	A retrospective analysis of the real-time ultrasound-guided supraclavicular approach for the insertion of a central venous catheter in pediatric patients— A comparison of the brachiocephalic vein and internal jugular vein –.	The Journal of Vascular Access		in press	2021
Sugita K, Ibara S, Harumatsu T, Ishihara C, Naito Y, Murakami M, Machigashira S, Noguchi N, Kaji T, Ieiri S	Potential onset predictive factors for focal intestinal perforation in extremely-low-birth-weight infants based on a coagulation and fibrinolysis system analysis at birth: A Case-Control Study of Ten years' experience at a single institution.	Journal of Pediatric Surgery	56(7)	1121-1126	2021
Matsukubo M, Kaji T, Onishi S, Harumatsu T, Nagano A, Matsui M, Murakami M, Sugita K, Yano K, Yamada K, Yamada W, Muto M, Ieiri S	Differential gastric emptiness according to preoperative stomach position in neurological impaired patients who underwent laparoscopic fundoplication and gastrostomy.	Surgery Today	51	1918-1923	2021

研究成果の刊行に関する一覧表

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
Kawano T, Sugita K, Kedoin C, Nagano A, Matsui M, Murakami M, Kawano M, Yano K, Onishi S, Harumatsu T, Yamada K, Yamada W, Masuya R, Matsukubo M, Muto M, Machigashira S, Nakame K, Mukai M, Kaji T, Ieiri S	Retroperitoneal teratomas in children: a single institution experience.	Surgery Today	52(1)	144-150	2021
Torikai M, Sugita K, Ibara S, Ishihara C, Kibe M, Murakami K, Shinyama S, Mukai M, Ikee T, Sueyoshi K, Noguchi H, Ieiri S:	Prophylactic Efficacy of Enteral Antifungal Administration of Miconazole for Intestinal Perforation, especially for Necrotizing Enterocolitis; a Historical Cohort Study at a Single Institution.	Surgery Today	51(4)	568-574	2021
Machigashira S, Kaji T, Onishi S, Yano K, Harumatsu T, Yamada K, Yamada W, Matsukubo M, Muto M, Ieiri S	What is the optimal lipid emulsion for preventing intestinal failure-associated liver disease following long-term parenteral feeding in a rat model of short-bowel syndrome?	Pediatric Surgery International	37(2)	247-256	2021
Kaji T, Yano K, Onishi S, Matsui M, Nagano A, Sugita K, Harumatsu T, Yamada K, Yamada W, Matsukubo M, Muto M, Ieiri S	The evaluation of eye gaze using an eye tracking system in simulation training of real-time ultrasound-guided venipuncture.	The Journal of Vascular Access		in press	2021
Matsukubo M, Yano K, Kaji T, Sugita K, Onishi S, Harumatsu R, Nagano A, Matsui M, Murakami M, Yamada K, Yamada W, Muto M, Kumagai K, Ido A, Ieiri S	The administration of hepatocyte growth factor prevents total parenteral nutrition-induced hepatocellular injury in a rat model.	Pediatric Surgery International	37(3)	353-361	2021
Harumatsu T, Kaji T, Nagano A, Matsui M, Yano K, Onishi S, Yamada K, Yamada W, Matsukubo M, Muto M, Ieiri S	Early definitive operation for patients with anorectal malformation was associated with a better long-term postoperative bowel function.	Pediatric Surgery International	37(4)	445-450	2021

研究成果の刊行に関する一覧表

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
Muto M, Sugita K, Ibara S, Masuya R, Matuskubo M, Kawano T, Saruwatari Y, Machigashira S, Sakamoto K, Nakame K, Shinyama S, Torikai T, Hayashida Y, Mukai M, Ikee T, Shimono R, Noguchi H, Ieiri 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.	Pediatric Surgery International	37(3)	411-417	2021
Masuya R, Muraji T, Harumatsu T, Muto M, Nakame K, Nanashima A, Ieiri S	Biliary atresia; graft-versus-host disease with maternal microchimerism as an etiopathogenesis.	Transfusion and Apheresis Science		in press	2021
Machigashira S, Kaji T, Matsui M, Nagano A, Murakami M, Sugita K, Matsukubo M, Ieiri S	Laparoscopic retrograde biliary drainage tube stenting technique of hepaticojejunostomy for preventing anastomotic stenosis of a small hepatic duct – a case of choledochal cyst in a small infant.	Journal of Laparoendoscopic & Advanced Surgical Techniques & Part B:Videoscopy,	31(1)	in press	2021
Matsui M, Yano K, Kaji T, Harumatsu T, Onishi S, Yamada K, Matsukubo M, Ieiri S	Laparoscopic super-low anterior resection for congenital rectal stenosis using Swenson's technique.	Journal of Laparoendoscopic & Advanced Surgical Techniques & Part B:Videoscopy	31(1)	in press	2021
Nagano A, Onishi S, Tazaki Y, Kobayashi H, Ieiri S	Fetal small bowel volvulus without malrotation detected on prenatal ultrasound.	Pediatrics International	63(7)	845-846	2021
Sugita K, Kaji T, Nagano A, Muto M, Nishikawa T, Masuda H, Imakiire R, Okamoto Y, Imamura M, Ieiri S	Successful laparoscopic extirpation of a vasoactive intestinal polypeptide-secreting neuroblastic tumor originating from the right adrenal gland: A report of an infantile case.	Asian Journal of Endoscopic Surgery	14(3)	611-614	2021
Hozaka Y, Sasaki K, Nishikawa T, Onishi S, Noda M, Tsuruda Y, Uchikado Y, Kita Y, Arigami T, Mori S, Maemura K, Ieiri S, Kawano Y, Natsugoe S, Ohtsuka T	Successful treatment of esophageal cicatricial atresia that occurred during the healing process after chemotherapy in a pediatric patient with anaplastic large cell lymphoma through minimally invasive esophagectomy	A case report. Surgical Case Reports	7(1)	41	2021

研究成果の刊行に関する一覧表

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
Harumatsu T, Kaji T, Nagano A, Matsui M, Murakami M, Sugita T, Matsukubo M, Ieiri 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.	Surgical Case Reports	7(1)	11	2021
Murakami M, Kaji T, Nagano A, Matsui M, Onishi S, Yamada K, Ieiri S	Complete laparoscopic choledochal cyst excision and hepaticojejunostomy with laparoscopic Roux-Y reconstruction using a 5-mm stapler: A case of a 2-month-old infant.	Asian Journal of Endoscopic Surgery		in press	2021
Ieiri S, Ikoma S, Harumatsu T, Onishi S, Murakami M, Muto M, Kaji T	Trans-perineal transection through "Neo-Anus" for recto-bulbar urethral fistula using a 5-mm stapler in laparoscopically assisted anorectoplasty - A novel and secure technique.	Asian Journal of Endoscopic Surgery	4(4)	828-830	2021
Ieiri S, Hino Y, Irie K, Taguchi T	Single incision laparoscopic repair for late onset congenital diaphragmatic hernia using oval-shaped multichannel port device (E•Z ACCESS Oval type) - 2 months infantile case of Bochdalek Hernia.	Asian Journal of Endoscopic Surgery		in press	2021
Ieiri S, Kai H, Hirose R	Thoracoscopic intraoperative esophageal close technique for long gap esophageal atresia.	Asian Journal of Endoscopic Surgery		in press	2021
Ieiri S, Nagata K	Laparoscopic transposition for crossing vessels (vascular hitch) in pure extrinsic pelvic-ureteric junction obstruction: A successful case report of a two-year-old infant with horseshoe kidney.	Surgical Case Reports	7(1)	103	2021

研究成果の刊行に関する一覧表

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
Nagano A, Onishi S, Kedoin C, Matsui M, Murakami M, Sugita K, Yano K, Harumatsu T, Yamada K, Yamada W, Matsukubo M, Muto M, Kaji T, Ieiri S	A rare case of accessory liver lobe torsion in a pediatric patient who showed recurrent epigastralgia and who was treated by elective laparoscopic resection.	Surgical Case Reports	7(1)	143	2021
Baba T, Kedoin C, Yano K, Yamada K, Yamada W, Matsukubo M, Muto M, Kaji T, Ieiri S	Feasible laparoscopic retroperitoneal splenopexy and gastropexy using a needle grasper for wandering spleen with gastric volvulus: A case report of a three-year-old boy.	Journal of Laparoendoscopic & Advanced Surgical Techniques & Part B: Videoscopy	31(5)	in press	2021
Baba T, Kawano T, Saito Y, Onishi S, Yamada K, Yamada W, Masuya R, Nakame K, Kawasaki Y, Iino S, Sakoda M, Kirishima M, Kaji T, Tanimoto A, Natsugoe S, Ohtsuka T, Moritake H, Ieiri S	A malignant perivascular epithelioid cell neoplasm in liver: A report of a pediatric case.	Surgical Case Reports	7(1)	212	2021
Harumatsu T, Komori K, Ieiri S, Hirobe S	Preoperatively detected fallopian tube torsion using MRI: A case report.	Pediatrics International	63(10)	1258-1260	2021
Masuya R, Miyoshi K, Nakame K, Nanashima A, Ieiri S	Laparoscopic repositioning of an aberrant right hepatic artery and hepaticojejunostomy for pediatric choledochal cyst: A case report.	International Journal of Surgery Case Reports		in press	2021
Onishi S, Kedoi C, Murakami M, Higa N, Yoshida A, Onitsuka K, Moriyama T, Yoshimoto K, Ieiri S	Image-guided confirmation of a precision pull-through procedure during laparoscopically assisted anorectoplasty in an open MRI operating theater: First application in an infantile case with anorectal malformation.	Surgical Case Reports	7(1)	211	2011
Yamada W, Kaji T, Harumatsu T, Matsui M, Ieiri S	Recurrent intussusceptions due to small intestinal adenomyoma: A case report.	Pediatrics International	63	in press	2021
Ikoma S, Yano K, Harumatsu T, Muto M, Ieiri S	Left paraduodenal hernia with intestinal volvulus mimicking midgut volvulus.	Pediatrics International	63	in press	2021

研究成果の刊行に関する一覧表

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
Harumatsu T, Baba T, Sunagawa H, Ieiri S	A rare case of acute appendicitis coincident with Enterobius vermicularis.	Pediatrics International	63	in press	2021
Muto M, Onishi S, Murakami M, Kedoin C, Yano K, Harumatsu T, Yamada K, Yamada W, Kaji T, Ieiri S	Useful traction technique for laparoscopic fundoplication without removing proceeding gastrostomy in a neurologically impaired patient with a body deformity,	Asian Journal of Endoscopic Surgery		in press	2022
Ieiri S, Koga Y, Onishi S, Murakami M, Yano K, Harumatsu T, Yamada K, Muto M, Hayashida M, Kaji T	An ambidextrous needle driving and knot tying helps perform secure hepaticojejunostomy of choledochal cyst.	Journal of Hepato-Biliary-Pancreatic Sciences		in press	2021
Onishi S, Yamada K, Murakami M, Kedoin C, Muto M, Ieiri S	Coinjection of bile and indocyanine green for detecting pancreaticobiliary maljunction of choledochal cyst.	European Journal of Pediatric Surgery Reports		in press	2021
Sugita K, Onishi S, Kedoin C, Matsui M, Murakami M, Yano K, Harumatsu T, Yamada K, Yamada W, Matsukubo M, Muto M, Kaji T, Ieiri S	A safe and effective laparoscopic Ladd's procedure technique involving the confirmation of mesenteric vascular perfusion by fluorescence imaging using indocyanine green: A case report of an infant.	Asian Journal of Endoscopic Surgery		in press	2021
矢野 圭輔, 春松 敏夫, 山田 耕嗣, 杉田 光太郎, 町頭 成郎, 大西 峻, 武藤 充, 加治 建, 垣花 泰之, 家入 里志	小児外傷性肝損傷に対する重症度別診断アプローチとフォローアップ方法に関する検討	日本小児救急医学会雑誌	20(3)	418-422	2021
榎屋 隆太, 中目 和彦, 楯 真由美, 黒木 純, 河野 文章, 市原 明子, 池田 拓人, 武野 慎祐, 七島 篤志, 家入 里志	胃穿孔による汎発性腹膜炎を生じた急性胃軸捻転の1例	日本小児外科学会雑誌	57(6)	1002-1007	2021
永井 太一郎, 大西 峻, 連 利博, 武藤 充, 矢野 圭輔, 春松 敏夫, 山田 耕嗣, 山田 和歌, 加治 建, 家入 里志	画像診断と気管支鏡所見が不一致であった声門下嚢胞の1例	日本小児外科学会雑誌	57(6)	976-980	2021

研究成果の刊行に関する一覧表

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
杉田 光士郎, 野口 啓幸, 松久保 眞, 村上 雅一, 町頭 成郎, 家入 里志	逆Y字皮膚切開による臍形成 術(VY皮弁法)の治療成績 ア ンケートによる患者満足度調査	日本小児外科学会 雑誌	57(6)	938-945	2021
菱木 知郎, 家入 里志, 米田 光宏, 小野 滋, 田尻 達郎	各領域から考える外科専門医 制度 小児外科領域から考える 外科専門医制度	日本外科学会雑誌	122(5)	529-531	2021
松久保 眞, 春松 敏夫, 武藤 充, 長野 綾香, 松井 まゆ, 矢野 圭輔, 山田 耕嗣, 山田 和歌, 加治 建, 家入 里志	術前診断が可能であったが腸 管切除を要した小腸間膜裂孔 ヘルニアの1例	日本小児外科学会 雑誌	57(4)	735-741	2021
山田 耕嗣, 祁答院 千寛, 長野 綾香, 松井 まゆ, 村上 雅一, 矢野 圭輔, 杉田 光士郎, 大西 峻, 春松 敏夫, 山田 和歌, 松久保 眞, 武藤 充, 加治 建, 家入 里志	【シミュレーションとナビゲーシ ョン】腹腔鏡手術トレーニングシ ミュレータ	小児外科	53(5)	499-503	2021
大西 峻, 山田 耕嗣, 祁答院 千寛, 松井 まゆ, 長野 綾香, 村上 雅一, 矢野 圭輔, 杉田 光士郎, 春松 敏夫, 山田 和歌, 松久保 眞, 武藤 充, 加治 建, 家入 里志	【シミュレーションとナビゲーシ ョン】3Dプリンターを用いた疾患 型シミュレータ	小児外科	53(5)	494-498	2021
家入 里志, 大西 峻, 祁答院 千寛, 長野 綾香, 松井 まゆ, 村上 雅一, 杉田 光士郎, 矢野 圭輔, 春松 敏夫, 山田 耕嗣, 山田 和歌, 松久保 眞, 武藤 充, 加治 建	【小児外科疾患における公費 負担医療の種類と申請方法】 Hirschsprung病	小児外科	53(3)	303-307	2021
町頭 成郎, 中目 和彦, 村上 雅一, 川野 正人, 矢野 圭輔, 山田 耕嗣, 川野 孝文, 加治 建, 上塘 正人, 茨 聡, 家入 里志	【出生前診断された小児外科 疾患の鑑別と周産期管理】梨 状窩嚢胞	小児外科	53(3)	121-125	2021
家入 里志, 中目 和彦, 長野 綾香, 松井 まゆ, 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, 村上 雅一, 杉田 光士郎	術後機能を考慮した小児呼吸 器外科手術 先天性嚢胞性肺 疾患を中心に	日本小児呼吸器学 会雑誌	31(2)	152-158	2021
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	53(3)	313-317	2021
梅野 淳嗣, 冬野 雄太, 松野 雄一, 岡本 康治, 鳥巢 剛弘	【炎症性腸疾患診療の新たな 展開】非特異性多発性小腸潰 瘍症(CEAS)	臨牀と研究	98	573-578	2021

研究成果の刊行に関する一覧表

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
松本 主之, 梅野 淳嗣	【消化管の非腫瘍性疾患-最新の知見と注目すべき疾患-】 CEAS: 疾患概念、臨床・病理像、確定診断	病理と臨床	39	560-564	2021
梅野 淳嗣, 冬野 雄大, 松野 雄一, 鳥巢 剛弘	【最近注目されている腸の炎症性疾患】非特異性多発性小腸潰瘍症/CEAS	日本大腸肛門病学会雑誌	74	581-587	2021
内田 恵一, 井上 幹大, 小池 勇樹, 松下 航平, 長野 由佳, 問山 裕二, 梅野 淳嗣, 松本 主之, 田口 智章	小児外科疾患における公費負担医療の種類と申請方法 非特異性多発性小腸潰瘍症	小児外科	53	332-336	2021
木下 義晶	【小児外科疾患における公費負担医療の種類と申請方法】 総排泄腔遺残症	小児外科	53(3)	319-322	2021
木下 義晶	【早期発見! 搬送・紹介のタイミングもわかる 新生児の外科疾患10】 鎖肛・総排泄腔異常症(総排泄腔遺残・総排泄腔外反)	with NEO	34(2)	270-273	2021
浅沼 宏, 高橋 遼平, 大家 基嗣	発生学から考えてみよう! 小児の先天疾患 水腎症、総排泄腔外反	小児科診療	84(8)	1097-1104	2021
磯邊 明子, 蔵本 和孝, 友延 尚子, 河村 圭子, 濱田 律雄, 宮崎 順秀, 江頭 活子, 城戸 咲, 加藤 聖子	ARTにより妊娠成立後、帝王切開術で生児を獲得し得た総排泄腔遺残症術後患者の1例	日本女性医学学会雑誌	28(4)	577-580	2021
林下 里美, 濱田 裕子, 宮田 潤子, 藤田 紋佳, 森口 晴美, 伊崎 智子, 加藤 聖子, 田口 智章	総排泄腔遺残症患者の体験 継続的・包括的支援体制の構築に向けて Experience of patients with persistent cloaca - To construct a continuous and comprehensive support system -	看護研究集録	28	84-111	2021
虻川 大樹	慢性下痢	小児科診療	84増刊	260-263	2021
文野 誠久, 田尻 達郎	【小児外科疾患における公費負担医療の種類と申請方法】 仙尾部奇形腫	小児外科	53	286-289	2021
Takahashi Y, Kinoshita Y, Kobayashi T, Arai Y, Ohyama T, Yokota N, Saito K, Sugai Y, Takano S	.Management of refractory chylothorax in the neonatal intensive care unit: A 22-year experience.	Pediatr Int.			2021

研究成果の刊行に関する一覧表

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
Fukahori S, Yagi M, Kawahara H, Masui D, Hashizume N, Taguchi T.	Current status of intractable pediatric gastroesophageal reflux disease in Japan: a nationwide survey	Surg Today		Online ahead of print	2021
上原 秀一郎, 越永 従道, 田口 智章	先天性食道閉鎖症術後の実態に関する全国アンケート調査 厚労科研 田口班班研究より	日小外会誌	57(2)	393	2021
Honda M, Shimata K, Sambommatsu Y, Ibuki S, Isono K, Yamamoto H, Sugawara Y, Sakamoto S, Inomata Y, Hibi T.	Hungry Bone Syndrome After Living Donor Liver Transplant for Biliary Atresia. Exp Clin Transplant		19(4)	386-38	2021
Sambommatsu Y, Shimata K, Ibuki S, Narita Y, Isono K, Honda M, Irie T, Kadohisa M, Kawabata S, Yamamoto H, Sugawara Y, Ikeda O, Inomata Y, Hibi T.	Portal Vein Complications After Adult Living Donor Liver Transplantation: Time of Onset and Deformity Patterns Affect Long-Term Outcomes. Liver Transpl		27(6)	854-865	2021
Kido J, Matsumoto S, Häberle J, Inomata Y, Kasahara M, Sakamoto S, Horikawa R, Tanemura A, Okajima H, Suzuki T, Nakamura K.	Role of liver transplantation in urea cycle disorders: Report from a nationwide study in Japan. J Inher Metab Dis.		44(6)	1311-1322	2021
Kohashi K, Yamamoto H, Yamada Y, Kinoshita I, Oda Y.	Brachyury expression in intracranial SMARCB1-deficient tumors: Important points for distinguishing poorly differentiated chordoma from atypical teratoid/rhabdoid tumor.	Hum Pathol.	112	1-8	2021
Shibui Y, Kohashi K, Tamaki A, Kinoshita I, Yamada Y, Yamamoto H, Taguchi T, Oda Y	The forkhead box M1 (FOXM1) expression and antitumor effect of FOXM1 inhibition in malignant rhabdoid tumor.	J Cancer Res Clin Oncol	147(5)	1499-1518	2021
Sonoda S, Yoshimaru K, Yamaza H, Yuniartha R, Matsuura T, Yamauchi-Tomoda E, Murata S, Nishida K, Oda Y, Ohga S, Tajiri T, Taguchi T, Yamaza T	Biliary atresia-specific deciduous pulp stem cells feature biliary deficiency.	Stem Cell Res Ther.	12(1)	Online	2021

研究成果の刊行に関する一覧表

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
Yoshimaru K, Matsuura T, Yanagi Y, Obata S, Takahashi Y, Kajihara K, Ohmori A, Irie K, Hino Y, Shibui Y, Tamaki A, Kohashi K, Oda Y, Taguchi T.	Reevaluation of concurrent AChE and HE staining for hirschsprung's disease.	Pediatr Int.	63(9)	1095-1102	2021
Ishihara S, Kohashi K, Kuboyama Y, Nakashima Y, Oda Y.	Parosteal osteosarcoma with a manifestation of subperiosteal low-grade central osteosarcoma.	Skeletal Radiol.	50(9)	1903-1907	2021
Yoshimaru K, Taguchi T, Fujiyoshi T, Kono T, Aung NNT, Than MT, Oo YM, Oo T, Kakazu M, Miyazaki K, Shibui Y, Takahashi Y, Kohashi K, Shwe EE, Tsuchihashi K, Endo M, Matsuura T, Oda Y, Aye Aye, Yoshioka H, Yoshioka H	Surgical extirpation of a huge desmoid fibromatosis of the right buttock: Case report of a successful international collaboration.	SN Compr.		1746-1751	2021
家村 綾子, 柳町 昌克, 田崎 彰久, 廣田 由佳, 大西 威一郎, 神谷 尚宏, 津島 文彦, 原田 浩之, 木下 伊寿美, 孝橋 賢一, 小田 義直, 高木 正稔, 明石 巧, 朝蔭 孝宏, 森尾 友宏	出生時から開口障害を認めたデスモイド型線維腫症	日本小児科学会雑誌	125(4)	619-624	2021

令和4年 5月24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3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 (所属部署・職名) 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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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 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3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 (所属部署・職名) 聖路加国際病院 小児総合医療センター・センター長
(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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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 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3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 (所属部署・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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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3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 (所属部署・職名) 鹿児島大学病院周産母子センター・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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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3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 (所属部署・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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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3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 (所属部署・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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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 4年 3月 22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3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 (所属部署・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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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3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 (所属部署・職名) 九州大学病院・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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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 伊藤 公平

次の職員の令和3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 (所属部署・職名) 医学部・教授

(氏名・フリガナ) 黒田 達夫・クロダ 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)
人を対象とする生命科学・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"/>	国立生育医療研究センター	<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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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4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
三重県立総合医療センター

所属研究機関長 職名 理事長

氏名 新保 秀人

次の職員の令和3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 (所属部署・職名) 診療部長兼小児外科部長
(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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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 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3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 (所属部署・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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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: 研究者等個人に対する利益相反が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。研究計画書、説明文書及び情報公開文書に利益相反を記載し、研究結果の公表時に開示すること。)

(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。

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3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 (所属部署・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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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 4年 3月 17日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 国立大学法人新潟大学

所属研究機関長 職名 学長

氏名 牛木 辰男

次の職員の令和3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 (所属部署・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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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 伊藤 公平

次の職員の令和3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 (所属部署・職名) 医学部・准教授
(氏名・フリガナ) 浅沼 宏・アサヌマ 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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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 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3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 (所属部署・職名) 近畿大学奈良病院 ・ 教授
(氏名・フリガナ) 虫明 聡太郎 (ムシアケ 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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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4年3月24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3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 (所属部署・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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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 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3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 (所属部署・職名) 医学部小児科学講座・准教授

(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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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 宮城県立こども病院

所属研究機関長 職名 院長

氏名 呉 繁夫

次の職員の令和3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 (所属部署・職名) 総合診療科・消化器科 ・ 副院長兼科長
- (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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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4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3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 (所属部署・職名) 医学部 小児科学講座・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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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4年2月28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3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 (所属部署・職名) 大学院医学研究科・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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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 4 年 3 月 1 8 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3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 (所属部署・職名) 小児外科 ・ 診療局長
(氏名・フリガナ) 臼井 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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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 熊ノ郷 淳

次の職員の令和3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 難治性疾患等政策研究事業
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 (所属部署・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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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 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3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 (所属部署・職名) 大学院医学系研究科・客員教授

(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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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。

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3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 (所属部署・職名) 九州大学病院・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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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3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 (所属部署・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)
人を対象とする生命科学・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 慶応義塾大学	<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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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3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 (所属部署・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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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 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3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 (所属部署・職名) 医学部外科学講座小児外科部門・准教授
(氏名・フリガナ) 深堀 優・フカホリ スグル

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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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4年4月8日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 日本大学

所属研究機関長 職名 医学部長

氏名 木下 浩作

次の職員の令和3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 (所属部署・職名) 医学部 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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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4年3月30日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 国立大学法人東京大学

所属研究機関長 職名 学長

氏名 藤井 輝夫

次の職員の令和3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(20FC1042)
- 研究者名 (所属部署・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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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 伊藤 公平

次の職員の令和3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 (所属部署・職名) 医学部・客員教授
(氏名・フリガナ) 淵本 康史・フチモト ヤスシ

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)
人を対象とする生命科学・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"/>	国立生育医療研究センター	<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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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 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3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 (所属部署・職名) 医学部 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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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 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3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 (所属部署・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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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

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3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 (所属部署・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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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4年3月15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3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 (所属部署・職名) 病院 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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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 東海大学

所属研究機関長 職 名 学長

氏 名 山田 清志

次の職員の令和3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 (所属部署・職名) 大学院医学研究科・特任教授
(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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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3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 (所属部署・職名) 大学院医学研究院・准教授
(氏名・フリガナ) 吉住 朋晴・ヨシズミ トモハル

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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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3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 (所属部署・職名) 九州大学病院・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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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3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 (所属部署・職名) 病院 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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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3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 (所属部署・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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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 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3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 (所属部署・職名) 医療情報部 兼 臨床研究センター・部長 兼 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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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3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 (所属部署・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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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3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 (所属部署・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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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4年3月15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3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 (所属部署・職名) 病院 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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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3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 (所属部署・職名) 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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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 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3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 (所属部署・職名) 近畿大学奈良病院 ・ 教授
(氏名・フリガナ) 米倉 竹夫 (ヨネクラ 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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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 4年 1月 21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 医学部附属病院長

氏名 土岐 祐一郎

次の職員の令和3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 難治性疾患等政策研究事業

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 (所属部署・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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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3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 (所属部署・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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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 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3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 (所属部署・職名) 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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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 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3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 (所属部署・職名) 成長発達歯学講座 成育小児歯科学分野 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)
人を対象とする生命科学・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"/>	福岡歯科大学	<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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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4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3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 (所属部署・職名) 小児科・教授

(氏名・フリガナ) 清水 俊明・シミズ トシアキ

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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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4年3月15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
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3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 (所属部署・職名) 新生児科・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)
人を対象とする生命科学・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"/>
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"/>
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」、「臨床研究に関する倫理指針」、「ヒトゲノム・遺伝子解析研究に関する倫理指針」、「人を対象とする医学系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。