

研究報告書表紙レイアウト（参考）

厚生労働科学研究費補助金

難治性疾患政策研究事業

難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症および
関連疾患についての調査研究

令和6年度 総括・分担研究報告書

研究代表者 秋田 定伯

令和7（2025）年 5月

目 次

I. 総括研究報告

難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究

秋田定伯 医療法人明和会たまき青空病院 形成外科部長

II. 分担研究報告

- 「血管腫・血管奇形・リンパ管奇形診療ガイドライン改訂版」の普及・啓発
三村秀文 聖マリアンナ医科大学 放射線診断・IVR学 主任教授

- 乳児血管腫のプロプラノロール内服治療期間に関する研究
プロプラノロール有害事象について診療科横断的展望から
力久直昭 おゆみの中央病院 形成外科 部長

- 難治性血管腫・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究
大須賀慶悟 大阪医科大学医学部放射線診断学教室 教授

- 「NDBを用いた難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症および関連疾患についての疫学研究（中間報告）」
田中純子 広島大学 理事・副学長/大学院医系科学研究科 特任教授
研究協力者 秋田智之、杉山文、栗栖あけみ 広島大学大学院医系科学研究科疫学・疾病制御学

- 難治性リンパ管疾患等の診断基準・ガイドライン作成および希少難治性脈管異常（脈管系腫瘍・脈管奇形）疾患レジストリに関する研究
小関道夫 岐阜大学大学院医学系研究科小児病態学 講師

- 難治性血管腫・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究
森本哲 自治医科大学小児科 客員教授

- 小児慢性特定疾病と指定難病の整合性 トランジション
康勝好 埼玉県立小児医療センター 血液腫瘍科 科長

- 難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究
木下義晶 新潟大学医学部 教授

- 診療ガイドラインの改定に関する研究
神人正寿 和歌山県立医科大学 教授

- 難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究
藤野明浩 慶應義塾大学 外科学（小児）教授

- 難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究
杠俊介 信州大学医学部形成再建外科学教室 教授

- 難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究
野村 正 神戸大学医学部附属病院形成外科 准教授

- 難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究
野崎太希 慶應義塾大学医学部放射線科学教室（診断）准教授

- 血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形・リンパ管腫症診療ガイドライン2022の改訂・英文化・普及・啓発
石川耕資 北海道大学大学院医学研究院 形成外科学教室 助教

- 難治性血管腫・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究
診療ガイドライン改訂
長濱 通子 神戸大学医学部附属病院 医員

- 難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症および関連疾患に関する研究
川上善久 福岡市立こども病院 形成外科 科長

- 血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形・リンパ管腫症診療ガイドライン2022の普及・啓発
岩科 裕己 杏林大学医学部附属病院 形成外科・美容外科 任期制助教

- 「難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究（秋田班）」に関する研究
孟 真 横浜市立大学客員教授

III. 研究成果の刊行に関する一覧表

IV. 倫理審査等報告書の写し

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患等政策研究事業）
総括 研究報告書

難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管種）・
リンパ管腫症および関連疾患についての研究

研究代表者 秋田定伯
所属 医療法人明和会 たまき青空病院
職分 形成外科 部長

研究要旨：「血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形診療ガイドライン」“第二次改訂”診療ガイドラインの普及啓発、発信を行った。研究班ホームページに公開し、download可能 <https://issvaa.jp/>としている。ハイパーリンク機能を付加しユーザー・フレンドリーに改訂している。

症例登録（レジストリ=RADDAR-J 準拠及び参加）を初回、1年目、2年目、3年目、4年目、5年目までの経過を追跡し、総数1,259名登録を行っており、順調に推移している。レジストリについては令和5年度途中（2023年11月から）レジストリの利活用の方法として、リアルワールドデータ活用事業実施機関Bとして承認され、2年間をむかえ今後の利活用実践（薬事・新規技術開発、治験リクルート）に向けて推進した。

厚生労働省 匿名医療保険等関連情報データベース（NDB：National Database of Health Insurance Claims and Specific Health Checkups of Japan）より抽出したレセプトデータを用いて、疫学解析を行い、2018年～2023年における患者数など実態解析着手し12疾患名について中間報告している。

指定難病の改訂、新規登録に向けて研究班内での検討改訂内容を元に、各関連医学会からの承認を受け後、厚労省健康・生活衛生難病対策課、委託業者である三菱総研を通じて指定難病5疾患の臨個票改訂をすすめている。

本研究の専門学会である日本血管腫・血管奇形学会をはじめ各関連医学会、学術と論文へ研究班を総括し、2024年第20回日本血管腫・血管奇形学会では患者会参加シンポジウム開催し、用語に関する検討委員会に設置が決まり、本研究会で継続審議する事となった。第1回オンライン会議を2025年3月20日開始し次年度以降継続する事とした。2025年3月2日 市民公開講座を開催し、市民・患者さん向けに改訂ガイドラインの概要解説、診断・治療に向けた遺伝子研究の紹介、薬物療法の現状と今後について解説し、会終了後には研究代表者へ受診問い合わせ、研究参加意思の表明があった。

A. 研究目的

2022年度末に改訂された「血管腫・血管奇形・リンパ管奇形診療ガイドライン2022」を医学会、関連患者団体、行政担当部署、市民・国民に広く普及啓発することを目的に、市民公開講座の計画と共に、関連各種医学会でのシンポジウム、パネルディスカッション、口演、ポスター発表を行い、討論を通じて内容理解と深化に努める。

総数1,259名（初回482名、1年目294名、2年目204名、3年間149名、4年目101名、5年目29名）（2025年3月28日時点）で5年間以上の継続登録を行ってRADDAR-J（難病プラットフォーム）準拠レジストリのリアルワールドデータ利活用研究開始した。

指定難病の改訂に向けて診断基準、重症度分類の改訂と新規な指定難病の提言を企画し、令和6年度は臨個票記載内容について詳細検討し提言した。

弾性着衣を用いた難治性混合型脈管奇形の治療管理目的にクリッペル・トレノネー・ウェーバー症候群の弾性着衣臨床研究について「静脈奇形を有するクリッペル・トレノネー・ウェーバー症候群に対するオーダーメード弾性ストッキング着用6ヶ月継続療法の有効性と安全性を検証する多施設共同研究について国際学会（スペイン、ISSVA学会）し論文投稿中である。

国民皆保険下にある日本において国民の医療動向を全数に近い割合で評価できる悉皆データである厚生労働省 匿名医療保険等関連情報データベース（NDB：National Database of Health Insurance Claims and Specific Health Checkups of Japan 以下、NDBデータ）を用いて疫学解析を行い、2018年～2023年における12疾患の性・年齢患者数などの実態を明らかにすることを目的とした。

B. 研究方法

研究班及び研究班オンライン会議を通じ、研究

班全体での市民公開講座にて改訂ガイドライン内容検討し、診断基準、重症度分類を確定した。その後改訂内容承認を得るため、該当医学会へ問い合わせた。医学会からの意見検討内容を研究班にて再度検討し、指定難病委員会への提言を厚生労働健康・生活衛生難病対策課、三菱総研(厚生労働省委託業者)へ臨個票詳細について交信している。

RADDAR-J(難病プラットフォーム)準拠の当研究班疾患レジストリを研究代表者、研究分担者施設での疾患登録を行った。

RADDAR-J(難病プラットフォーム)準拠の当研究班疾患レジストリの利活用を目的に、薬事申請に利用出来るレジストリ保有者として、厚生労働省が実施するリアルワールドデータ活用促進事業(実施機関A)に準拠した独立行政法人医薬品医療機器総合機構(PMDA)信頼性保証第一部からの活動に実施機関Bとして昨年度から2年間参加した。

解析対象として、National Data Base(NDB)データ抽出の対象期間を、2018年1月から2023年12月までの6年間とした。抽出条件は、難治性血管腫・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症および関連疾患に関する傷病名コード232件(疑い病名除く)のいずれかを有する患者の医科、DPC、調剤レセプトとした。

複数年継続している「静脈奇形を有するクリッペル・トレノネー・ウェーバー症候群に対するオーダーメード弾性ストッキング着用6ヶ月継続療法の有効性と安全性を検証する多施設共同研究」において臨床研究を4施設において合計20名の患者で実施し国際学会で発表し論文投稿中である。

2022年度完成した改訂診療ガイドライン普及啓発を目的として、当研究班に密接な関連のある日本血管腫・血管奇形学会、その他の医学会にて発表し、第20回日本血管腫血管奇形学会(新潟)では患者会参加シンポジウムを開催し、[用語]について当班で継続審議することとし、2025年3月20日第一回目のオンライン会議を研究班及び関連4団体(各団体2名ずつ)で開始し次年度以降継続審議とした。市民公開講座でガイドライン関連基礎研究及びリアルワールドデータ利活用について公開した。

(倫理面への配慮)

代表研究者の所属変更に伴い、RADDAR-J(レジストリ)研究の変更承認をうけている(京都大学大学院医学研究科・医学部及び医学部附属病院医の倫理委員中央一括審査(G1203-4)修正更新)している。

バイオマーカー研究については、「難治性血管・リンパ管疾患患者の疾患特異的マーカー検索およびシロリムス薬理作用に関する研究」として岐阜大学大学院医学系研究科医学研究等倫理審査委員会にて承認済みである。クリッペル・トレノネー・ウェーバー症候群の弾性着衣臨床研究について「静脈奇形を有するクリッペル・トレノネー・ウェーバー症候群に対するオーダーメード弾性ストッキング着用6ヶ月継続療法の有効性と安全性を検証する多施設共同研究」承認番号5249として倫理審査承認を

信州大学医学部倫理委員会から受けている。

C. 研究結果

新規または改訂指定難病の診断基準、重症度分類について、前年度決定され、臨個票について厚労省健康・生活衛生難病対策課及び三菱総研と詳細検討交信している。

研究班レジストリは登録が1200名を超えており、初回から5年目までの6年を経過した。リアルワールドデータ(RWD)活用促進事業では、厚生労働省において、「令和5年度医薬品等審査迅速化事業費補助金(リアルワールドデータ活用促進事業)」の交付対象とするレジストリ保有者を、実施機関Aとして公募があり、独立行政法人医薬品医療機器総合機構(PMDA)において、2024年11月7日に当研究班レジストリが実施機関Bとして採択され、RWD事業に伴う利活用へ展開し、令和7年度医薬品等審査迅速化事業費補助金(リアルワールドデータ活用促進事業)公募へ応募している。

NDBデータについて厚生労働省からNDBデータの提供いただき12疾患について性・年齢別疫学統計開始している。

静脈奇形を有するクリッペル・トレノネー・ウェーバー症候群に対するオーダーメード弾性ストッキング着用6ヶ月継続療法の有効性と安全性を検証する多施設共同研究は、採寸オーダーメイド弾性ストッキングの長期着用による患肢過成長の抑制と着用の安全性、並びに弾性力が6か月で半減することが明らかになった。研究は終了しjRCT(データ登録先)にも報告しておりスペインでの国際学会(Internatinal Society for the Study of Vascular Anomalies)総会で発表し、論文投稿中である。

市民公開講座はオンラインにて、研究代表者の司会進行のもと、2025年3月2日、①リンパ浮腫・慢性創傷に対する低酸素応答システム活性化薬剤による薬物療法の開発(研究分担 石川耕資 研究分担)②希少難治性脈管異常(脈管系腫瘍、脈管奇形)疾患レジストリRADDAR-J[1]のリアルワールドデータ利活用へ向けての現状と課題(秋田定伯 研究代表)の2演題発表し、20名の参加と患者さんからの参加希望及び受診問合せをいただいた。

D. 考察

前年度までに指定難病は研究の進展と社会情勢の変化に伴い診断基準や重症度分類も改訂を提言し日本医学会分科会所属11学会から承認を受け、厚生労働省、三菱総研(厚生労働省委託)へ報告し本年度は臨個票改訂について交信している。

RADDAR-J準拠レジストリの利活用に向けて、PMDAから承認をうけた実施機関Bとして、2年間を向かえDB管理ツールを基準として本研究班レジストリを対応し、薬事承認などへの展開予定であり、手法開発へ厚労省研究補助金申請へ検討中としている。弾性着衣を用いた混合型脈管奇形の治療管理多施設臨床研究は、スペインでの国際学会での発表の

のち、論文投稿中である。
弾性着衣の薬事承認に向けて関係部署との協議を開始する。

当研究班で取り扱う難病の疫学検証において悉皆性を担保する目的で厚生労働省にNDBの利用を申請し、審査を経て、利用承諾を受け、NDBデータの提供を広く公表し、フィードバックを得る事を目的とし、市民公開講座をオンラインで年度末（2025年3月2日）に開催し、20名の市民（患者）に参加いただき、改訂ガイドライン内容から発展した薬物開発状況及びリアルワールドデータを用いた利活用の実態報告したフィードバックも多く、講座後に研究代表者のもとに受診、難病相談があつた。

E. 結論

本研究班を軸に関連AMED研究と共に実証エビデンスの蓄積と指定難病の診断基準、重症度分類の専門的検討、臨個票改訂を行っている。関連学会との強い連携のもとに、患者市民参画（PPI）を踏めて、診療ガイドラインには「一般向けサマリー」も作成しており、日本血管腫・血管奇形学会では患者団体代表の参加のもとに難病シンポジウムを行っており、2025年3月の市民公開講座（オンライン）にて内容の周知普及を図っている。

F. 健康危険情報

該当なし

G. 研究発表

1. 論文発表

1. Hiske Smart, MR. Gary Sibbald, Laurie Goodman, Elizabeth A. Ayello, PhD, Reneeka Jaimangal, John H. Gregory, Erin Rajhathy, Sadanori, Akita, Afsaneh Alavi, Helen Arputhanathan, Febe Bruwer, Jeremy Caul, Beverley Chan, Belen Dofitas, Jassin Hamed, Catherine Harley, Jolene Heil, Mary Hill, Devon Jahnke, Dale Kalina, Chaitanya Kodange, Bharat Kotru, Laura Lee Kozody, Stephan Landis, Kimberley LeBlanc, Mary McDonald, Tobi Mark, Carlos Martin, Dietrich Mayer, MD, Christine Murphy, Harikrishna Nair, Cesar Orellana, Brian Orstrow, Douglas Queen, Patrick Rainville, Ranjani Somayaji, Michael Stacey, Gulnaz Tariq, Gregory Weir, Catharine Whiteside, Helen Yifter, and Ramesh Zacharias. Wound Bed Preparation 2024: Delphi Consensus of the 1 Diabetic / Other Foot Ulcer Management in Resource-Limited Settings. Advances in Skin & Wound Care, 2024 Apr 1;37(4):180-196.

2. ○野口美帆, 井形堅三, 福井季代子, 藤岡正樹, 石丸英樹, 秋田定伯: 顔面耳介CM-AVMに対して塞栓-硬化療法に耳介形成手術を組み合わせた1例. 形成外科 67: 37-42, 2024 克誠堂出版

○3. Sadanori Akita. Skin necrosis 2024. Springer Nature. (<https://link.springer.com/book/10.1007/978-3-031-60954-1>)

2. 学会発表

診療ガイドライン2022に基づく眼窩内血管腫・血管奇形治療について. 第67回日本形成外科学会総会・学術集会. 神戸. 2024年4月10日 - 12日

透析医療施設における あし病及び下肢創傷の実態、治療、管理について. 第67回日本形成外科学会総会・学術集会. 神戸. 2024年4月10日 - 12日
[脈管奇形に対してシロリムスをどう使う？] 複数施設でシロリムスをどう使うか?. 第20回 日本血管腫血管奇形学会学術集会 第15回血管腫・血管奇形講習会. 新潟. 2024年7月26日 - 27日

[どうなっているその後 “厚生労働省・AMED研究班”] 厚生労働科学研究費補助金 難治性疾患政策研究事業”秋田班” どうなっている その後. 第20回 日本血管腫血管奇形学会学術集会 第15回血管腫・血管奇形講習会. 新潟. 2024年7月26日 - 27日

Akita S. Potential risk management of foot ulcers in hemodialysis and efficacy of dehydrated human amnion/chorion membrane. Plenary lecture, IWII & 6th Wound Conference 2024 (GWC 2024), Kuala Lumpur, Malaysia, October 18, 2024

Akita S. Diabetic foot/ischemic foot ulcers in hemodialysis. Invited lecture, McGowan Institute, Pittsburgh, Philadelphia, USA, October 21, 2024

（患者会参加シンポジウム）特別企画 2 「どうする”用語問題”」難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究. 第20回 日本血管腫血管奇形学会学術集会 第15回血管腫・血管奇形講習会. 新潟. 2024年7月26日 - 27日

3. その他

ヒト羊膜使用組織治癒促進用材料を用いた透析患者、重症下肢・足病患者の管理治療対策.マイメディクスジャパン合同会社主催. 福岡・北九州. 2024年7月21日

希少難治性脈管異常（脈管系腫瘍・脈管奇形）疾患レジストリ. リアルワールドデータ活用促進事業. 医薬品医療機器総合機構. オンライン開催 2024年11月26日

市民公開講座 希少難治性脈管異常（脈管系腫瘍・脈管奇形）疾患レジストリ RADDAR - J[1]のリアルワールドデータ利活用へ向けての現状と課題. 難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究. オンライン開催. 2025年3月2日

日本臨床カンナビノイド学会 春の学術セミナー
2024年3月10日 http://cannabis.kenkyuukai.jp/event/event_detail.asp?id=66543

知的財産権の出願・登録状況
該当なし

2. 実用新案登録
該当なし

3. その他
該当なし

1. 特許取得
該当なし

別添4

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患政策研究事業） 令和6年度 分担研究報告書

難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管種）・ リンパ管腫症および関連疾患についての研究

分担課題 「血管腫・血管奇形・リンパ管奇形診療ガイドライン改訂版」の普及・啓発

研究分担者氏名 三村秀文
所属研究機関名 聖マリアンナ医科大学
職名 放射線診断・IVR 学 主任教授

研究要旨

「血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形・リンパ管腫症診療ガイドライン 2022」が 2022 年度に完成し、その普及・啓発のための同ガイドラインの英文化に際し、前回ガイドラインを取り纏めた経験から助言を行った。

当班での対象疾患の大半は原因不明で、根本的な治療法が確立していない、本領域単独の専門家も少ない。横断的専門家合意の下 小児期、成人の移行期医療を確立し、広く国民に周知し、本分野での学際的発展へ継続させる。

「血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形・リンパ管腫症診療ガイドライン 2022」（第二次改訂）を関連学会の承認のもとに広く国民に普及・啓発すると共に、各学会、団体からのご意見・ご提案を踏まえ疾病及び疾病概念を頒布する。更に研究期間内に第三次改訂を着手する。

A. 研究目的

「血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形・リンパ管腫症診療ガイドライン 2022」の普及・啓発を行う。

B. 研究方法

同ガイドラインの英文化に際し、前回ガイドラインを取り纏めた経験から助言を行った。

C. 研究結果

ガイドラインの英訳に際し、助言を行った。ガイドラインの担当か所は、主に以下の部分であった。

CQ1 「動脈奇形において治療開始時期の目安は何か？」にて病期の低い症例では治療による QOL の低下を考慮して早期の治療介入を検討すべきとされた。

CQ2 「動脈奇形の流入血管に対する近位（中枢側）での結紮術・コイル塞栓術は有効か？」では以前同様に治療において近位結紮/塞栓は推奨されな

いとされた。

今回のガイドライン改訂では動脈奇形に関して特に新しいのは CQ3 「動脈奇形の塞栓術において血管造影による分類は有用か？」である。Cho/Do 分類ではタイプ I と II が治療の成績がよいとの報告もあるが、十分なエビデンスはなく、血管造影による分類は根治率や治療回数の推定に有用かもしれない。分類の統合や互換を行うことは容易でないが、動脈の解剖が複雑であるほど治療が難しいと思われるとの結論になった。

CQ4 「頸骨の動脈奇形の適切な治療は何か？」では頸骨の動脈奇形は乳歯が抜ける段階で出血がおこる事が多く、治療はエタノールによる硬化療法を含めた血管内塞栓術単独ないし、手術療法との併用が推奨され、手術療法に関しては、血管内塞栓術を併用することにより、より侵襲の低い治療で病変をコントロールできると考えられるとされた。

CQ5 「手指の動脈奇形の適切な治療は何か？」では手指の動脈奇形の治療について言及がなされ、塞栓硬化治療では根治は難しく症状緩和を目的にするが合併症に注意すべきであること、また手術では全切除が推奨されるとされた。

D. 考察

「血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形・リンパ管腫症診療ガイドライン 2022」が 2022 年度に完成した。ガイドライン英文化は順調に進行し、研究期間内に完成する予定である。

E. 結論

「血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形・リンパ管腫症診療ガイドライン 2022」が 2022 年度に完成した。同ガイドラインの英文化に際し、前回ガイドラインを取り纏めた経験から助言を行った。

F. 研究発表

1. 論文発表

1) Wada S, Hamaguchi S, Hashimoto K, Nawata S, Matsuoka S, Mimura H. Selective Angiographic Evaluation in Patients with Simple-Type Pulmonary Arteriovenous Malformations Treated with Vascular Plug. *Cardiovasc Intervent Radiol.* 2024 Aug;47(8):1101-1108.

2. 学会発表

なし

G. 知的所有権の出願・取得状況（予定を含む）

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（難治性疾患等政策研究事業）
分担研究報告書

乳児血管腫のプロプラノロール内服治療期間に関する研究
プロプラノロール有害事象について診療科横断的展望から

研究分担者 力久直昭 おゆみの中央病院形成外科部長

研究要旨

序論：乳児血管腫に対するプロプラノロール内服療法の適切な開始時期・中止時期については、議論の余地がある。

方法：医療安全の観点から本治療法の適切な治療期間を検討することを目的に、乳児血管腫以外の小児疾患における本剤の有害事象について、診療科横断的な文献レビューを実施した。

結果：高血圧、心疾患、未熟児網膜症に対して本剤投与が行われ、徐脈、喘鳴、低血糖などの有害事象が10～15%の頻度で発生していた。投与中止、投与量調整、有害事象に対する治療を要し、薬物治療の効果と安全性を最大化する様々な提言がなされていた。

結論：本剤の安全性を確保するため、新生児への早期投与では継続的なバイタルサインの監視と投与量の調整が必要であり、乳児血管腫の退縮期以降に継続投与する症例では服薬方法順守と経口カロリー摂取管理、有害事象対応が重要である。これらの知見は乳児血管腫治療の戦略構築に有益な示唆を提供する。

A. 研究目的

プロプラノロールは1962年にイギリスで開発され、1964年に世界で初めて臨床応用されたβ遮断薬である。成人および小児の不整脈、頻拍、本態性高血圧症に使用されており、循環器疾患専門の内科医や小児科医はその有効性と安全性について一定の評価を持っている。本邦では乳児血管腫（infantile hemangioma：以下IHと略す）のプロプラノロール内服療法（1～3 mg/kg/day）が2016年に保険適用となった。この治療法について、血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形・リンパ管腫症診療ガイドライン2022（第3版）のクリニカルクエスチョン（clinical question：以下CQと略す）19「乳児血管腫に対するプロプラノロール内服療法の望ましい開始・中止時期はいつか？」が設定された。プロプラノロール内服療法は、従来のステロイド療法よりも有害事象（adverse events：以下AEと略す）が少なく、腫瘍の縮小効果も高い傾向にあること、生後6カ月未満で治療を開始すると効果が高く、生後12～15カ月未満の間に治療を終了すると再増大のリスクが低くなる可能性が示された。

IHの治療においては自然な退縮を待つ待機療法（Wait&Seeポリシー）が多く選択される。一方で、未熟児におけるIHの発生頻度が高いことは知られており、病変が機能的または整容的問題を引き起こす場合には、プロプラノロール早期内服療法が考慮されることがある。診療ガイドラインによれば、新生児や生後5週未満の乳児に対する治療の優位性は明らかではなく、早産児に対する治療で

は無呼吸や心拍数の低下による胸骨圧迫を必要とした症例も報告されている。このため、内服導入時には厳重な監視体制が必要とされ、治療の開始時期およびAEへの対策などが重要な検討課題となっている。

前述のような循環器疾患に対するプロプラノロール内服療法から得られた治療経験や研究結果をIHについての診療ガイドラインに取り入れるべきか否かについては、議論の余地がある。そこで、診療ガイドラインの補足検討として、IH以外の小児疾患に対して行われた本剤内服療法のAEを診療科横断的に調査し、望ましい内服療法開始時期および中止時期を医療安全の観点から検討することとした。

B. 研究方法

＜文献検索とスクリーニング＞

検索の結果網羅的な文献検索の結果、91編（PubMed 23編、医中誌68編）の文献が一次スクリーニングの対象となった。一次スクリーニングの結果、26編（PubMed 20編、医中誌6編）の文献が二次スクリーニングの対象となった。二次スクリーニングを行った結果、本論文では、プロプラノロール内服期間について示唆に富む13編（PubMed 13編、医中誌0編）を採用した。

＜観察研究（症例集積）の評価＞

未成年者の乳児血管腫以外の疾患でのプロプラノロール内服の有害事象について情報収集を以下の視点に基づいて行った。

主要解析項目：システムティックレビューによって集められた科学的なデータ

副次的解析項目：システムティックレビューにはじまない知見や洞察

主要解析項目は、治療対象疾患、文献種類、症例数、対象年齢、投与量、投与期間、副作用・有害事象発生率、副作用・有害事象を起こしやすい年齢や時期、文献制限事項とした。副次解析項目は、副作用・有害事象の種類、副作用・有害事象を起こしやすい投与量、副作用・有害事象の回避方法、 β 遮断薬の安全性について有益な知見、安全確保に有益な患者指導、低血糖の発症経過とした。

C. 結果

治療対象疾患、症例数、対象年齢、投与量、投与期間、AE発生率についての情報を含む文献を表1示した。症例数に関して、コントロール群を含めた報告や累積治療年数形式の報告は除外し、治療対象疾患および症例数に関する各文献のデータを統合した結果、循環器疾患は224例（高血圧症9例、うつ血性心不全10例、肥大型心筋症41例、詳細不明132例）、片頭痛は2,217例、未熟児網膜症は225例と集計された。さらに疾患ごとにAE発生率を解析したところ、循環器疾患では13%の症例でAEが認められ、その内訳は徐脈6%、気管支痙攣4%、低血糖1%、夜驚症1%、および食欲不振0.5%であった。未熟児網膜症におけるAE発生率は8.4%であった。片頭痛のAE発生率に関しては数値の記載がなかった。治療対象年齢を明示している文献を統合し、年齢別にAE頻度を解析した結果は以下のとおりである。対象患者を0歳～19歳以下とする文献を統合するとAE発生率は14.0%であり、内訳は低血糖4%、夜驚症4%、徐脈2%、気管支痙攣2%、および食欲不振2%であった。対象患者を0～1歳とする文献を統合するとAE発生率は13%であり、徐脈8%、気管支痙攣5%、低血糖0%であった。在胎32週未満で生後3ヶ月以内とする文献においては、AE発生率は8.4%で、徐脈、低血圧、気管支痙攣、無呼吸などが合わせて8.0%、低血糖は0.4%であった。

レビューによって把握したAE対策を「薬剤選択、投薬方法、投薬量」「AE管理、患者教育（服薬方法順守）」「誤薬対処法」「AE発生状況」に分類し、以下にまとめた。

●薬剤選択、投薬方法、投薬量

プロプラノロールは小児高血圧治療の第一選択薬としては推奨されず、他の薬剤との併用や代替治療薬の使用が推奨されていた。本剤導入時には1mg/kg/day程度の低用量から開始し、徐々に投与量を増加させて適切な血圧を得る、高用量療法（5mg/kg/day以上）はAE発生率が高いため避けるべきであり⁷⁾、AEを回避するために投与量を2mg/kg/day以下とする報告があった。片頭痛におけるAEへの対応では、本剤は他の薬剤に比べて安全性が

やや劣るとしていたものの、対応策に関する具体的な言及はなかった。未熟児網膜症においては、重篤なAEが発生した症例でプロプラノロールの血漿濃度が20ng/mlを超えていたため、重篤なAEを回避するためのカットオフ値を血漿濃度20ng/ml以下としていた。AE発生後に投与量を減らしたうえで投与を続けた症例群もあった。

●AE管理、患者教育（服薬方法順守）

服薬中の自己管理向上を図る具体的な指導法として以下のようないわゆる「AE管理」が示されていた。患児とその保護者に発汗など低血糖症状を説明し、症状の有無を聴取すること、16時間以上の絶食をしないよう患者と保護者に強く説明（警告）すること、絶食後の発汗や震えなどの低血糖症状に注意し、症状があればブドウ糖または糖分を含む液体を摂取するように説明（通知）すること、規則正しい食事パターンが重要であり学校でのおやつとして果物を摂取することを説明（推奨）することなどがある。

●誤薬対処法

プロプラノロールなどの親油性 β 遮断薬は、血中半減期を超えて循環動態や糖代謝に影響を及ぼす可能性があり、内服量にかかわらず低血糖のリスクが存在する。このため誤薬や過剰投与が発生した場合には、内服後12～24時間は自宅または医療機関で低血糖について経過観察を行うべきである。

●AE発生状況

AEの発生状況は多岐にわたる。以下に具体例を示す。医療管理下において本剤導入時には問題がなかったものの、内服継続中にAEが発生した事例が複数報告されている。また、18時間以上の絶食後に発生した事例も確認されている。さらに、咳と発熱が続いた後にAEが発生した例、頬部外傷により摂食不良が続いた後に発生した例、手術室で全身麻酔中に発生した例、および誤薬によって発生した例がある。

D. 考察

プロプラノロールは、IHに加えて他の小児疾患にも使用されている。具体的には、高血圧症やうつ血性心不全などの循環器疾患、肥大型心筋症などの心疾患、片頭痛、未熟児網膜症が挙げられる。本剤の一般的な治療投与量は1～2mg/kg/dayであり、治療に必要な β 遮断作用の程度とAEの有無に基づいて投与量が調整されていた。循環器疾患や心疾患などでは、投与量が2mg/kg/dayを超える症例や複数年にわたる長期投与が必要になる症例がある。このため、薬物治療の安全性と治療効果を最大化する様々な提言がなされている。肥大型心筋症による小児の突然死や未熟児網膜症による失明を回避するために、本剤を積極的に投与した症例群が

あったが、これらの治療は国内未承認の治療法であることに留意が必要である。

レビューしたすべての文献で、本剤の安全上の懸念が指摘されており、AE発生率は10～15%程度であった。AEには、低血糖、低血圧、徐脈、喘鳴、気管支痙攣、無呼吸、不眠、夜驚症、抑うつ、勃起不全などがあった。年齢ごとにAEを解析した結果、年齢区分がやや粗くなってしまったが、新生児から乳児では低血圧や気管支痙攣の頻度が高く、幼児から青年期では低血糖および夜驚症の頻度が増加することが確認された。成人においては、夜間低血糖に伴う症状として、悪い夢を見る・寝汗・うなされる・暴れるなどが観察されており、上記の幼児から青年期に発生する不眠や夜驚症には、夜間低血糖が一因である可能性がある。

循環器疾患などを対象とした先行治療・研究の報告を質的に統合すると、「合併症の健康被害が大きく、その発生率も高い疾患において、循環動態や糖代謝に影響するプロプラノロール内服療法が採用されている。代替治療も含む治療の益と害を慎重に評価し厳格な医療管理下で治療が行われている」とまとめることができる。

IHに対するプロプラノロール内服療法による重篤な低血糖症について、Morimotoらは2016年から3年間に報告のあった28例を分析した。その結果、本邦での本剤治療中の重度低血糖の発生率は5,164名中0.54%と推定された。さらに低血糖の発症年齢と時間の傾向から、夜間絶食した1歳前後の患者が早朝に低血糖および低血糖性痙攣を発症しやすいことが示唆された。この知見は、本レビューの年齢別AE分析において、1歳以下の症例に比べて、19歳以下の症例で低血糖の発症が増加していること、および小児のプロプラノロール誘発性低血糖と経口カロリー摂取不足は直接関連しているとする指摘と矛盾しない。

乳幼児は、成長するにつれて成人に近いブドウ糖代謝およびグリコーゲン貯蔵能力を徐々に獲得し、体重に占める脂肪の割合は出生時から1歳までに約1.5倍に増加することが報告されている。生後数ヵ月間でカロリー保持能力が高まり、日中の十分なカロリー摂取が行われることで、夜間の食事の必要性が減少する。この変化に伴い、乳児は自分で寝つきをコントロールする能力を習得し、夜間中途覚醒後も保護者に頼ることなく再入眠することが可能になる。具体的には、新生児は昼夜を問わずほとんど寝ており、1～3時間ごとに授乳のために起きる。1歳児は夜間に10～12時間眠り、日中に2回昼寝をするようになる。このような乳児期から学童期にかけての睡眠時間には大きな個人差があり、さらに文化や地域によっても異なることが知られている。プロプラノロールが血中半減期を超えて持続する作用をもつことが影響し、グリコーゲン貯蔵能力の発達と生理的・社会的要因による睡眠と覚醒のリズムの大きな変化が、比較的長期間服用した1歳前後のIH患者における早朝の低血糖の原因となっている可能性が考えられる。

F. 健康危険情報
なし

G. 研究発表
日本形成学会学術誌に2025年3月掲載予定
学会発表 なし

H. 知的財産権の出願・登録状況
なし

付表1. 本論研究で得られた安全なプロプラノロール内服療法についての知見

| |
|---|
| 1. プロプラノロールについて |
| プロプラノロールは親油性の非選択的 β 遮断薬である。 |
| 妊娠への投与は原則禁忌であり、授乳中は使用を避けることが望ましい。 |
| 誤薬してしまった場合、小児に対する β 遮断薬の暴露の影響は臨床的にほとんど重要にならないが、救急病院での経過観察が肝要となる。 |
| 投与量を2mg/kg/day以下にすると副作用の発生率が低くなる。 |
| 高容量(5mg/kg/day以上)では副作用が起こりやすい。 |
| 新生児において、重篤な副作用を発症例のプロプラノロール血漿濃度は20ng/mL以上であった。 |
| β 遮断薬は、血漿濃度とはあまり相関せずに血漿半減期から予想される薬物作用の持続時間を超えて作用することがある。 |
| 内服量にかかわらず低血糖のリスクがある。 |
| 治療投与量を超えてしまった誤薬の場合、低血糖発生リスクが上がるのかどうか不明である。 |
| 幼児のプロプラノロール代謝は成人よりも早く、十分な β 遮断作用を得るために投与量を増やす必要がある。 |
| β 遮断薬の効果には人種差があるとされる。 |
| 2. 患者年齢について |
| 在胎32週未満の患児では、プロプラノロール投与(1~2mg/kg/day)で低血圧、徐脈、無呼吸が観察されることがある。 |
| 出生後から生後1年までに体脂肪率は率にして、1.5倍ほど増える。 |
| 乳児から幼児にかけてカロリー保持能力が向上し、夜間中途覚醒が少なくなり夜間の絶食時間が長くなる。 |
| 幼児から学童にかけて活動時間が長くなり、活動範囲が広がるため、食事時間、食事量、就寝時間、睡眠時間を適宜変更する機会が増える。 |
| 治療が長期に渡れば、感染症に罹患して中断するケースも増える。 |
| 3. 疾患について |
| 肥大型心筋症やマルファン症候群の小児患者には、突然死を回避するために長期間・高容量のプロプラノロール投与が試みられている。 |
| 未熟児網膜症による失明を回避するために、在胎37週未満の患児にプロプラノロール投与が試みられている。 |
| 小児高血圧の治療では非選択的 β 遮断薬のプロプラノロールは積極的に選択されず、本剤を含めた多剤の併用や他の治療薬が勧められる。 |
| 乳児血管腫は、生後2週間程度で病変が顕在化し、かつ1歳以降に自然退縮する特徴的な一連の自然歴を持つ。 |
| 4. 低血糖・副作用について |
| 小児のプロプラノロール誘発性低血糖と経口カロリー摂取不足は直接関連している。 |
| プロプラノロール導入時には、患者を入院させ、継続的なバイタルサインの監視を行い、副作用の発生を早期に検知し回避する必要がある。しかしながら、プロプラノロールの導入後に現れる副作用に関しては、このような監視は行いにくく、導入後も患者の定期的な診察と問診、副作用症状に対する鋭敏な観察が重要である。 |
| 乳児血管腫のプロプラノロール内服治療中、夜間絶食した1歳の患者が早朝に低血糖および低血糖性痙攣を発症する可能性が高い。 |
| 低血糖症状のひとつである頻拍は薬剤の β 遮断作用のため顕在化しにくい。 α 作用の発汗(寝汗)が低血糖を疑う初期症状となる。 |
| プロプラノロールの副作用として記載されている夜驚症(眠っている間に叫び声をあげたり、激しい恐怖を感じたり、暴れたりするエピソード)には、夜間低血糖の症例が含まれているかもしれない。 |
| 年単位の長期間投与する症例では、16時間以上の絶食をしないように、患者と保護者 |

に強く説明している。絶食後の発汗や震えなどの低血糖症状に注意し、症状があればブドウ糖または糖分を含む液体を摂取するように説明している。規則正しい食事が重要であり、学校でのおやつとして果物を摂取することを推奨している。

5. 治療方針の決定について

治療法決定のプロセスでは、最良のエビデンスをもとにリスクと効果のバランスを考慮し、患者価値観、医療者の経験を含めて話し合う共同意思決定（Shared Decision Making; SDB）を行うことが、最適な治療戦略を立てることに有効である。

患児およびその保護者に発汗や震えなどの低血糖症状を説明し、疑わしい症状があれば外来診察時に医師に進んで報告するように伝える。

別添4

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患等政策研究事業（難治性疾患政策研究事業））

分担研究報告書

難治性血管腫・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究

分担研究者 大須賀慶悟 大阪医科大学医学部放射線診断学教室 教授

研究要旨：研究班の分担研究者として班会議に出席し、画像診断及び画像下治療(IVR)を専門とする放射線科医の立場から班全体の研究活動に関する審議に参加し、本年度は主に以下の活動を行なった。すなわち、①難病プラットフォームと連携した疾患レジストリ研究（RADDAR-J[1]）における患者リクルート、②静脈奇形に対する硬化療法の保険収載に向けた活動として、エタノラミンオレイン酸（EO）を用いた静脈奇形に対する硬化療法の医師主導治験が完了し、2024年12月にEOが薬事承認された。引き続き本治療の保険収載に向けて関連学会委員と協議中である。③指定難病の疾患概念の啓発として、日本静脈学会及び日本脳血管内学会での講演を行った。

A. 研究目的

研究班の分担研究者として班会議に出席し、画像診断及び画像下治療(IVR)を専門とする放射線科医の立場から、疾患レジストリ（RADDAR-J[1]）への患者リクルート、静脈奇形に対する硬化療法の保険収載に向けた活動、指定難病の疾患概念の関連学会への周知に携わった。

B. 研究方法

①疾患レジストリ（RADDAR-J[1]）

各診断基準に基づき希少難治性脈管異常（脈管系腫瘍・脈管奇形）と診断される患者を対象に、本研究の概要と事務局との説明書・同意書・登録票・調査票等の書類やりとりについて説明を行い、研究への参加の意向の有無を確認した。

②静脈奇形に対する硬化療法の保険収載推進活動

エタノラミンオレイン酸（EO）を用いた静脈奇形に対する硬化療法のAMED関連医師主導治験が完了し、EOの安全性と有効性についてPMDAに薬事申請を行った。

③指定難病の啓発

静脈奇形、リンパ管奇形、動静脈奇形などの脈管奇形について関連学会の教育講演やセミ

ナーにおいて疾患概念や国際分類に関する講演を行い、啓発を図った。

（倫理面への配慮）

各研究においては、「ヘルシンキ宣言」の倫理的精神に基づき、「人を対象とする生命科学・医学系研究に関する倫理指針」や「個人情報に関する法律」に則り、研究実施計画書を遵守して実施した。

C. 研究結果

①疾患レジストリ（RADDAR-J[1]）

中央倫理審査委員会による承認及び施設の研究許可のもと、対象候補の外来患者に対して研究目的・概要・調査の流れなどについて説明を行った。

②静脈奇形に対する硬化療法の保険収載推進活動

2024年12月にEOが薬事承認された。これを受けて、2026年の診療報酬改定に向けて日本形成外科学会、日本IVR学会、日本静脈学会連名で外保連に本手術を要望し、技術評価の適正化のための手術に関する調査を提出した。引き続き、厚労省ヒアリングに向けて医療技術評価提案書を作成中である。

③指定難病の啓発

第44回日本静脈学会総会における教育講演では、「静脈奇形及びリンパ管奇形の疾患概念と国際分類上の位置付け」について、第40回日本脳神経血管内治療学会学術集会における頭頸部血管奇形セミナーでは「脈管異常のISSVA分類と疾患概念」についてそれぞれ講演を行った。

D. 考察

①疾患レジストリ (RADDAR-J[1])

本レジストリによる長期的な患者の臨床情報の集積により、希少難治性脈管異常（脈管系腫瘍・脈管奇形）の自然歴や予後因子を解明できれば、本疾患群における有益な画像診断評価法やIVRなどの治療適応の判断や治療法の開発に寄与することが期待される。

②静脈奇形に対する硬化療法の保険収載推進活動

静脈奇形に対する硬化療法は長年、硬化剤の適応外使用を要し、国内での実施施設がかなり限定されていたが、2026年の診療報酬改訂において手術として保険収載されれば、治療の普及が期待される

③指定難病の啓発

日本静脈学会や日本脳神経血管内治療学会など血管外科手術や血管内治療に関わる医師の集う場での教育講演やセミナーの機会が年々増えており、指定難病に含まれる脈管系疾患の診療科横断的な疾病周知に寄与したと思われる。

E. 結論

難病プラットフォームとの連携による疾患レジストリ (RADDAR-J[1])への患者リクルート、静脈奇形に対する硬化療法の保険収載推進活動、及び関連学会において指定難病の疾患概念の周知・啓発を行った。

F. 研究発表

論文発表

1. Ozaki M, Nomura T, Osuga K, Kurita M, Hayashi A, Yuzuriha S, Aramaki-Hattori N, Hikosaka M, Nozaki T, Ozeki M, Ochi J, Akiyama S, Kakei Y, Miyakoda K, Kashiwagi N, Yasuda T, Iwashina Y, Kaneko T, Kamibeppu K, Soejima T, Harii K. Effect and safety of ethanolamine oleate in sclerotherapy in patients with difficult-to-resect venous malformations: A multicenter, single-arm study. *PLOS One*. 2025;20(1):e0303130
2. Nomura T, Ozaki M, Osuga K, Kurita M, Hayashi A, Yuzuriha S, Aramaki-Hattori N, Hikosaka M, Nozaki T, Ozeki M, Ochi J, Akiyama S, Kakei Y, Miyakoda K, Kashiwagi N, Yasuda T, Iwashina Y, Kaneko T, Terashi H, Harii K. Post-Hoc Analysis of a Multicenter Clinical Trial: Correlation of Coagulation Factor Changes and MRI-Defined Treatment Outcomes After Sclerotherapy for Venous Malformations. *J Clin Med* 2025;14(3):905
3. 大須賀慶悟: 血管奇形: 皮下・軟部組織. IVRマニュアル第3版. 山門亨一郎編. 医学書院, 東京. 2024;182-5

学会発表

1. 大須賀慶悟. 頭頸部血管奇形セミナー. 脈管異常のISSVA分類と疾患概念. 第40回日本脳神経血管内治療学会学術総会 2024年11月22日熊本
2. 大須賀慶悟. 難治性脈管異常の分類・診断と集学的治療. 難治性脈管腫瘍・難治性脈管奇形を考えるオンライン講演会 in 大阪・兵庫 2024年11月7日 Web
3. 大須賀慶悟. 講義1. 国際分類・診断基準. 日本血管腫血管奇形学会第15回血管腫血管奇形講習会 2024年7月26日新潟
4. 大須賀慶悟. 静脈奇形及びリンパ管奇形の疾患概念と国際分類上の位置付け. 第39回飛鳥放射線医学セミナー 2024年7月7日奈良
5. 大須賀慶悟. 教育講演. 静脈奇形及びリンパ管奇形の疾患概念と国際分類上の位置付け. 第44回日本静脈学会総会 2024年6月14日 軽井沢
6. Osuga K. Endovascular treatments for venous malformations (VMs) and arteriovenous malformations (AVMs). Seminar for Interventional Radiology in Asia-Pacific (SIRAP 2024) Oct 11, 2024, Tokyo, Japan

厚生労働科学研究費補助金(難治性疾患政策研究事業)
難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形(リンパ管腫)・リンパ管腫症
および関連疾患についての調査研究
令和6年度 分担研究報告書

「NDB を用いた難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形(リンパ管腫)・リンパ管腫症
および関連疾患についての疫学研究(中間報告)」

研究分担者 田中 純子 広島大学 理事・副学長
/大学院医系科学研究科 特任教授

研究協力者 秋田 智之、杉山 文、栗栖 あけみ
広島大学 大学院医系科学研究科 疫学・疾病制御学

研究要旨

患者数の把握が困難な希少疾患である難治性血管腫・血管奇形のうち、末梢性動脈奇形、クリッペル・トレノナー症候群、クリッペル・トレノナー・ウェーバー症候群・リンパ管腫・リンパ管腫症関連疾患、および、5つの指定難病: 277_リンパ管腫症/ゴーハム病、278_巨大リンパ管奇形(頸部顔面病変)、279_巨大静脈奇形(頸部口腔咽頭びまん性病変)、280_巨大動脈奇形(頸部顔面又は四肢病変)、281_クリッペル・トレノナー・ウェーバー症候群について、厚生労働省 匿名医療保険等関連情報データベース(NDB: National Database of Health Insurance Claims and Specific Health Checkups of Japan)より抽出したレセプトデータを用いて、疫学解析を行い、2018年～2023年における患者数などの実態を明らかにすることを目的とした。

厚生労働省に2023年7月にNDBデータ利用申請を行い、審査を経て、2023年10月に承諾通知(承諾番号1508)を受け、2024年9月にNDBデータの提供を受けた。NDBデータの抽出条件は、2018年～2023年(6年間)に難治性血管腫・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症および関連疾患に関する傷病名コード232件(疑い病名除く)のうち、いずれかを有する患者の医科、DPC、調剤レセプトとした。

提供を受けたNDBデータの総データ件数は約7.6億件、総レセプト件数は、約2,745万件、実患者数は、約221万人(被保険者番号をベースとしたID1換算)であった。NDBデータより解析用のデータベースを作成し、次の1)～12)の分類に関する対象傷病名コードを有する2018年から2023年の患者数を算出した。

算出した患者数のうち、2023年の患者数は次のとおりである。

| | |
|------------------------------------|-------------|
| 1) 血管腫・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症関連疾患 | : 282,574 人 |
| 2) 血管腫・血管奇形関連疾患 | : 268,975 人 |
| 3) リンパ管腫・リンパ管腫症関連疾患 | : 14,563 人 |
| 4) ICD10:D69.4(その他の原発性血小板減少症) | : 12,709 人 |
| 5) カサバッハ・メリット症候群 | : 300 人 |
| 6) 指定難病 227_オスラー病 | : 2,841 人 |
| 7) 青色ゴムまり様母斑症候群 | : 119 人 |
| 8) 指定難病 277_リンパ管腫症/ゴーハム病 | : 651 人 |
| 9) 指定難病 278_巨大リンパ管奇形(頸部顔面病変)病 | : 134 人 |
| 10) 指定難病 279_巨大静脈奇形(頸部口腔咽頭びまん性病変)病 | : 74 人 |
| 11) 指定難病 280_巨大動脈奇形(頸部顔面又は四肢病変)病 | : 404 人 |
| 12) 指定難病 281_クリッペル・トレノナー・ウェーバー症候群 | : 1,461 人 |

今年度の研究では、対象傷病名コードの有無に基づいて患者数を算出した。NDBデータには、検査結果や診察所見といった臨床情報が含まれていないため、診断基準に準拠した厳密な患者判別はできない。しかし、治療内容や医療費情報(公費助成の有無)などを組み合わせて判別することで、抽出精度を高めることが可能である。来年度は、地域別患者数、治療の有無(再建切除術、硬化療法、塞栓術など)、併存疾患の有無、医療費情報(公費助成の有無)などの集計を行う予定である。これらの情報を併せて活用することで、より精度を上げた患者数の見直しを行う。

A. 研究目的

患者数の把握が困難な希少疾患である難治性血管腫・血管奇形のうち、末梢性動静脉奇形、クリッペル・トレノネー症候群、クリッペル・トレノネー・ウェーバー症候群・リンパ管腫・リンパ管腫症関連疾患、および、5つの指定難病:277_リンパ管腫症/ゴーハム病、278_巨大リンパ管奇形(頸部顔面病変)、279_巨大静脈奇形(頸部口腔咽頭びまん性病変)、280_巨大動静脉奇形(頸部顔面又は四肢病変)、281_クリッペル・トレノネー・ウェーバー症候群について、国民皆保険下にある日本において国民の医療動向を全数に近い割合で評価できる悉皆データである厚生労働省 匿名医療保険等関連情報データベース (NDB : National Database of Health Insurance Claims and Specific Health Checkups of Japan 以下、NDB データ)を用いて疫学解析を行い、2018 年～2023 年における患者数などの実態を明らかにすることを目的とした。

B. 研究方法

1. NDBデータの申請

厚生労働省に 2023 年 7 月 5 日付けで、NDB データ利用申請を行い、2023 年度の第 2 回(9 月)審査後、2023 年 10 月 13 日付けで承諾通知を受けた。(承諾番号 1508)その後、提供依頼を提出し、2024 年 9 月 10 日に厚生労働省から NDB データの提供を受けた。(申請からデータ受領まで 433 日)

2. 解析対象

NDB データ抽出の対象期間は、2018 年 1 月から 2023 年 12 月までの 6 年間とした。(調剤レセプトのみ翌月処方を考慮して 2024 年 1 月までとした。)抽出条件は、難治性血管腫・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症および関連疾患に関する傷病名コード 232 件(疑い病名除く、表 1)のいずれかを有する患者の医科、DPC、調剤レセプトとした。

提供を受けた NDB データの総データ件数(表 2)は約 7.6 億件、総レセプト件数(表 3)は、約 2,745 万件、実患者数(被保険者番号をベースとした ID1 換算、表 4)は、約 221 万人であった。

表 1 NDB 抽出条件:難治性血管腫・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症および関連疾患に関する傷病名コード 232 件

| 通番 | ICD10細分類/ICD10細分類名 | 傷病名コード/傷病名 |
|----|--------------------|-------------------|
| 1 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8837850 つる状血管腫 |
| 2 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846707 上口唇血管腫 |
| 3 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8851264 上唇血管腫 |
| 4 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846701 上眼瞼血管腫 |
| 5 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280039 上腕血管腫 |
| 6 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846496 下口唇血管腫 |
| 7 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8851205 下唇血管腫 |
| 8 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846481 下咽頭血管腫 |
| 9 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846506 下腿血管腫 |
| 10 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280056 中指血管腫 |
| 11 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8849819 乳幼児肝巨大血管腫 |
| 12 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846888 乳腺血管腫 |
| 13 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846792 体幹血管腫 |
| 14 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280093 前胸部血管腫 |
| 15 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846756 前腕血管腫 |
| 16 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2112009 十二指腸血管腫 |
| 17 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280030 口唇血管腫 |
| 18 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280011 咽頭血管腫 |
| 19 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846594 喉頭血管腫 |
| 20 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846537 外陰部血管腫 |
| 21 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846800 多発性海綿状血管腫 |
| 22 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846844 大腸血管腫 |
| 23 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846834 大腿血管腫 |
| 24 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846650 小指血管腫 |
| 25 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280105 幼児性血管腫 |

| 通番 | ICD10細分類/ICD10細分類名 | 傷病名コード/傷病名 |
|----|--------------------|------------------|
| 26 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8851158 乳児血管腫 |
| 27 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846623 手掌血管腫 |
| 28 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846627 手背血管腫 |
| 29 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280037 手部血管腫 |
| 30 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280057 殿部血管腫 |
| 31 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846960 母指血管腫 |
| 32 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280088 毛細血管性血管腫 |
| 33 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280017 海綿状血管腫 |
| 34 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846986 涙のう部血管腫 |
| 35 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846530 環指血管腫 |
| 36 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846591 甲状腺血管腫 |
| 37 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280020 眼底血管腫 |
| 38 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280021 眼瞼血管腫 |
| 39 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2241004 眼窩内血管腫 |
| 40 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846682 示指血管腫 |
| 41 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280095 筋肉内血管腫 |
| 42 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280024 結膜血管腫 |
| 43 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280076 網膜血管腫 |
| 44 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846668 耳下腺血管腫 |
| 45 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8831487 肝海綿状血管腫 |
| 46 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846516 肝硬化性血管腫 |
| 47 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280084 肝血管腫 |
| 48 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846585 肩部血管腫 |
| 49 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2123009 肺血管腫 |
| 50 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280010 胃血管腫 |
| 51 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280063 背部血管腫 |
| 52 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8851057 胸部乳児血管腫 |
| 53 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846974 脈絡膜血管腫 |
| 54 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846733 脊椎血管腫 |
| 55 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280043 脊髓血管腫 |
| 56 | D180 血管腫, 全ての部位 | 1919031 脳血管腫 |
| 57 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846903 脾血管腫 |
| 58 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280078 腋窩血管腫 |
| 59 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846722 腎血管腫 |
| 60 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846980 腰部血管腫 |
| 61 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846931 腹部血管腫 |
| 62 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846944 膀胱血管腫 |
| 63 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846724 脇血管腫 |
| 64 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280049 舌海綿状血管腫 |
| 65 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280050 舌血管腫 |
| 66 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280025 血管腫 |
| 67 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846769 足底血管腫 |
| 68 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846780 足部血管腫 |
| 69 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846469 陰のう血管腫 |
| 70 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280012 陰茎海綿状血管腫 |
| 71 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280110 静脈性血管腫 |
| 72 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280031 頸部血管腫 |
| 73 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280081 頸部血管腫 |

| 通番 | ICD10細分類/ICD10細分類名 | | 傷病名コード/傷病名 |
|-----|--------------------|---------------------------------------|-----------------------|
| 74 | D180 | 血管腫, 全ての部位 | 8847087 頬粘膜血管腫 |
| 75 | D180 | 血管腫, 全ての部位 | 2280074 頬部血管腫 |
| 76 | D180 | 血管腫, 全ての部位 | 8835824 頭蓋内血管腫 |
| 77 | D180 | 血管腫, 全ての部位 | 2130011 頭蓋骨血管腫 |
| 78 | D180 | 血管腫, 全ての部位 | 2280059 頭部血管腫 |
| 79 | D180 | 血管腫, 全ての部位 | 8851053 顔面乳児血管腫 |
| 80 | D180 | 血管腫, 全ての部位 | 2280022 顔面血管腫 |
| 81 | D180 | 血管腫, 全ての部位 | 8842750 食道血管腫 |
| 82 | D180 | 血管腫, 全ての部位 | 8846895 肺硬化性血管腫 |
| 83 | D181 | リンパ管腫, 全ての部位 | 8838767 のう胞性リンパ管腫 |
| 84 | D181 | リンパ管腫, 全ての部位 | 2281002 リンパ管腫 |
| 85 | D181 | リンパ管腫, 全ての部位 | 8836497 前胸部リンパ管腫 |
| 86 | D181 | リンパ管腫, 全ての部位 | 2112010 十二指腸リンパ管腫 |
| 87 | D181 | リンパ管腫, 全ての部位 | 8837360 大腿リンパ管腫 |
| 88 | D181 | リンパ管腫, 全ての部位 | 8850974 海綿状リンパ管腫 |
| 89 | D181 | リンパ管腫, 全ての部位 | 8842331 肘関節部のう胞性リンパ管腫 |
| 90 | D181 | リンパ管腫, 全ての部位 | 8839274 肘関節部リンパ管腫 |
| 91 | D181 | リンパ管腫, 全ての部位 | 8838893 背部リンパ管腫 |
| 92 | D181 | リンパ管腫, 全ての部位 | 8830854 腋窩リンパ管腫 |
| 93 | D181 | リンパ管腫, 全ての部位 | 8839654 腹腔内リンパ管腫 |
| 94 | D181 | リンパ管腫, 全ての部位 | 8842498 膝窩部のう胞性リンパ管腫 |
| 95 | D181 | リンパ管腫, 全ての部位 | 8833094 血管リンパ管腫 |
| 96 | D181 | リンパ管腫, 全ての部位 | 8842330 足関節部のう胞性リンパ管腫 |
| 97 | D181 | リンパ管腫, 全ての部位 | 8842332 頸部のう胞性リンパ管腫 |
| 98 | D181 | リンパ管腫, 全ての部位 | 8850981 頸部リンパ管腫 |
| 99 | D181 | リンパ管腫, 全ての部位 | 8844230 食道リンパ管腫 |
| 100 | T983 | 外科的及び内科的ケアの合併症の続発・後遺症, 他に分類されないもの | 8838894 背部リンパ管腫摘出後遺症 |
| 101 | C439 | 皮膚の悪性黒色腫, 部位不明 | 8846467 異形成母斑症候群 |
| 102 | D235 | 皮膚のその他の良性新生物＜腫瘍＞／体幹の皮膚 | 8846971 母斑様限局性体幹被角血管腫 |
| 103 | D239 | 皮膚のその他の良性新生物＜腫瘍＞／皮膚, 部位不明 | 8844827 平滑筋母斑 |
| 104 | D239 | 皮膚のその他の良性新生物＜腫瘍＞／皮膚, 部位不明 | 8844797 軟骨母斑 |
| 105 | D239 | 皮膚のその他の良性新生物＜腫瘍＞／皮膚, 部位不明 | 2168002 硬化性血管腫 |
| 106 | D294 | 男性生殖器の良性新生物＜腫瘍＞／陰のう＜嚢＞ | 8830702 陰のう被角血管腫 |
| 107 | D310 | 眼及び付属器の良性新生物＜腫瘍＞／結膜 | 8833195 結膜母斑 |
| 108 | D313 | 眼及び付属器の良性新生物＜腫瘍＞／脈絡膜 | 8840456 脉絡膜母斑 |
| 109 | D314 | 眼及び付属器の良性新生物＜腫瘍＞／毛様体 | 8832648 強膜母斑 |
| 110 | D369 | その他の部位及び部位不明の良性新生物＜腫瘍＞／部位不明の良性新生物＜腫瘍＞ | 8846973 ミベリ被角血管腫 |
| 111 | D369 | その他の部位及び部位不明の良性新生物＜腫瘍＞／部位不明の良性新生物＜腫瘍＞ | 8846806 単発性被角血管腫 |
| 112 | D369 | その他の部位及び部位不明の良性新生物＜腫瘍＞／部位不明の良性新生物＜腫瘍＞ | 8839178 被角血管腫 |
| 113 | D485 | その他及び部位不明の性状不詳又は不明の新生物＜腫瘍＞／皮膚 | 8839904 分離母斑 |
| 114 | D485 | その他及び部位不明の性状不詳又は不明の新生物＜腫瘍＞／皮膚 | 8844702 巨大母斑細胞母斑 |
| 115 | D485 | その他及び部位不明の性状不詳又は不明の新生物＜腫瘍＞／皮膚 | 8847875 獣皮様母斑 |
| 116 | D485 | その他及び部位不明の性状不詳又は不明の新生物＜腫瘍＞／皮膚 | 8844816 表在性皮膚脂肪腫性母斑 |

| 通番 | ICD10細分類/ICD10細分類名 | | 傷病名コード/傷病名 |
|-----|--|---------|----------------------|
| 117 | D694 その他の原発性血小板減少症 | 2280083 | カサバッハ・メリット症候群 |
| 118 | D694 その他の原発性血小板減少症 | 8849842 | メイ・ヘグリン異常症 |
| 119 | D694 その他の原発性血小板減少症 | 8849803 | 先天性無巨核球性血小板減少症 |
| 120 | D694 その他の原発性血小板減少症 | 8833302 | 原発性血小板減少症 |
| 121 | D694 その他の原発性血小板減少症 | 2873007 | 血小板減少性紫斑病 |
| 122 | D694 その他の原発性血小板減少症 | 8830570 | 遺伝性血小板減少症 |
| 123 | D694 その他の原発性血小板減少症 | 8833812 | 骨髓低形成血小板減少症 |
| 124 | E752 その他のスフィンゴリピドーシス | 8846211 | びまん性体幹被角血管腫 |
| 125 | H353 黄斑及び後極の変性 | 8847585 | 網膜血管腫状増殖 |
| 126 | I270 原発性肺高血圧(症) | 8846206 | 肺毛細血管腫症 |
| 127 | I608 その他のくも膜下出血 | 8847895 | 脳動静脈奇形破裂 |
| 128 | I608 その他のくも膜下出血 | 8847896 | 脳動静脈奇形破裂によるくも膜下出血 |
| 129 | I619 脳内出血、詳細不明 | 8847897 | 脳動静脈奇形破裂による脳出血 |
| 130 | I780 遺伝性出血性毛細血管拡張症 | 8848472 | オスラー病 |
| 131 | I781 母斑、非新生物性 | 8839262 | 非新生物性母斑 |
| 132 | I781 母斑、非新生物性 | 8832807 | くも状血管腫 |
| 133 | I781 母斑、非新生物性 | 8846797 | 体幹老人性血管腫 |
| 134 | I781 母斑、非新生物性 | 4481005 | 老人性血管腫 |
| 135 | K764 肝臓紫斑病 | 8846801 | 多発性肝血管腫 |
| 136 | L817 色素性紫斑性皮膚症 | 8837427 | 蛇行状血管腫 |
| 137 | M895 骨溶解(症) | 8848683 | リンパ管腫症 |
| 138 | M895 骨溶解(症) | 8850987 | ゴーハム病 |
| 139 | O028 受胎のその他の明示された異常生成物 | 2198001 | 絨毛血管腫 |
| 140 | O998 妊娠、分娩及び産じょくく腫に合併するその他の明示された疾患及び病態 | 8848650 | 脳海綿状血管腫合併妊娠 |
| 141 | Q249 心臓の先天奇形、詳細不明 | 7469008 | 心臓血管奇形 |
| 142 | Q268 大型静脈のその他の先天奇形 | 7476023 | ガレン静脈奇形 |
| 143 | Q273 末梢性動静脈奇形 | 8849740 | 巨大動静脈奇形 |
| 144 | Q273 末梢性動静脈奇形 | 8848492 | 巨大動静脈奇形(四肢病変) |
| 145 | Q273 末梢性動静脈奇形 | 8848491 | 巨大動静脈奇形(頸部顔面病変) |
| 146 | Q273 末梢性動静脈奇形 | 8840261 | 末梢性動静脈奇形 |
| 147 | Q273 末梢性動静脈奇形 | 7476004 | 脊髄動静脈奇形 |
| 148 | Q273 末梢性動静脈奇形 | 8848363 | 脊髄髓内動静脈奇形 |
| 149 | Q273 末梢性動静脈奇形 | 7476005 | 腸動静脈奇形 |
| 150 | Q273 末梢性動静脈奇形 | 7479004 | 先天性動静脈瘻 |
| 151 | Q278 末梢血管系のその他の明示された先天奇形 | 8849739 | 巨大静脈奇形 |
| 152 | Q278 末梢血管系のその他の明示された先天奇形 | 8848490 | 巨大静脈奇形(頸部口腔咽頭びまん性病変) |
| 153 | Q278 末梢血管系のその他の明示された先天奇形 | 8836247 | 先天性静脈瘤 |
| 154 | Q279 末梢血管系の先天奇形、詳細不明 | 8830057 | AVM |
| 155 | Q279 末梢血管系の先天奇形、詳細不明 | 8840253 | 末梢血管奇形 |
| 156 | Q281 脳実質外血管のその他の奇形 | 8846100 | 海綿静脈洞部海綿状血管腫 |
| 157 | Q281 脳実質外血管のその他の奇形 | 2280109 | 脊髄海綿状血管腫 |
| 158 | Q282 脳血管の動静脈奇形 | 7478022 | 硬膜脳動静脈奇形 |
| 159 | Q282 脳血管の動静脈奇形 | 7478017 | 脳動静脈奇形 |
| 160 | Q283 脳血管のその他の奇形 | 8846232 | モンロー孔海綿状血管腫 |
| 161 | Q283 脳血管のその他の奇形 | 8846184 | 側脳室海綿状血管腫 |
| 162 | Q283 脳血管のその他の奇形 | 8846182 | 側頭葉海綿状血管腫 |
| 163 | Q283 脳血管のその他の奇形 | 8846773 | 側頭葉血管腫 |
| 164 | Q283 脳血管のその他の奇形 | 8846183 | 側頭葉静脈性血管腫 |

| 通番 | ICD10細分類/ICD10細分類名 | | 傷病名コード/傷病名 |
|-----|-----------------------------------|---------|------------------|
| 165 | Q283 脳血管のその他の奇形 | 8846180 | 前頭葉海綿状血管腫 |
| 166 | Q283 脳血管のその他の奇形 | 8846751 | 前頭葉血管腫 |
| 167 | Q283 脳血管のその他の奇形 | 8846181 | 前頭葉静脈性血管腫 |
| 168 | Q283 脳血管のその他の奇形 | 8846108 | 基底核部海綿状血管腫 |
| 169 | Q283 脳血管のその他の奇形 | 8846109 | 基底核部静脈性血管腫 |
| 170 | Q283 脳血管のその他の奇形 | 8846146 | 小脳橋角部海綿状血管腫 |
| 171 | Q283 脳血管のその他の奇形 | 8846145 | 小脳海綿状血管腫 |
| 172 | Q283 脳血管のその他の奇形 | 8846658 | 小脳血管腫 |
| 173 | Q283 脳血管のその他の奇形 | 8846147 | 小脳静脈性血管腫 |
| 174 | Q283 脳血管のその他の奇形 | 8846126 | 後頭葉海綿状血管腫 |
| 175 | Q283 脳血管のその他の奇形 | 8846595 | 後頭葉血管腫 |
| 176 | Q283 脳血管のその他の奇形 | 8846127 | 後頭葉静脈性血管腫 |
| 177 | Q283 脳血管のその他の奇形 | 8846186 | 第三脳室壁海綿状血管腫 |
| 178 | Q283 脳血管のその他の奇形 | 8846204 | 脳室海綿状血管腫 |
| 179 | Q283 脳血管のその他の奇形 | 8846205 | 脳室静脈性血管腫 |
| 180 | Q283 脳血管のその他の奇形 | 8846203 | 脳幹部海綿状血管腫 |
| 181 | Q283 脳血管のその他の奇形 | 8846894 | 脳幹部血管腫 |
| 182 | Q283 脳血管のその他の奇形 | 8850078 | 脳海綿状血管腫 |
| 183 | Q283 脳血管のその他の奇形 | 8846190 | 頭頂葉海綿状血管腫 |
| 184 | Q283 脳血管のその他の奇形 | 8846879 | 頭頂葉血管腫 |
| 185 | Q283 脳血管のその他の奇形 | 8846191 | 頭頂葉静脈性血管腫 |
| 186 | Q283 脳血管のその他の奇形 | 7478014 | 脳静脈奇形 |
| 187 | Q288 循環器系のその他の明示された先天奇形 | 8850079 | 脳脊髄海綿状血管腫 |
| 188 | Q288 循環器系のその他の明示された先天奇形 | 8848493 | 巨大リンパ管奇形(頸部顔面病変) |
| 189 | Q386 口(腔)のその他の先天奇形 | 7502013 | 白色海綿様母斑 |
| 190 | Q784 内軟骨腫症 | 8840280 | マフッチ症候群 |
| 191 | Q796 エーラス・ダンロス<Ehlers- Danlos>症候群 | 8848504 | 血管型エーラス・ダンロス症候群 |
| 192 | Q820 遺伝性リンパ浮腫 | 8849744 | 原発性リンパ浮腫 |
| 193 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8830808 | ウンナ母斑 |
| 194 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846795 | 体幹表皮母斑 |
| 195 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 2169067 | 列序性母斑 |
| 196 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846731 | 正中部母斑 |
| 197 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 2169012 | 結合組織母斑 |
| 198 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 7573013 | 血管性母斑 |
| 199 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 2169083 | 表皮母斑 |
| 200 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 2169032 | 軟性母斑 |
| 201 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846579 | 頸部表皮母斑 |
| 202 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846550 | 顔面表皮母斑 |
| 203 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8830498 | いちご状血管腫 |
| 204 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846713 | 上肢単純性血管腫 |
| 205 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846718 | 上腕部単純性血管腫 |
| 206 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846502 | 下肢単純性血管腫 |
| 207 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846510 | 下腿部単純性血管腫 |
| 208 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846759 | 前腕部単純性血管腫 |
| 209 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 2280055 | 単純性血管腫 |
| 210 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846841 | 大腿部単純性血管腫 |
| 211 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846634 | 手部単純性血管腫 |
| 212 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846897 | 背部単純性血管腫 |

| 通番 | ICD10細分類/ICD10細分類名 | | | 傷病名コード/傷病名 | |
|-----|--------------------|------------------------------|---------|----------------------|--|
| 213 | Q825 | 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846559 | 胸部いちご状血管腫 | |
| 214 | Q825 | 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846562 | 胸部単純性血管腫 | |
| 215 | Q825 | 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846932 | 腹部単純性血管腫 | |
| 216 | Q825 | 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846568 | 頬部単純性血管腫 | |
| 217 | Q825 | 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846542 | 顔面いちご状血管腫 | |
| 218 | Q825 | 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846547 | 顔面単純性血管腫 | |
| 219 | Q828 | 皮膚のその他の明示された先天奇形 | 8842128 | 青色ゴムまり様母斑症候群 | |
| 220 | Q828 | 皮膚のその他の明示された先天奇形 | 2280026 | 血管腫症 | |
| 221 | Q828 | 皮膚のその他の明示された先天奇形 | 8845978 | 先天性血管拡張性大理石様皮斑 | |
| 222 | Q858 | その他の母斑症, 他に分類されないもの | 2377009 | 神経母斑症 | |
| 223 | Q858 | その他の母斑症, 他に分類されないもの | 8842611 | 脱色素性母斑 | |
| 224 | Q858 | その他の母斑症, 他に分類されないもの | 8839431 | 貧血母斑 | |
| 225 | Q858 | その他の母斑症, 他に分類されないもの | 8835730 | スタージ・ウェーバ症候群 | |
| 226 | Q858 | その他の母斑症, 他に分類されないもの | 8848788 | プロテウス症候群 | |
| 227 | Q858 | その他の母斑症, 他に分類されないもの | 8848692 | カウデン病 | |
| 228 | Q859 | 母斑症, 詳細不明 | 8842234 | 基底細胞母斑症候群 | |
| 229 | Q859 | 母斑症, 詳細不明 | 8841603 | 母斑症 | |
| 230 | Q872 | 先天奇形症候群, 主として(四)肢の障害されたもの | 8844861 | クリッペル・トレノナー症候群 | |
| 231 | Q872 | 先天奇形症候群, 主として(四)肢の障害されたもの | 8832833 | クリッペル・トレノナー・ウェーバー症候群 | |
| 232 | Q878 | その他の明示された先天奇形症候群, 他に分類されないもの | 8849933 | 巨脳症-毛細血管奇形症候群 | |

表 2 NDB 抽出データ件数

| レセプト | CSV ファイル数 | データ件数 |
|----------|-----------|----------------------|
| 医科レセプト | 792 個 | 547,432,388 件 5.5 億件 |
| DPC レセプト | 1,368 個 | 34,182,284 件 0.3 億件 |
| 調剤レセプト | 876 個 | 177,419,016 件 1.8 億件 |
| 総データ件数 | 3,036 個 | 759,033,688 件 7.6 億件 |

表 3 NDB 抽出レセプト件数

| レセプト | 2018年 | 2019年 | 2020年 | 2021年 | 2022年 | 2023年 | 2024年※ | 総レセプト件数 |
|-------------|-----------|-----------|-----------|-----------|-----------|-----------|--------|------------|
| 医科レセプト | 2,544,228 | 2,667,118 | 2,618,695 | 2,806,240 | 2,900,617 | 2,993,002 | - | 16,529,900 |
| DPCレセプト | 29,033 | 30,155 | 27,317 | 27,467 | 26,720 | 27,893 | - | 168,585 |
| 調剤レセプト | 1,595,867 | 1,686,328 | 1,702,303 | 1,817,753 | 1,894,396 | 1,962,559 | 96,722 | 10,755,928 |
| 総レセプト 件数 | 4,169,128 | 4,383,601 | 4,348,315 | 4,651,460 | 4,821,733 | 4,983,454 | 96,722 | 27,454,413 |
| | 417万件 | 438万件 | 435万件 | 465万件 | 482万件 | 498万件 | 9.7万件 | 2,745万件 |

※2023年12月受診、2024年1月処方を考慮

表 4 NDB 抽出患者数(ID1 算出)

| 実患者数 | 2018年 | 2019年 | 2020年 | 2021年 | 2022年 | 2023年 | 2024年※ |
|--------|-----------------------|---------|---------|---------|---------|---------|--------|
| 年別 | 659,084 | 692,784 | 681,615 | 727,489 | 755,618 | 785,070 | 95,618 |
| 7年実患者数 | 実 2,211,903人(実 221万人) | | | | | | |

※2023年12月受診、2024年1月処方を考慮

3. 解析方法

厚生労働省より提供されたNDBデータのCSVファイルを使用して、解析用データベースを作成し(図 1)、1)~3)の手順で解析を行った。

1) 個人を識別する連結IDの付与

NDBでは、表 5に示す個人を識別するIDがあるが、保険者の変更(転職や退職、後期高齢者医療保険制度への移行など)、氏名の変更(結婚、離婚など)でID変わるため、変更を追跡し、個人を連結する必要がある。ID1, ID5が同じ場合、または、ID1, ID5が途切れた前後に同一のID2, ID4を持つ異なる

ID1, ID5を同一患者とみなして連結個人IDを付与した。

表 5 NDB における個人を識別する ID

| |
|---|
| ID1: 保険者番号+被保険者番号+生年月日+性別 ⇒保険者の変更で変わる |
| ID2: 氏名+生年月日+性別 ⇒表記のゆれ、氏名変更で変わる (2022年より下記追加) |
| ID4: ID2の表記ゆれを補正したID |
| ID5: 被保険者番号の履歴情報を元に生成したID いずれのIDも、匿名化64桁ハッシュ値 |

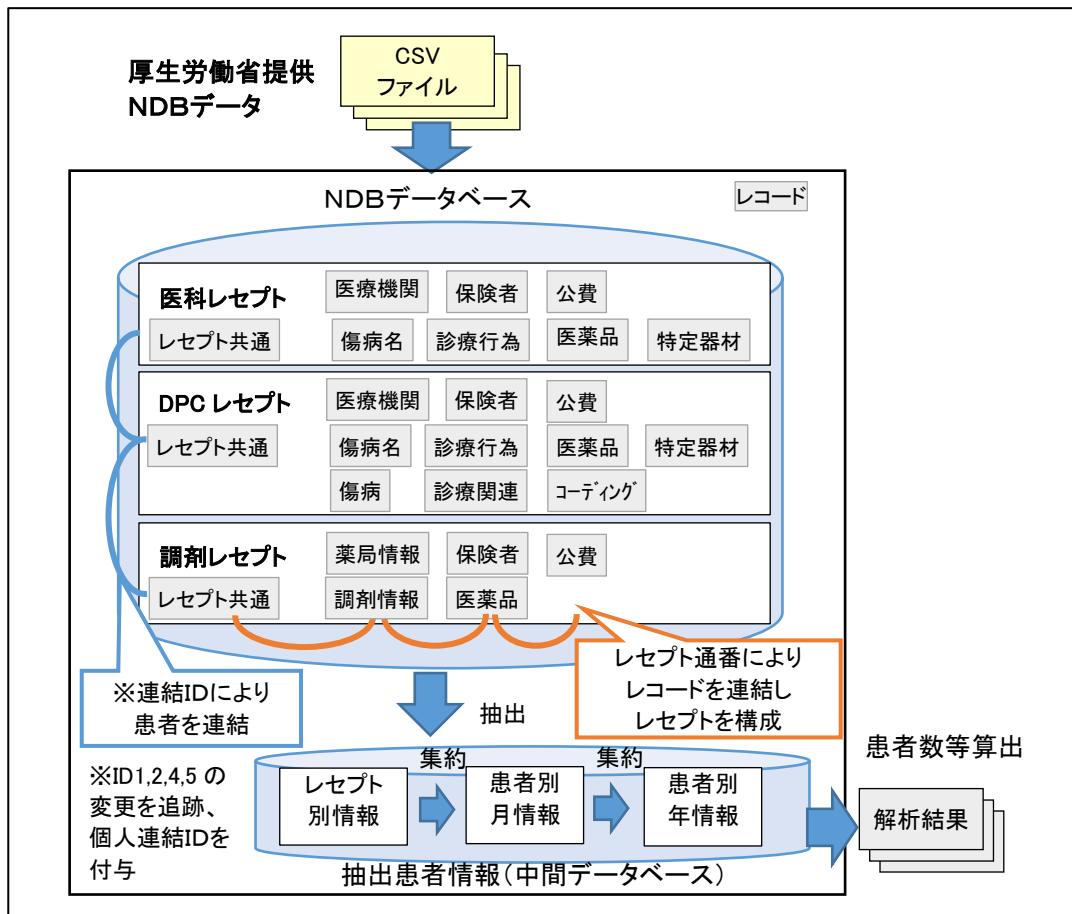


図 1 解析用 NDB データベースの構成

2) レセプト別、患者別情報の抽出

次の【疾患分類】の対象傷病名コード(疑い病名除く)を有する患者のレセプト情報を抽出し、患者別の月・年情報に集約した患者情報データベースを作成した。

表 6～表 17に疾患分類別の対象傷病名コードを示す。

なお、疾患分類と対象傷病名コードは令和4年度研究を踏襲している。

【疾患分類】

1) 血管腫・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症関

連疾患(全体)(表 6)

- 2) 血管腫・血管奇形関連疾患(表 7)
- 3) リンパ管腫・リンパ管腫症関連疾患(表 8)
- 4) ICD10:D69.4(その他の原発性血小板減少症)(表 9)
- 5) カサバツハ・メリット症候群(表 10)
- 6) 指定難病227_オスラー病(表 11)
- 7) 青色ゴムまり様母斑症候群(表 12)
- 8) 指定難病277_リンパ管腫症/ゴーハム病(表 13)
- 9) 指定難病278_巨大リンパ管奇形(頸部顔面病変)(表 14)
- 10) 指定難病279_巨大静脈奇形(頸部口腔咽頭び

まん性病変)(表 15)

- 11) 指定難病280_巨大動静脈奇形(頸部顔面又は四肢病変)(表 16)
- 12) 指定難病281_クリッペル・トレノナー・ウェーバー症候群(表 17)

3) 患者数などの算出

NDBデータには、検査結果や診察所見といった臨床情報が含まれておらず、診断基準に沿った患者の抽出は不可であるため、対象傷病名コードの有無により患者を判別した。

今年度は、次の【解析項目】のうち、1)年別 疾患分類別 患者数(性・年齢別)を算出した。1)地域別患者数、2)～4)については、来年度、解析予定である。

【解析項目】

- 1) 年別 疾患分類別 患者数(性・年齢別、地域別)
- 2) 治療有無(再建切除術、硬化療法、塞栓など)
- 3) 併存疾患有無
- 4) 医療費情報(公費助成有無)

(倫理面への配慮)

本研究は、広島大学疫学研究倫理審査委員会の承認を受けて行われた。(許可番号 第E2023-0086)匿名化後既存情報の解析であることから、研究対象者に負担やリスクは原則的に生じない。NDBのガイドラインを遵守し、情報漏洩等がないように十分に注意する。

表 6 1)血管腫・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症関連疾患(全体)

| 通番 | ICD10細分類番号/ICD10細分類名 | 傷病名コード/傷病名 |
|----|----------------------|-------------------|
| 1 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8837850 つる状血管腫 |
| 2 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846707 上口唇血管腫 |
| 3 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8851264 上唇血管腫 |
| 4 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846701 上眼瞼血管腫 |
| 5 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280039 上腕血管腫 |
| 6 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846496 下口唇血管腫 |
| 7 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8851205 下唇血管腫 |
| 8 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846481 下咽頭血管腫 |
| 9 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846506 下腿血管腫 |
| 10 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280056 中指血管腫 |
| 11 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8849819 乳幼児肝巨大血管腫 |
| 12 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846888 乳腺血管腫 |
| 13 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846792 体幹血管腫 |
| 14 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280093 前胸部血管腫 |
| 15 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846756 前腕血管腫 |
| 16 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2112009 十二指腸血管腫 |
| 17 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280030 口唇血管腫 |
| 18 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280011 咽頭血管腫 |
| 19 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846594 喉頭血管腫 |
| 20 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846537 外陰部血管腫 |
| 21 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846800 多発性海綿状血管腫 |
| 22 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846834 大腿血管腫 |
| 23 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846650 小指血管腫 |
| 24 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280105 幼児性血管腫 |
| 25 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8851158 乳児血管腫 |
| 26 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846623 手掌血管腫 |
| 27 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846627 手背血管腫 |
| 28 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280037 手部血管腫 |
| 29 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280057 殿部血管腫 |
| 30 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846960 母指血管腫 |
| 31 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280088 毛細血管性血管腫 |
| 32 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280017 海綿状血管腫 |

| 通番 | ICD10細分類番号/ICD10細分類名 | 傷病名コード/傷病名 |
|----|--------------------------|-----------------------|
| 33 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846986 涙のう部血管腫 |
| 34 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846530 環指血管腫 |
| 35 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846591 甲状腺血管腫 |
| 36 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280021 眼瞼血管腫 |
| 37 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2241004 眼窩内血管腫 |
| 38 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846682 示指血管腫 |
| 39 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280095 筋肉内血管腫 |
| 40 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846668 耳下腺血管腫 |
| 41 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846585 肩部血管腫 |
| 42 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280063 背部血管腫 |
| 43 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8851057 胸部乳児血管腫 |
| 44 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280078 腋窩血管腫 |
| 45 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846980 腰部血管腫 |
| 46 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846931 腹部血管腫 |
| 47 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280049 舌海綿状血管腫 |
| 48 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280050 舌血管腫 |
| 49 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280025 血管腫 |
| 50 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846769 足底血管腫 |
| 51 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846780 足部血管腫 |
| 52 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846469 陰のう血管腫 |
| 53 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280012 陰茎海綿状血管腫 |
| 54 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280110 静脈性血管腫 |
| 55 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280031 頸部血管腫 |
| 56 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280081 頸部血管腫 |
| 57 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8847087 頬粘膜血管腫 |
| 58 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280074 頬部血管腫 |
| 59 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2130011 頭蓋骨血管腫 |
| 60 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280059 頭部血管腫 |
| 61 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8851053 顔面乳児血管腫 |
| 62 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280022 顔面血管腫 |
| 63 | D181 リンパ管腫, 全ての部位 | 8838767 のう胞性リンパ管腫 |
| 64 | D181 リンパ管腫, 全ての部位 | 2281002 リンパ管腫 |
| 65 | D181 リンパ管腫, 全ての部位 | 8836497 前胸部リンパ管腫 |
| 66 | D181 リンパ管腫, 全ての部位 | 2112010 十二指腸リンパ管腫 |
| 67 | D181 リンパ管腫, 全ての部位 | 8837360 大腿リンパ管腫 |
| 68 | D181 リンパ管腫, 全ての部位 | 8850974 海綿状リンパ管腫 |
| 69 | D181 リンパ管腫, 全ての部位 | 8842331 肘関節部のう胞性リンパ管腫 |
| 70 | D181 リンパ管腫, 全ての部位 | 8839274 肘関節部リンパ管腫 |
| 71 | D181 リンパ管腫, 全ての部位 | 8838893 背部リンパ管腫 |
| 72 | D181 リンパ管腫, 全ての部位 | 8830854 腋窩リンパ管腫 |
| 73 | D181 リンパ管腫, 全ての部位 | 8839654 腹腔内リンパ管腫 |
| 74 | D181 リンパ管腫, 全ての部位 | 8842498 膝窩部のう胞性リンパ管腫 |
| 75 | D181 リンパ管腫, 全ての部位 | 8833094 血管リンパ管腫 |
| 76 | D181 リンパ管腫, 全ての部位 | 8842330 足関節部のう胞性リンパ管腫 |
| 77 | D181 リンパ管腫, 全ての部位 | 8842332 頸部のう胞性リンパ管腫 |
| 78 | D181 リンパ管腫, 全ての部位 | 8850981 頸部リンパ管腫 |
| 79 | D181 リンパ管腫, 全ての部位 | 8844230 食道リンパ管腫 |
| 80 | D221 眼瞼のメラニン細胞性母斑, 眼角を含む | 8847708 上眼瞼青色母斑 |

| 通番 | ICD10細分類番号/ICD10細分類名 | 傷病名コード/傷病名 | |
|-----|--|------------|----------------------|
| 81 | D235 皮膚のその他の良性新生物<腫瘍>／体幹の皮膚 | 8846971 | 母斑様限局性体幹被角血管腫 |
| 82 | D294 男性生殖器の良性新生物<腫瘍>／陰のう<囊> | 8830702 | 陰のう被角血管腫 |
| 83 | D369 その他の部位及び部位不明の良性新生物<腫瘍>／部位不明の良性新生物<腫瘍> | 8846973 | ミベリ被角血管腫 |
| 84 | D369 その他の部位及び部位不明の良性新生物<腫瘍>／部位不明の良性新生物<腫瘍> | 8846806 | 単発性被角血管腫 |
| 85 | D369 その他の部位及び部位不明の良性新生物<腫瘍>／部位不明の良性新生物<腫瘍> | 8839178 | 被角血管腫 |
| 86 | D694 その他の原発性血小板減少症 | 2280083 | カサバッハ・メリット症候群 |
| 87 | D694 その他の原発性血小板減少症 | 8849842 | メイ・ヘグリン異常症 |
| 88 | D694 その他の原発性血小板減少症 | 8849803 | 先天性無巨核球性血小板減少症 |
| 89 | D694 その他の原発性血小板減少症 | 8833302 | 原発性血小板減少症 |
| 90 | D694 その他の原発性血小板減少症 | 2873007 | 血小板減少性紫斑病 |
| 91 | D694 その他の原発性血小板減少症 | 8830570 | 遺伝性血小板減少症 |
| 92 | D694 その他の原発性血小板減少症 | 8833812 | 骨髓低形成血小板減少症 |
| 93 | E752 その他のスフィンゴリピドーシス | 8846211 | びまん性体幹被角血管腫 |
| 94 | I780 遺伝性出血性毛細血管拡張症 | 8848472 | オスター病 |
| 95 | L817 色素性紫斑性皮膚症 | 8837427 | 蛇行状血管腫 |
| 96 | M895 骨溶解(症) | 8848683 | リンパ管腫症 |
| 97 | Q273 末梢性動静脈奇形 | 8849740 | 巨大動静脈奇形 |
| 98 | Q273 末梢性動静脈奇形 | 8848492 | 巨大動静脈奇形(四肢病変) |
| 99 | Q273 末梢性動静脈奇形 | 8848491 | 巨大動静脈奇形(頸部顔面病変) |
| 100 | Q273 末梢性動静脈奇形 | 8840261 | 末梢性動静脈奇形 |
| 101 | Q273 末梢性動静脈奇形 | 7479004 | 先天性動静脈瘻 |
| 102 | Q273 末梢性動静脈奇形 | 8836314 | 先天性動静脈瘤 |
| 103 | Q278 末梢血管系のその他の明示された先天奇形 | 8849739 | 巨大静脈奇形 |
| 104 | Q278 末梢血管系のその他の明示された先天奇形 | 8848490 | 巨大静脈奇形(頸部口腔咽頭びまん性病変) |
| 105 | Q278 末梢血管系のその他の明示された先天奇形 | 8836247 | 先天性静脈瘤 |
| 106 | Q279 末梢血管系の先天奇形、詳細不明 | 8830057 | AVM |
| 107 | Q279 末梢血管系の先天奇形、詳細不明 | 8840253 | 末梢血管奇形 |
| 108 | Q288 循環器系のその他の明示された先天奇形 | 8848493 | 巨大リンパ管奇形(頸部顔面病変) |
| 109 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8830808 | ウンナ母斑 |
| 110 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846731 | 正中部母斑 |
| 111 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 7573013 | 血管性母斑 |
| 112 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8830498 | いちご状血管腫 |
| 113 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846713 | 上肢単純性血管腫 |
| 114 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846718 | 上腕部単純性血管腫 |
| 115 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846502 | 下肢単純性血管腫 |
| 116 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846510 | 下腿部単純性血管腫 |
| 117 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846759 | 前腕部単純性血管腫 |
| 118 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 2280055 | 単純性血管腫 |
| 119 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846841 | 大腿部単純性血管腫 |
| 120 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846634 | 手部単純性血管腫 |
| 121 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846897 | 背部単純性血管腫 |
| 122 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846559 | 胸部いちご状血管腫 |
| 123 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846562 | 胸部単純性血管腫 |
| 124 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846932 | 腹部単純性血管腫 |
| 125 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846568 | 頸部単純性血管腫 |
| 126 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846542 | 顔面いちご状血管腫 |

| 通番 | ICD10細分類番号/ICD10細分類名 | 傷病名コード/傷病名 | |
|-----|--|------------|----------------------|
| 127 | Q825 先天性非腫瘍＜非新生物＞性母斑 | 8846547 | 顔面単純性血管腫 |
| 128 | Q828 皮膚のその他の明示された先天奇形 | 8842128 | 青色ゴムまり様母斑症候群 |
| 129 | Q828 皮膚のその他の明示された先天奇形 | 2280026 | 血管腫症 |
| 130 | Q858 その他の母斑症, 他に分類されないもの | 8835730 | スタージ・ウェーバ症候群 |
| 131 | Q872 先天奇形症候群, 主として(四)肢の障害されたもの | 8844861 | クリッペル・トレノナー症候群 |
| 132 | Q872 先天奇形症候群, 主として(四)肢の障害されたもの | 8832833 | クリッペル・トレノナー・ウェーバー症候群 |
| 133 | Q878 その他の明示された先天奇形症候群, 他に分類されないもの | 8849933 | 巨脳症－毛細血管奇形症候群 |
| 134 | T983 外科的及び内科的ケアの合併症の続発・後遺症, 他に分類されないもの | 8838894 | 背部リンパ管腫摘出後遺症 |

表 7 2) 血管腫・血管奇形関連疾患

| 通番 | ICD10細分類番号/ICD10細分類名 | 傷病名コード/傷病名 | |
|----|----------------------|------------|-----------|
| 1 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8837850 | つる状血管腫 |
| 2 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846707 | 上口唇血管腫 |
| 3 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8851264 | 上唇血管腫 |
| 4 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846701 | 上眼瞼血管腫 |
| 5 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280039 | 上腕血管腫 |
| 6 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846496 | 下口唇血管腫 |
| 7 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8851205 | 下唇血管腫 |
| 8 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846481 | 下咽頭血管腫 |
| 9 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846506 | 下腿血管腫 |
| 10 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280056 | 中指血管腫 |
| 11 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8849819 | 乳幼児肝巨大血管腫 |
| 12 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846888 | 乳腺血管腫 |
| 13 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846792 | 体幹血管腫 |
| 14 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280093 | 前胸部血管腫 |
| 15 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846756 | 前腕血管腫 |
| 16 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2112009 | 十二指腸血管腫 |
| 17 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280030 | 口唇血管腫 |
| 18 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280011 | 咽頭血管腫 |
| 19 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846594 | 喉頭血管腫 |
| 20 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846537 | 外陰部血管腫 |
| 21 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846800 | 多発性海綿状血管腫 |
| 22 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846834 | 大腿血管腫 |
| 23 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846650 | 小指血管腫 |
| 24 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280105 | 幼児性血管腫 |
| 25 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8851158 | 乳児血管腫 |
| 26 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846623 | 手掌血管腫 |
| 27 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846627 | 手背血管腫 |
| 28 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280037 | 手部血管腫 |
| 29 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280057 | 殿部血管腫 |
| 30 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846960 | 母指血管腫 |
| 31 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280088 | 毛細血管性血管腫 |
| 32 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280017 | 海綿状血管腫 |
| 33 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846986 | 涙のう部血管腫 |
| 34 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846530 | 環指血管腫 |
| 35 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846591 | 甲状腺血管腫 |
| 36 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280021 | 眼瞼血管腫 |
| 37 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2241004 | 眼窩内血管腫 |

| 通番 | ICD10細分類番号/ICD10細分類名 | 傷病名コード/傷病名 | |
|----|--|------------|-----------------|
| 38 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846682 | 示指血管腫 |
| 39 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280095 | 筋肉内血管腫 |
| 40 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846668 | 耳下腺血管腫 |
| 41 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846585 | 肩部血管腫 |
| 42 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280063 | 背部血管腫 |
| 43 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8851057 | 胸部乳児血管腫 |
| 44 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280078 | 腋窩血管腫 |
| 45 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846980 | 腰部血管腫 |
| 46 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846931 | 腹部血管腫 |
| 47 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280049 | 舌海綿状血管腫 |
| 48 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280050 | 舌血管腫 |
| 49 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280025 | 血管腫 |
| 50 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846769 | 足底血管腫 |
| 51 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846780 | 足部血管腫 |
| 52 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8846469 | 陰のう血管腫 |
| 53 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280012 | 陰茎海綿状血管腫 |
| 54 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280110 | 静脈性血管腫 |
| 55 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280031 | 項部血管腫 |
| 56 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280081 | 頸部血管腫 |
| 57 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8847087 | 頬粘膜血管腫 |
| 58 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280074 | 頬部血管腫 |
| 59 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2130011 | 頭蓋骨血管腫 |
| 60 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280059 | 頭部血管腫 |
| 61 | D180 血管腫, 全ての部位 | 8851053 | 顔面乳児血管腫 |
| 62 | D180 血管腫, 全ての部位 | 2280022 | 顔面血管腫 |
| 63 | D221 眼瞼のメラニン細胞性母斑, 眼角を含む | 8847708 | 上眼瞼青色母斑 |
| 64 | D235 皮膚のその他の良性新生物＜腫瘍＞／体幹の皮膚 | 8846971 | 母斑様限局性体幹被角血管腫 |
| 65 | D294 男性生殖器の良性新生物＜腫瘍＞／陰のう＜囊＞ | 8830702 | 陰のう被角血管腫 |
| 66 | D369 その他の部位及び部位不明の良性新生物＜腫瘍＞／部位不明の良性新生物＜腫瘍＞ | 8846973 | ミベリ被角血管腫 |
| 67 | D369 その他の部位及び部位不明の良性新生物＜腫瘍＞／部位不明の良性新生物＜腫瘍＞ | 8846806 | 単発性被角血管腫 |
| 68 | D369 その他の部位及び部位不明の良性新生物＜腫瘍＞／部位不明の良性新生物＜腫瘍＞ | 8839178 | 被角血管腫 |
| 69 | D694 その他の原発性血小板減少症 | 2280083 | カサバッハ・メリット症候群 |
| 70 | D694 その他の原発性血小板減少症 | 8849842 | メイ・ヘグリン異常症 |
| 71 | D694 その他の原発性血小板減少症 | 8849803 | 先天性無巨核球性血小板減少症 |
| 72 | D694 その他の原発性血小板減少症 | 8833302 | 原発性血小板減少症 |
| 73 | D694 その他の原発性血小板減少症 | 2873007 | 血小板減少性紫斑病 |
| 74 | D694 その他の原発性血小板減少症 | 8830570 | 遺伝性血小板減少症 |
| 75 | D694 その他の原発性血小板減少症 | 8833812 | 骨髄低形成血小板減少症 |
| 76 | E752 その他のスフィンゴリピドーシス | 8846211 | びまん性体幹被角血管腫 |
| 77 | I780 遺伝性出血性毛細血管拡張症 | 8848472 | オスラー病 |
| 78 | L817 色素性紫斑性皮膚症 | 8837427 | 蛇行状血管腫 |
| 79 | Q273 末梢性動静脈奇形 | 8849740 | 巨大動静脈奇形 |
| 80 | Q273 末梢性動静脈奇形 | 8848492 | 巨大動静脈奇形(四肢病変) |
| 81 | Q273 末梢性動静脈奇形 | 8848491 | 巨大動静脈奇形(頸部顔面病変) |
| 82 | Q273 末梢性動静脈奇形 | 8840261 | 末梢性動静脈奇形 |
| 83 | Q273 末梢性動静脈奇形 | 7479004 | 先天性動静脈瘻 |

| 通番 | ICD10細分類番号/ICD10細分類名 | 傷病名コード/傷病名 | |
|-----|----------------------------------|------------|----------------------|
| 84 | Q273 末梢性動静脈奇形 | 8836314 | 先天性動静脈瘤 |
| 85 | Q278 末梢血管系のその他の明示された先天奇形 | 8849739 | 巨大静脈奇形 |
| 86 | Q278 末梢血管系のその他の明示された先天奇形 | 8848490 | 巨大静脈奇形(頸部口腔咽頭びまん性病変) |
| 87 | Q278 末梢血管系のその他の明示された先天奇形 | 8836247 | 先天性静脈瘤 |
| 88 | Q279 末梢血管系の先天奇形、詳細不明 | 8830057 | AVM |
| 89 | Q279 末梢血管系の先天奇形、詳細不明 | 8840253 | 末梢血管奇形 |
| 90 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8830808 | ウンナ母斑 |
| 91 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846731 | 正中部母斑 |
| 92 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 7573013 | 血管性母斑 |
| 93 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8830498 | いちご状血管腫 |
| 94 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846713 | 上肢単純性血管腫 |
| 95 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846718 | 上腕部単純性血管腫 |
| 96 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846502 | 下肢単純性血管腫 |
| 97 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846510 | 下腿部単純性血管腫 |
| 98 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846759 | 前腕部単純性血管腫 |
| 99 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 2280055 | 単純性血管腫 |
| 100 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846841 | 大腿部単純性血管腫 |
| 101 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846634 | 手部単純性血管腫 |
| 102 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846897 | 背部単純性血管腫 |
| 103 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846559 | 胸部いちご状血管腫 |
| 104 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846562 | 胸部単純性血管腫 |
| 105 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846932 | 腹部単純性血管腫 |
| 106 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846568 | 頸部単純性血管腫 |
| 107 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846542 | 顔面いちご状血管腫 |
| 108 | Q825 先天性非腫瘍<非新生物>性母斑 | 8846547 | 顔面単純性血管腫 |
| 109 | Q828 皮膚のその他の明示された先天奇形 | 8842128 | 青色ゴムまり様母斑症候群 |
| 110 | Q828 皮膚のその他の明示された先天奇形 | 2280026 | 血管腫症 |
| 111 | Q858 その他の母斑症、他に分類されないもの | 8835730 | スタージ・ウェーバ症候群 |
| 112 | Q872 先天奇形症候群、主として(四)肢の障害されたもの | 8844861 | クリッペル・トレノネー症候群 |
| 113 | Q872 先天奇形症候群、主として(四)肢の障害されたもの | 8832833 | クリッペル・トレノネー・ウェーバー症候群 |
| 114 | Q878 その他の明示された先天奇形症候群、他に分類されないもの | 8849933 | 巨脳症－毛細血管奇形症候群 |

表 8 3)リンパ管腫・リンパ管腫症関連疾患

| 通番 | ICD10細分類番号/ICD10細分類名 | 傷病名コード/傷病名 | |
|----|----------------------|------------|---------------|
| 1 | D181 リンパ管腫、全ての部位 | 8838767 | のう胞性リンパ管腫 |
| 2 | D181 リンパ管腫、全ての部位 | 2281002 | リンパ管腫 |
| 3 | D181 リンパ管腫、全ての部位 | 8836497 | 前胸部リンパ管腫 |
| 4 | D181 リンパ管腫、全ての部位 | 2112010 | 十二指腸リンパ管腫 |
| 5 | D181 リンパ管腫、全ての部位 | 8837360 | 大腿リンパ管腫 |
| 6 | D181 リンパ管腫、全ての部位 | 8850974 | 海綿状リンパ管腫 |
| 7 | D181 リンパ管腫、全ての部位 | 8842331 | 肘関節部のう胞性リンパ管腫 |
| 8 | D181 リンパ管腫、全ての部位 | 8839274 | 肘関節部リンパ管腫 |
| 9 | D181 リンパ管腫、全ての部位 | 8838893 | 背部リンパ管腫 |
| 10 | D181 リンパ管腫、全ての部位 | 8830854 | 腋窩リンパ管腫 |
| 11 | D181 リンパ管腫、全ての部位 | 8839654 | 腹腔内リンパ管腫 |
| 12 | D181 リンパ管腫、全ての部位 | 8842498 | 膝窩部のう胞性リンパ管腫 |
| 13 | D181 リンパ管腫、全ての部位 | 8833094 | 血管リンパ管腫 |

| 通番 | ICD10細分類番号/ICD10細分類名 | 傷病名コード/傷病名 | |
|-----|--|------------|------------------|
| 14 | D181 リンパ管腫, 全ての部位 | 8842330 | 足関節部のう胞性リンパ管腫 |
| 15 | D181 リンパ管腫, 全ての部位 | 8842332 | 頸部のう胞性リンパ管腫 |
| 16 | D181 リンパ管腫, 全ての部位 | 8850981 | 頸部リンパ管腫 |
| 17 | D181 リンパ管腫, 全ての部位 | 8844230 | 食道リンパ管腫 |
| 18 | M895 骨溶解(症) | 8848683 | リンパ管腫症 |
| 19 | Q288 循環器系のその他の明示された先天奇形 | 8848493 | 巨大リンパ管奇形(頸部顔面病変) |
| 120 | T983 外科的及び内科的ケアの合併症の続発・後遺症, 他に分類されないもの | 8838894 | 背部リンパ管腫摘出後遺症 |

表 9 4)ICD10:D69.4(その他の原発性血小板減少症)

| 通番 | ICD10細分類番号/ICD10細分類名 | 傷病名コード/傷病名 | |
|----|----------------------|------------|----------------|
| 1 | D694 その他の原発性血小板減少症 | 2280083 | カサバッハ・メリット症候群 |
| 2 | D694 その他の原発性血小板減少症 | 8849842 | メイ・ヘグリン異常症 |
| 3 | D694 その他の原発性血小板減少症 | 8849803 | 先天性無巨核球性血小板減少症 |
| 4 | D694 その他の原発性血小板減少症 | 8833302 | 原発性血小板減少症 |
| 5 | D694 その他の原発性血小板減少症 | 2873007 | 血小板減少性紫斑病 |
| 6 | D694 その他の原発性血小板減少症 | 8830570 | 遺伝性血小板減少症 |
| 7 | D694 その他の原発性血小板減少症 | 8833812 | 骨髄低形成血小板減少症 |

表 10 5)カサバッハ・メリット症候群

| 通番 | ICD10細分類番号/ICD10細分類名 | 傷病名コード/傷病名 | |
|----|----------------------|------------|---------------|
| 1 | D694 その他の原発性血小板減少症 | 2280083 | カサバッハ・メリット症候群 |

表 11 6)指定難病 227_オスラー病

| 通番 | ICD10細分類番号/ICD10細分類名 | 傷病名コード/傷病名 | |
|----|----------------------|------------|-------|
| 1 | I780 遺伝性出血性毛細血管拡張症 | 8848472 | オスラー病 |

表 12 7)青色ゴムまり様母斑症候群

| 通番 | ICD10細分類番号/ICD10細分類名 | 傷病名コード/傷病名 | |
|----|-----------------------|------------|--------------|
| 1 | Q828 皮膚のその他の明示された先天奇形 | 8842128 | 青色ゴムまり様母斑症候群 |

表 13 8)指定難病 277_リンパ管腫症/ゴーハム病

| 通番 | ICD10細分類番号/ICD10細分類名 | 傷病名コード/傷病名 | |
|----|----------------------|------------|--------|
| 1 | M895 骨溶解(症) | 8850987 | ゴーハム病 |
| 2 | M895 骨溶解(症) | 8848683 | リンパ管腫症 |

表 14 9)指定難病 278_巨大リンパ管奇形(頸部顔面病変)

| 通番 | ICD10細分類番号/ICD10細分類名 | 傷病名コード/傷病名 | |
|----|-------------------------|------------|------------------|
| 1 | Q288 循環器系のその他の明示された先天奇形 | 8848493 | 巨大リンパ管奇形(頸部顔面病変) |

表 15 10)指定難病 279_巨大静脈奇形(頸部口腔咽頭びまん性病変)

| 通番 | ICD10細分類番号/ICD10細分類名 | 傷病名コード/傷病名 | | ① | ② | ③ |
|----|--------------------------|------------|----------------------|---|---|---|
| 1 | Q278 末梢血管系のその他の明示された先天奇形 | 8848490 | 巨大静脈奇形(頸部口腔咽頭びまん性病変) | ○ | ○ | ○ |
| 2 | Q278 末梢血管系のその他の明示された先天奇形 | 8849739 | 巨大静脈奇形 | | ○ | ○ |
| 3 | Q278 末梢血管系のその他の明示された先天奇形 | 8836247 | 先天性静脈瘤 | | | ○ |

集計パターン:①指定難病のみ、②関連含む:巨大限定、③関連含む

表 16 11)指定難病 280_巨大動脈奇形(頸部顔面又は四肢病変)

| 通番 | ICD10細分類番号/ICD10細分類名 | 傷病名コード/傷病名 | | ① | ② | ③ |
|----|----------------------|------------|--------------|---|---|---|
| 1 | Q273 末梢性動脈奇形 | 8848492 | 巨大動脈奇形(四肢病変) | ○ | ○ | ○ |

| 通番 | ICD10細分類番号/ICD10細分類名 | 傷病名コード/傷病名 | | ① | ② | ③ |
|----|----------------------|------------|-----------------|-----------------------|-----------------------|-----------------------|
| 2 | Q273 末梢性動静脈奇形 | 8848491 | 巨大動静脈奇形(頸部顔面病変) | <input type="radio"/> | <input type="radio"/> | <input type="radio"/> |
| 3 | Q273 末梢性動静脈奇形 | 8849740 | 巨大動静脈奇形 | | <input type="radio"/> | <input type="radio"/> |
| 4 | Q273 末梢性動静脈奇形 | 8840261 | 末梢性動静脈奇形 | | | <input type="radio"/> |
| 5 | Q273 末梢性動静脈奇形 | 7479004 | 先天性動静脈瘻 | | | <input type="radio"/> |
| 6 | Q273 末梢性動静脈奇形 | 8836314 | 先天性動静脈瘤 | | | <input type="radio"/> |

集計パターン: ①指定難病のみ、②関連含む:巨大限定、③関連含む

表 17 12)指定難病 281_クリッペル・トレノナー・ウェーバー症候群

| 通番 | ICD10細分類番号/ICD10細分類名 | 傷病名コード/傷病名 | |
|----|--------------------------------|------------|----------------------|
| 1 | Q872 先天奇形症候群, 主として(四)肢の障害されたもの | 8844861 | クリッペル・トレノナー症候群 |
| 2 | Q872 先天奇形症候群, 主として(四)肢の障害されたもの | 8832833 | クリッペル・トレノナー・ウェーバー症候群 |

C. 研究結果

疾患分類別、年別の患者数を表 18に示す。
 また、疾患分類別の性・年齢別の患者数を表 19～
 表 42、図 2～図 25に示す。

表 18 血管腫・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症関連疾患 集計結果まとめ

| 疾患分類 | 受療患者数 | | | | | | | |
|-------------------------------------|---------------------|---------|---------|---------|---------|---------|---------|------------------------------|
| | 2018-2023 年 実患者数 | 2018 年 | 2019 年 | 2020 年 | 2021 年 | 2022 年 | 2023 年 | ※参考:R4 研究 2018-2020 年 |
| 1) 血管腫・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症関連疾患(全体) | 903,079 | 229,819 | 244,971 | 240,596 | 260,044 | 268,229 | 282,574 | 293,020 (277,731-308,310) |
| 2) 血管腫・血管奇形関連疾患 | 868,811 | 217,052 | 232,018 | 228,174 | 247,214 | 255,114 | 268,975 | 280,527 (265,610-295,444) |
| 3) リンパ管腫・リンパ管腫症関連疾患 | 36,795 | 13,517 | 13,781 | 13,209 | 13,684 | 13,999 | 14,563 | 13,468 (10,051-16,886) |
| 4) ICD10:D69.4(その他の原発性血小板減少症) | 34,210 | 14,343 | 14,213 | 13,354 | 13,429 | 12,842 | 12,709 | 7,139 (4,659-9,618) |
| 5) カサバツハ・メリット症候群 | 553 | 327 | 327 | 299 | 304 | 298 | 300 | 376 (59-1,201) |
| 6) 指定難病 227_オスラー病 | 4,312 | 1,765 | 2,088 | 2,243 | 2,454 | 2,658 | 2,841 | 1,626 (482-2,796) |
| 7) 青色ゴムまり様母斑症候群 | 235 | 93 | 106 | 104 | 103 | 102 | 119 | 96 (0-853) |
| 8) 指定難病 277_リンパ管腫症/ゴーハム病 | 1,428 | 334 | 415 | 397 | 491 | 566 | 651 | 427 (15-1,104) |
| 9) 指定難病 278_巨大リンパ管奇形(頸部顔面病変) | 233 | 52 | 74 | 85 | 93 | 107 | 134 | 34 (0-867) |
| 10) ① 指定難病 279_巨大静脈奇形(頸部口腔咽頭びまん性病変) | 135 | 43 | 62 | 59 | 64 | 62 | 74 | - |
| ② 関連含む:巨大限定 | 555 | 43 | 87 | 137 | 211 | 247 | 350 | 69 (0-826) |
| ③ 関連含む | 666 | 90 | 131 | 177 | 246 | 283 | 391 | 105 (0-800) |
| 11) ① 指定難病 280_巨大動静脈奇形(頸部顔面又は四肢病変) | 814 | 230 | 308 | 313 | 348 | 353 | 404 | - |
| ② 関連含む:巨大限定 | 1,101 | 230 | 325 | 377 | 469 | 513 | 562 | 231 (6-891) |
| ③ 関連含む | 6,222 | 2,248 | 2,307 | 2,363 | 2,470 | 2,528 | 2,728 | 2,241 (841-3,640) |
| 12) 指定難病 281_クリッペル・トレノナー・ウェーバー症候群 | 2,474 | 1,214 | 1,331 | 1,287 | 1,405 | 1,376 | 1,461 | 1,492 (410-2,638) |

※R4研究:(株)JMDCが契約する健康保険組合加入者(0-64歳)のレセプトデータベースを使用した研究

2018-2020年3年期間有病率より算出した推定患者数(95%信頼区間)

1) 血管腫・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症関連疾患(全体) 性・年齢別 患者数

表 19 血管腫・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症関連疾患(全体) 性別 患者数

| 性別 | 2018 年 | 2019 年 | 2020 年 | 2021 年 | 2022 年 | 2023 年 |
|----|---------|---------|---------|---------|---------|---------|
| 男性 | 88,979 | 94,090 | 93,466 | 99,104 | 102,764 | 107,512 |
| 女性 | 140,840 | 150,881 | 147,130 | 160,940 | 165,465 | 175,062 |
| 計 | 229,819 | 244,971 | 240,596 | 260,044 | 268,229 | 282,574 |



図 2 血管腫・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症関連疾患(全体) 性別 患者数

表 20 血管腫・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症関連疾患(全体) 年齢別 患者数

| 年齢 | 2018 年 | 2019 年 | 2020 年 | 2021 年 | 2022 年 | 2023 年 |
|---------|---------|---------|---------|---------|---------|---------|
| 0 歳 | 29,365 | 30,458 | 29,691 | 32,137 | 33,047 | 32,772 |
| 1-4 歳 | 24,258 | 25,701 | 25,173 | 26,388 | 27,357 | 28,447 |
| 5-9 歳 | 14,118 | 15,115 | 14,824 | 16,094 | 16,603 | 16,919 |
| 10-14 歳 | 9,179 | 10,007 | 10,229 | 11,109 | 11,411 | 12,022 |
| 15-19 歳 | 6,701 | 7,044 | 7,520 | 8,056 | 8,246 | 8,753 |
| 20-24 歳 | 5,420 | 5,837 | 6,491 | 7,211 | 7,084 | 7,327 |
| 25-29 歳 | 6,162 | 6,585 | 7,092 | 8,509 | 8,360 | 8,717 |
| 30-34 歳 | 7,453 | 7,716 | 7,859 | 8,917 | 8,740 | 9,480 |
| 35-39 歳 | 8,993 | 9,280 | 9,330 | 10,346 | 10,269 | 11,099 |
| 40-44 歳 | 10,556 | 11,136 | 10,895 | 11,922 | 11,666 | 12,389 |
| 45-49 歳 | 11,506 | 12,461 | 12,575 | 13,686 | 14,051 | 15,032 |
| 50-54 歳 | 11,447 | 12,687 | 12,335 | 14,120 | 15,207 | 16,679 |
| 55-59 歳 | 10,990 | 12,058 | 11,811 | 12,946 | 13,879 | 15,350 |
| 60-64 歳 | 11,484 | 12,210 | 11,566 | 12,434 | 13,060 | 14,557 |
| 65-69 歳 | 15,247 | 15,167 | 13,483 | 13,513 | 13,809 | 14,515 |
| 70-74 歳 | 15,249 | 16,972 | 16,690 | 18,201 | 18,849 | 18,430 |
| 75-79 歳 | 13,754 | 15,417 | 14,492 | 14,344 | 15,221 | 16,833 |
| 80-84 歳 | 10,012 | 10,584 | 10,174 | 10,844 | 11,531 | 12,563 |
| 85-89 歳 | 5,510 | 5,907 | 5,743 | 6,349 | 6,766 | 7,307 |
| 90 歳以上 | 1,970 | 2,155 | 2,137 | 2,343 | 2,468 | 2,713 |
| 計 | 229,819 | 244,971 | 240,596 | 260,044 | 268,229 | 282,574 |

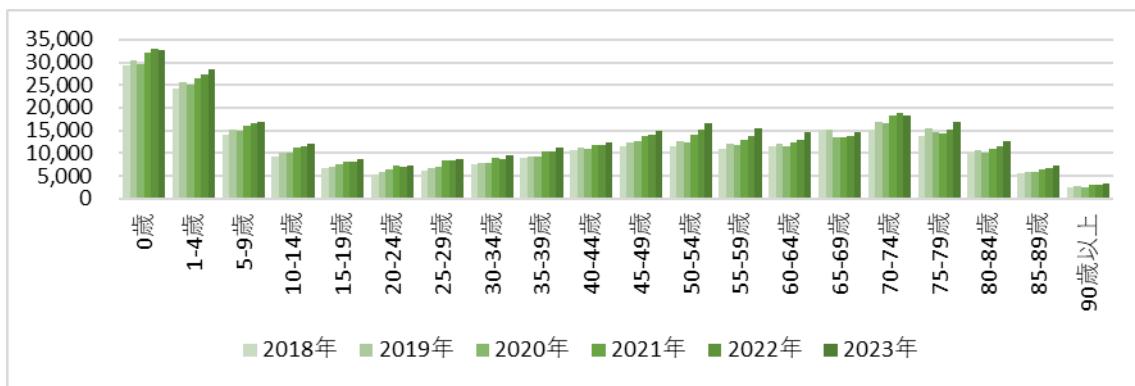


図 3 血管腫・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症関連疾患(全体) 年齢別 患者数

2) 血管腫・血管奇形関連疾患 性別・年齢別 患者数

表 21 血管腫・血管奇形関連疾患 性別 患者数

| 性別 | 2018年 | 2019年 | 2020年 | 2021年 | 2022年 | 2023年 |
|----|---------|---------|---------|---------|---------|---------|
| 男性 | 83,353 | 88,388 | 87,985 | 93,525 | 97,039 | 101,520 |
| 女性 | 133,699 | 143,630 | 140,189 | 153,689 | 158,075 | 167,455 |
| 計 | 217,052 | 232,018 | 228,174 | 247,214 | 255,114 | 268,975 |

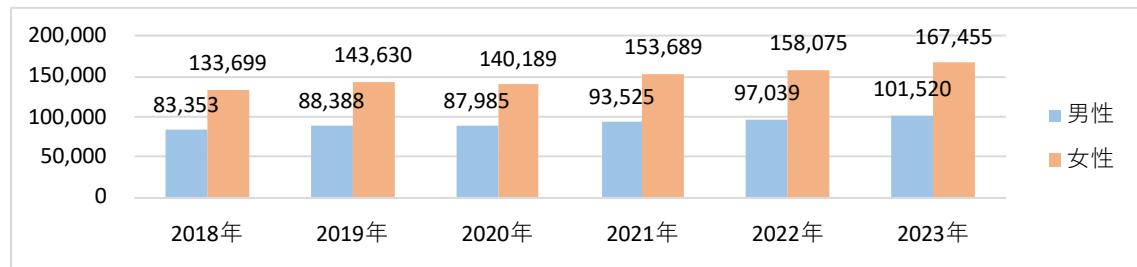


図 4 血管腫・血管奇形関連疾患 性別 患者数

表 22 血管腫・血管奇形関連疾患 年齢別 患者数

| 年齢 | 2018年 | 2019年 | 2020年 | 2021年 | 2022年 | 2023年 |
|--------|---------|---------|---------|---------|---------|---------|
| 0歳 | 28,963 | 30,083 | 29,329 | 31,795 | 32,676 | 32,446 |
| 1-4歳 | 23,081 | 24,550 | 24,098 | 25,308 | 26,319 | 27,402 |
| 5-9歳 | 12,960 | 13,939 | 13,730 | 14,991 | 15,491 | 15,795 |
| 10-14歳 | 8,385 | 9,197 | 9,474 | 10,308 | 10,602 | 11,180 |
| 15-19歳 | 6,158 | 6,488 | 7,046 | 7,557 | 7,711 | 8,174 |
| 20-24歳 | 5,075 | 5,467 | 6,136 | 6,846 | 6,712 | 6,943 |
| 25-29歳 | 5,851 | 6,271 | 6,767 | 8,176 | 8,028 | 8,378 |
| 30-34歳 | 7,074 | 7,386 | 7,549 | 8,573 | 8,400 | 9,136 |
| 35-39歳 | 8,592 | 8,862 | 8,960 | 9,939 | 9,853 | 10,681 |
| 40-44歳 | 10,038 | 10,626 | 10,382 | 11,417 | 11,189 | 11,873 |
| 45-49歳 | 10,877 | 11,855 | 11,990 | 13,038 | 13,396 | 14,370 |
| 50-54歳 | 10,830 | 12,028 | 11,680 | 13,443 | 14,464 | 15,882 |
| 55-59歳 | 10,350 | 11,368 | 11,150 | 12,258 | 13,161 | 14,607 |
| 60-64歳 | 10,758 | 11,487 | 10,841 | 11,713 | 12,288 | 13,787 |
| 65-69歳 | 14,274 | 14,247 | 12,609 | 12,686 | 12,960 | 13,613 |
| 70-74歳 | 14,232 | 15,905 | 15,599 | 17,012 | 17,644 | 17,256 |
| 75-79歳 | 12,837 | 14,417 | 13,531 | 13,357 | 14,247 | 15,737 |
| 80-84歳 | 9,327 | 9,858 | 9,482 | 10,117 | 10,763 | 11,708 |
| 85-89歳 | 5,129 | 5,528 | 5,377 | 5,930 | 6,321 | 6,809 |
| 90歳以上 | 2,261 | 2,456 | 2,444 | 2,750 | 2,889 | 3,198 |
| 計 | 217,052 | 232,018 | 228,174 | 247,214 | 255,114 | 268,975 |

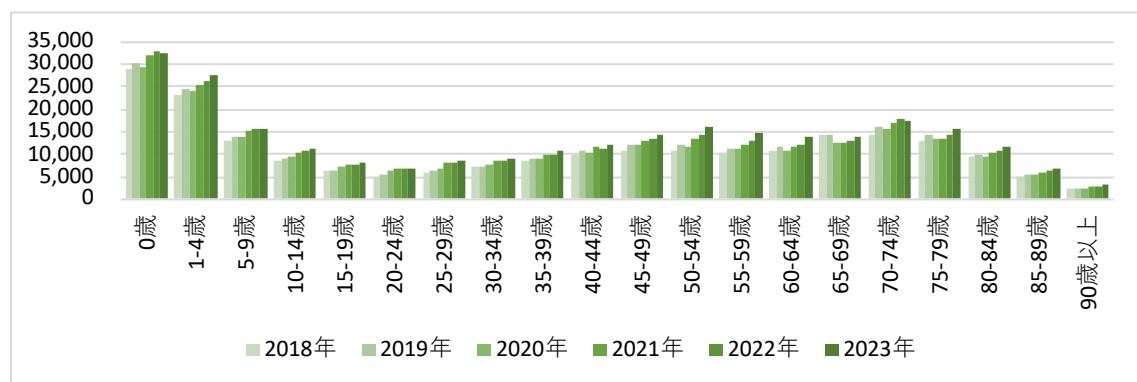


図 5 血管腫・血管奇形関連疾患 年齢別 患者数

3) リンパ管腫・リンパ管腫症関連疾患 性年齢別 患者数

表 23 リンパ管腫・リンパ管腫症関連疾患 性別 患者数

| 性別 | 2018年 | 2019年 | 2020年 | 2021年 | 2022年 | 2023年 |
|----|--------|--------|--------|--------|--------|--------|
| 男性 | 5,941 | 6,075 | 5,827 | 5,926 | 6,092 | 6,387 |
| 女性 | 7,576 | 7,706 | 7,382 | 7,758 | 7,907 | 8,176 |
| 計 | 13,517 | 13,781 | 13,209 | 13,684 | 13,999 | 14,563 |

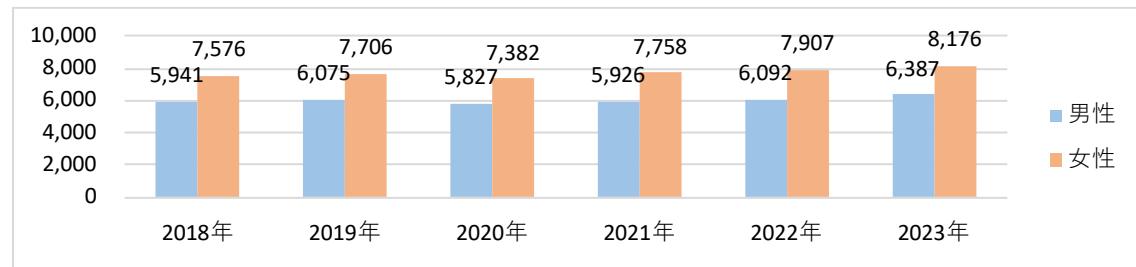


図 6 リンパ管腫・リンパ管腫症関連疾患 性別 患者数

表 24 リンパ管腫・リンパ管腫症関連疾患 年齢別 患者数

| 年齢 | 2018年 | 2019年 | 2020年 | 2021年 | 2022年 | 2023年 |
|--------|--------|--------|--------|--------|--------|--------|
| 0歳 | 453 | 425 | 396 | 403 | 412 | 369 |
| 1-4歳 | 1,310 | 1,303 | 1,215 | 1,220 | 1,160 | 1,165 |
| 5-9歳 | 1,306 | 1,322 | 1,246 | 1,257 | 1,284 | 1,307 |
| 10-14歳 | 903 | 936 | 878 | 917 | 934 | 987 |
| 15-19歳 | 628 | 644 | 553 | 599 | 629 | 685 |
| 20-24歳 | 391 | 420 | 401 | 410 | 442 | 459 |
| 25-29歳 | 332 | 349 | 359 | 372 | 369 | 383 |
| 30-34歳 | 404 | 351 | 337 | 373 | 362 | 375 |
| 35-39歳 | 418 | 439 | 392 | 428 | 441 | 446 |
| 40-44歳 | 542 | 535 | 530 | 524 | 500 | 541 |
| 45-49歳 | 645 | 628 | 607 | 673 | 681 | 694 |
| 50-54歳 | 626 | 673 | 675 | 702 | 773 | 825 |
| 55-59歳 | 657 | 705 | 675 | 702 | 737 | 765 |
| 60-64歳 | 739 | 736 | 738 | 737 | 791 | 790 |
| 65-69歳 | 981 | 931 | 883 | 843 | 864 | 918 |
| 70-74歳 | 1,025 | 1,079 | 1,102 | 1,200 | 1,222 | 1,193 |
| 75-79歳 | 929 | 1,014 | 974 | 1,000 | 986 | 1,102 |
| 80-84歳 | 688 | 732 | 700 | 734 | 777 | 868 |
| 85-89歳 | 385 | 386 | 369 | 422 | 448 | 504 |
| 90歳以上 | 155 | 173 | 179 | 168 | 187 | 187 |
| 計 | 13,517 | 13,781 | 13,209 | 13,684 | 13,999 | 14,563 |

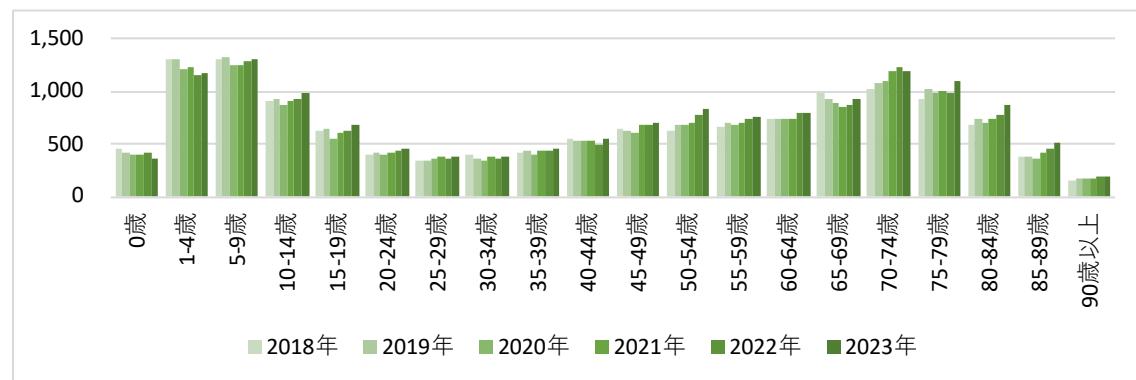


図 7 リンパ管腫・リンパ管腫症関連疾患 年齢別 患者数

4) ICD10:D69.4(その他の原発性血小板減少症) 性年齢別 患者数

表 25 ICD10:D69.4(その他の原発性血小板減少症) 性別 患者数

| 性別 | 2018 年 | 2019 年 | 2020 年 | 2021 年 | 2022 年 | 2023 年 |
|----|--------|--------|--------|--------|--------|--------|
| 男性 | 5,451 | 5,412 | 5,103 | 5,090 | 4,820 | 4,767 |
| 女性 | 8,892 | 8,801 | 8,251 | 8,339 | 8,022 | 7,942 |
| 計 | 14,343 | 14,213 | 13,354 | 13,429 | 12,842 | 12,709 |

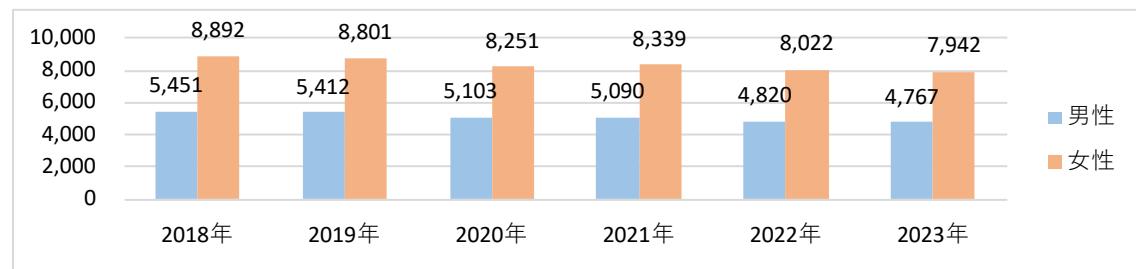


図 8 ICD10:D69.4(その他の原発性血小板減少症) 性別 患者数

表 26 ICD10:D69.4(その他の原発性血小板減少症) 年齢別 患者数

| 年齢 | 2018 年 | 2019 年 | 2020 年 | 2021 年 | 2022 年 | 2023 年 |
|---------|--------|--------|--------|--------|--------|--------|
| 0 歳 | 137 | 118 | 99 | 92 | 91 | 74 |
| 1-4 歳 | 559 | 599 | 475 | 436 | 401 | 445 |
| 5-9 歳 | 521 | 550 | 463 | 411 | 384 | 412 |
| 10-14 歳 | 394 | 426 | 354 | 372 | 351 | 359 |
| 15-19 歳 | 326 | 319 | 291 | 347 | 320 | 323 |
| 20-24 歳 | 227 | 233 | 201 | 203 | 199 | 208 |
| 25-29 歳 | 243 | 260 | 227 | 241 | 219 | 214 |
| 30-34 歳 | 333 | 296 | 263 | 260 | 234 | 230 |
| 35-39 歳 | 356 | 343 | 331 | 347 | 291 | 289 |
| 40-44 歳 | 457 | 418 | 368 | 348 | 334 | 351 |
| 45-49 歳 | 495 | 510 | 500 | 506 | 471 | 458 |
| 50-54 歳 | 501 | 511 | 480 | 510 | 524 | 532 |
| 55-59 歳 | 647 | 644 | 597 | 592 | 565 | 576 |
| 60-64 歳 | 810 | 786 | 726 | 767 | 680 | 688 |
| 65-69 歳 | 1,388 | 1,297 | 1,151 | 1,059 | 929 | 850 |
| 70-74 歳 | 1,530 | 1,579 | 1,645 | 1,703 | 1,698 | 1,477 |
| 75-79 歳 | 1,756 | 1,776 | 1,636 | 1,536 | 1,498 | 1,561 |
| 80-84 歳 | 1,682 | 1,615 | 1,563 | 1,613 | 1,557 | 1,529 |
| 85-89 歳 | 1,267 | 1,211 | 1,205 | 1,268 | 1,260 | 1,283 |
| 90 歳以上 | 714 | 722 | 779 | 818 | 836 | 850 |
| 計 | 14,343 | 14,213 | 13,354 | 13,429 | 12,842 | 12,709 |

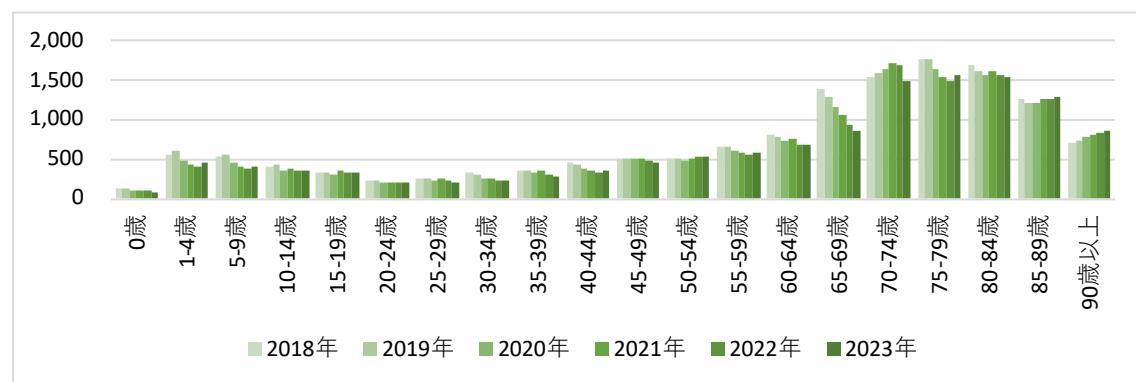


図 9 ICD10:D69.4(その他の原発性血小板減少症) 年齢別 患者数

5) カサバッハ・メリット症候群 性年齢別 患者数

表 27 カサバッハ・メリット症候群 性別 患者数

| 性別 | 2018 年 | 2019 年 | 2020 年 | 2021 年 | 2022 年 | 2023 年 |
|----|--------|--------|--------|--------|--------|--------|
| 男性 | 137 | 133 | 125 | 121 | 118 | 122 |
| 女性 | 190 | 194 | 174 | 183 | 180 | 178 |
| 計 | 327 | 327 | 299 | 304 | 298 | 300 |

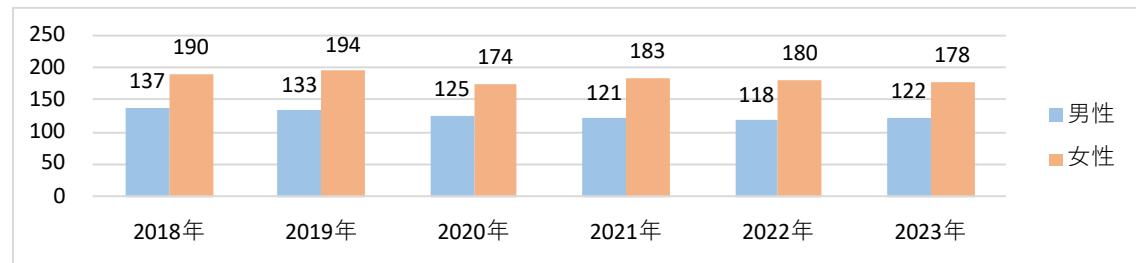


図 10 カサバッハ・メリット症候群 性別 患者数

表 28 カサバッハ・メリット症候群 年齢別 患者数

| 年齢 | 2018 年 | 2019 年 | 2020 年 | 2021 年 | 2022 年 | 2023 年 |
|--------|--------|--------|--------|--------|--------|--------|
| 0歳 | 32 | 31 | 29 | 22 | 17 | 21 |
| 1-9歳 | 117 | 115 | 110 | 118 | 122 | 106 |
| 10-19歳 | 57 | 62 | 51 | 55 | 48 | 62 |
| 20-29歳 | 14 | 13 | 14 | 15 | 18 | 15 |
| 30-39歳 | 14 | 15 | 13 | 10 未満 | 10 未満 | 10 未満 |
| 40-49歳 | 21 | 19 | 18 | 19 | 27 | 23 |
| 50-59歳 | 16 | 19 | 18 | 16 | 15 | 24 |
| 60-69歳 | 20 | 18 | 14 | 20 | 17 | 15 |
| 70-79歳 | 19 | 21 | 22 | 21 | 17 | 19 |
| 80歳以上 | 17 | 14 | 10 | 10 程度 | 10 程度 | 10 未満 |
| 計 | 327 | 327 | 299 | 304 | 298 | 300 |

NDB のガイドラインでは、患者数 10 未満は公表不可(患者数が 0 の場合を除く)と規定されている。

これに従い、患者数が 10 未満の場合は、「10 未満」、10 以上の場合は合計より逆算可能な場合は「○程度」と表記し、10 未満の患者数は、公表しない。

また、便宜上、グラフでは、10 未満を 10 としている。

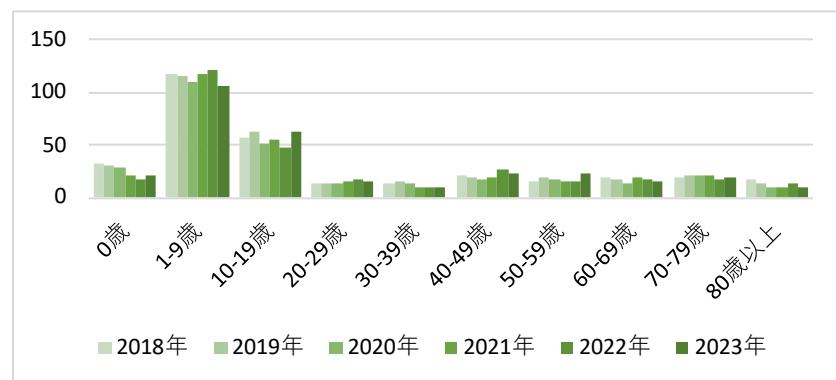


図 11 カサバッハ・メリット症候群 年齢別 患者数

6) 指定難病227_オスラー病 性年齢別 患者数

表 29 指定難病 227_オスラー病 性別 患者数

| 性別 | 2018 年 | 2019 年 | 2020 年 | 2021 年 | 2022 年 | 2023 年 |
|----|--------|--------|--------|--------|--------|--------|
| 男性 | 776 | 910 | 978 | 1,044 | 1,119 | 1,221 |
| 女性 | 989 | 1,178 | 1,265 | 1,410 | 1,539 | 1,620 |
| 計 | 1,765 | 2,088 | 2,243 | 2,454 | 2,658 | 2,841 |

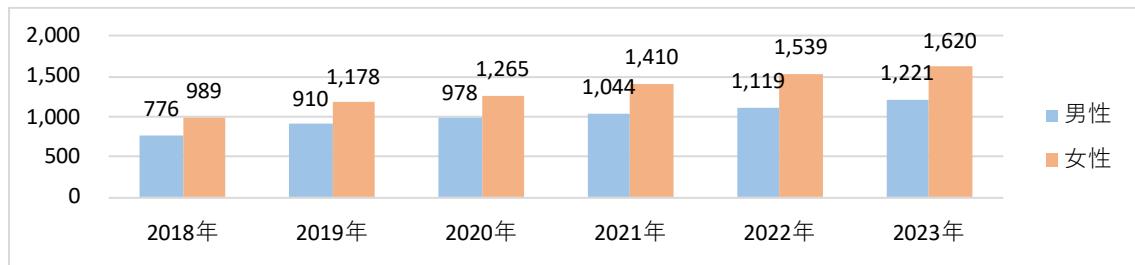


図 12 指定難病 227_オスラー病 性別 患者数

表 30 指定難病 227_オスラー病 年齢別 患者数

| 年齢 | 2018 年 | 2019 年 | 2020 年 | 2021 年 | 2022 年 | 2023 年 |
|---------|--------|--------|--------|--------|--------|--------|
| 0 歳 | 10 未満 |
| 1-4 歳 | 10 程度 | 20 程度 | 10 程度 | 10 程度 | 20 程度 | 20 程度 |
| 5-9 歳 | 23 | 27 | 21 | 31 | 36 | 37 |
| 10-14 歳 | 37 | 48 | 40 | 53 | 49 | 58 |
| 15-19 歳 | 46 | 62 | 68 | 81 | 88 | 85 |
| 20-24 歳 | 40 | 44 | 64 | 65 | 83 | 88 |
| 25-29 歳 | 60 | 70 | 69 | 76 | 78 | 77 |
| 30-34 歳 | 54 | 63 | 87 | 93 | 107 | 114 |
| 35-39 歳 | 71 | 93 | 104 | 103 | 101 | 120 |
| 40-44 歳 | 96 | 128 | 125 | 140 | 147 | 155 |
| 45-49 歳 | 110 | 126 | 158 | 182 | 221 | 234 |
| 50-54 歳 | 161 | 181 | 185 | 197 | 222 | 229 |
| 55-59 歳 | 157 | 188 | 193 | 217 | 232 | 280 |
| 60-64 歳 | 137 | 163 | 180 | 217 | 238 | 270 |
| 65-69 歳 | 199 | 210 | 217 | 217 | 238 | 238 |
| 70-74 歳 | 214 | 258 | 263 | 281 | 294 | 290 |
| 75-79 歳 | 167 | 206 | 222 | 229 | 223 | 265 |
| 80-84 歳 | 120 | 125 | 141 | 153 | 176 | 166 |
| 85-89 歳 | 32 | 55 | 71 | 83 | 80 | 87 |
| 90 歳以上 | 21 | 22 | 17 | 17 | 21 | 21 |
| 計 | 1,765 | 2,088 | 2,243 | 2,454 | 2,658 | 2,841 |

NDB のガイドラインでは、患者数 10 未満は公表不可(患者数が 0 の場合を除く)と規定されている。

これに従い、患者数が 10 未満の場合は、「10 未満」、10 以上の場合も合計より逆算可能な場合は「○程度」と表記し、10 未満の患者数は、公表しない。

また、便宜上、グラフでは、10 未満を 10 としている。

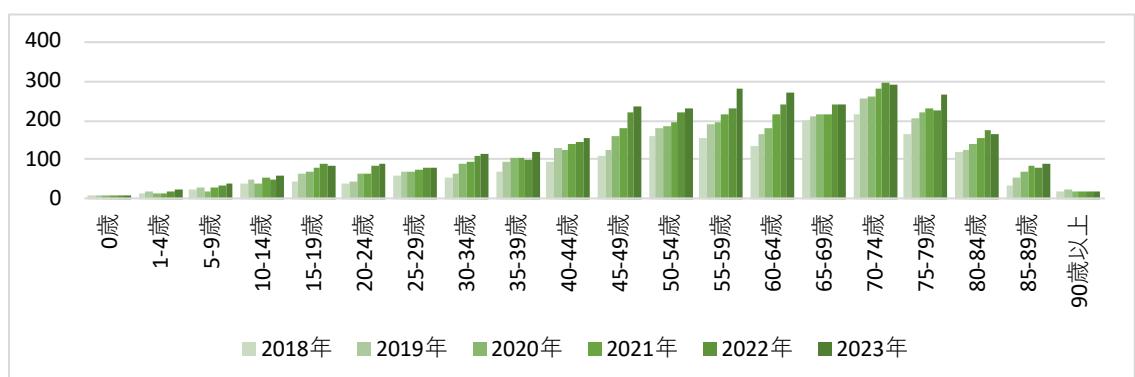


図 13 指定難病 227_オスラー病 年齢別 患者数

7) 青色ゴムまり様母斑症候群 性年齢別 患者数

表 31 青色ゴムまり様母斑症候群 性別 患者数

| 性別 | 2018 年 | 2019 年 | 2020 年 | 2021 年 | 2022 年 | 2023 年 |
|----|--------|--------|--------|--------|--------|--------|
| 男性 | 39 | 40 | 43 | 35 | 39 | 45 |
| 女性 | 54 | 66 | 61 | 68 | 63 | 74 |
| 計 | 93 | 106 | 104 | 103 | 102 | 119 |

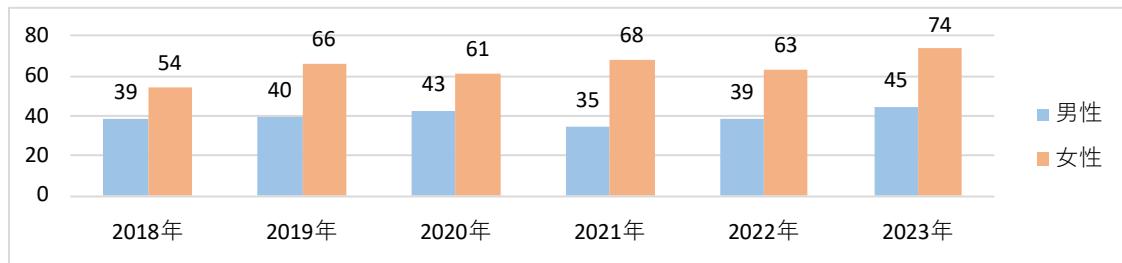


図 14 青色ゴムまり様母斑症候群 性別 患者数

表 32 青色ゴムまり様母斑症候群 年齢別 患者数

| 年齢 | 2018 年 | 2019 年 | 2020 年 | 2021 年 | 2022 年 | 2023 年 |
|--------|--------|--------|--------|--------|--------|--------|
| 0歳 | 10未満 | 10未満 | 10未満 | 10未満 | 10未満 | 10未満 |
| 1-9歳 | 12 | 11 | 12 | 10 | 10 | 10未満 |
| 10-19歳 | 14 | 13 | 11 | 10 | 12 | 16 |
| 20-29歳 | 10未満 | 10未満 | 10 | 10 | 13 | 13 |
| 30-39歳 | 11 | 12 | 12 | 12 | 10未満 | 14 |
| 40-49歳 | 13 | 15 | 16 | 15 | 17 | 20 |
| 50-59歳 | 10未満 | 13 | 14 | 14 | 13 | 15 |
| 60-69歳 | 12 | 15 | 14 | 13 | 10 | 10未満 |
| 70-79歳 | 10未満 | 10未満 | 10未満 | 10 | 11 | 18 |
| 80歳以上 | 10未満 | 10未満 | 10未満 | 10未満 | 10未満 | 10未満 |
| 計 | 93 | 106 | 104 | 103 | 102 | 119 |

NDB のガイドラインでは、患者数 10 未満は公表不可(患者数が 0 の場合を除く)と規定されている。

これに従い、患者数が 10 未満の場合は、「10 未満」、10 以上の場合も合計より逆算可能な場合は「○程度」と表記し、10 未満の患者数は、公表しない。

また、便宜上、グラフでは、10 未満を 10 としている。

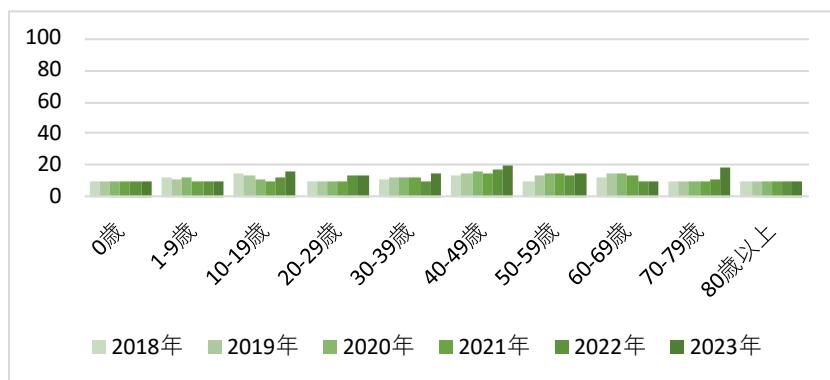


図 15 青色ゴムまり様母斑症候群 年齢別 患者数

8) 指定難病277_リンパ管腫症/ゴーハム病 性年齢別 患者数

表 33 指定難病 277_リンパ管腫症/ゴーハム病 性別 患者数

| 性別 | 2018 年 | 2019 年 | 2020 年 | 2021 年 | 2022 年 | 2023 年 |
|----|--------|--------|--------|--------|--------|--------|
| 男性 | 156 | 197 | 169 | 215 | 254 | 284 |
| 女性 | 178 | 218 | 228 | 276 | 312 | 367 |
| 計 | 334 | 415 | 397 | 491 | 566 | 651 |

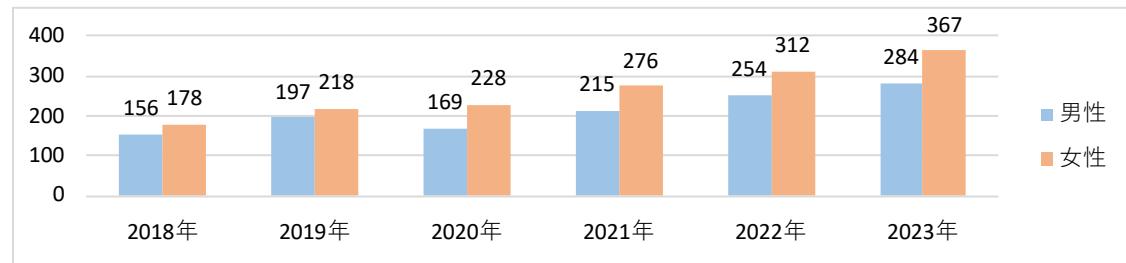


図 16 指定難病 277_リンパ管腫症/ゴーハム病 性別 患者数

表 34 指定難病 277_リンパ管腫症/ゴーハム病 患者数

| 年齢 | 2018 年 | 2019 年 | 2020 年 | 2021 年 | 2022 年 | 2023 年 |
|--------|--------|--------|--------|--------|--------|--------|
| 0歳 | 11 | 16 | 10 | 15 | 16 | 26 |
| 1-9歳 | 52 | 67 | 57 | 73 | 88 | 102 |
| 10-19歳 | 53 | 67 | 46 | 50 | 69 | 84 |
| 20-29歳 | 31 | 47 | 47 | 57 | 54 | 65 |
| 30-39歳 | 28 | 32 | 28 | 40 | 51 | 62 |
| 40-49歳 | 36 | 45 | 50 | 61 | 64 | 66 |
| 50-59歳 | 32 | 35 | 46 | 45 | 55 | 68 |
| 60-69歳 | 29 | 33 | 39 | 46 | 61 | 65 |
| 70-79歳 | 31 | 41 | 53 | 69 | 70 | 76 |
| 80歳以上 | 31 | 32 | 21 | 35 | 38 | 37 |
| 計 | 334 | 415 | 397 | 491 | 566 | 651 |

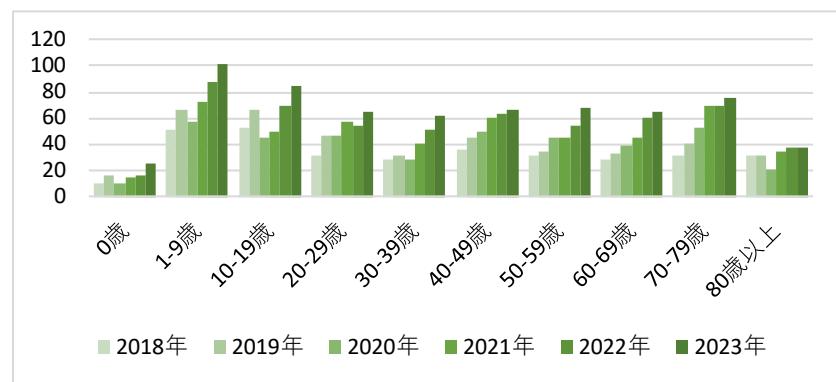


図 17 指定難病 277_リンパ管腫症/ゴーハム病 患者数

9) 指定難病278_巨大リンパ管奇形(頸部顔面病変) 性年齢別 患者数

表 35 指定難病 278_巨大リンパ管奇形(頸部顔面病変) 性別 患者数

| 性別 | 2018 年 | 2019 年 | 2020 年 | 2021 年 | 2022 年 | 2023 年 |
|----|--------|--------|--------|--------|--------|--------|
| 男性 | 18 | 36 | 40 | 42 | 46 | 68 |
| 女性 | 34 | 38 | 45 | 51 | 61 | 66 |
| 計 | 52 | 74 | 85 | 93 | 107 | 134 |

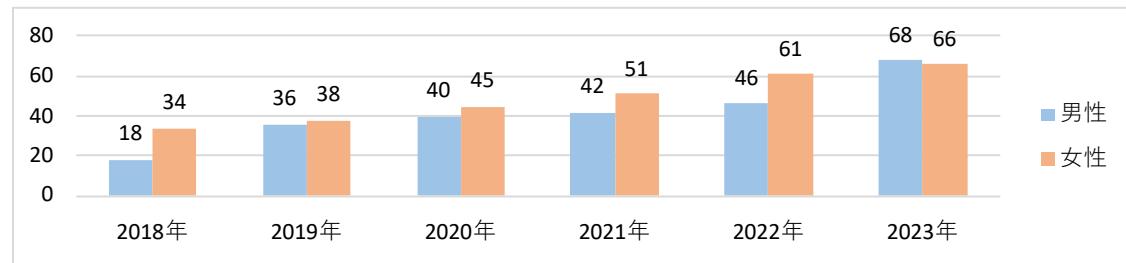


図 18 指定難病 278_巨大リンパ管奇形(頸部顔面病変) 性別 患者数

表 36 指定難病 278_巨大リンパ管奇形(頸部顔面病変) 患者数

| 年齢 | 2018 年 | 2019 年 | 2020 年 | 2021 年 | 2022 年 | 2023 年 |
|--------|--------|--------|--------|--------|--------|--------|
| 0歳 | 13 | 13 | 14 | 12 | 14 | 18 |
| 1-9歳 | 23 | 35 | 41 | 50 | 51 | 60 |
| 10-19歳 | 10 | 14 | 14 | 16 | 15 | 21 |
| 20-29歳 | 10 未満 | 10 未満 | 10 未満 | 10 未満 | 13 | 14 |
| 30-39歳 | 0 | 10 未満 | 10 未満 | 10 未満 | 10 未満 | 13 |
| 40-49歳 | 0 | 10 未満 |
| 50-59歳 | 10 未満 |
| 60-69歳 | 0 | 10 未満 | 10 未満 | 0 | 10 未満 | 0 |
| 70-79歳 | 10 未満 | 10 未満 | 10 未満 | 0 | 10 未満 | 10 未満 |
| 80歳以上 | 10 未満 | 0 | 0 | 10 未満 | 10 未満 | 10 未満 |
| 計 | 52 | 74 | 85 | 93 | 107 | 134 |

NDB のガイドラインでは、患者数 10 未満は公表不可(患者数が 0 の場合を除く)と規定されている。

これに従い、患者数が 10 未満の場合は、「10 未満」、10 以上の場合は合計より逆算可能な場合は「○程度」と表記し、10 未満の患者数は、公表しない。

また、便宜上、グラフでは、10 未満を 10 としている。

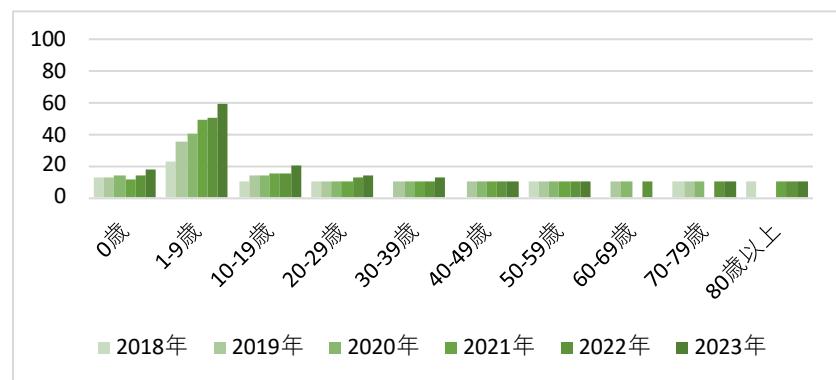


図 19 指定難病 278_巨大リンパ管奇形(頸部顔面病変) 患者数

10)指定難病279_巨大静脈奇形(頸部口腔咽頭びまん性病変) 性年齢別 患者数

表 37 指定難病 279_巨大静脈奇形(頸部口腔咽頭びまん性病変) 性別 患者数

| 性別 | 2018 年 | 2019 年 | 2020 年 | 2021 年 | 2022 年 | 2023 年 |
|----|--------|--------|--------|--------|--------|--------|
| 男性 | 16 | 28 | 26 | 22 | 23 | 31 |
| 女性 | 27 | 34 | 33 | 42 | 39 | 43 |
| 計 | 43 | 62 | 59 | 64 | 62 | 74 |

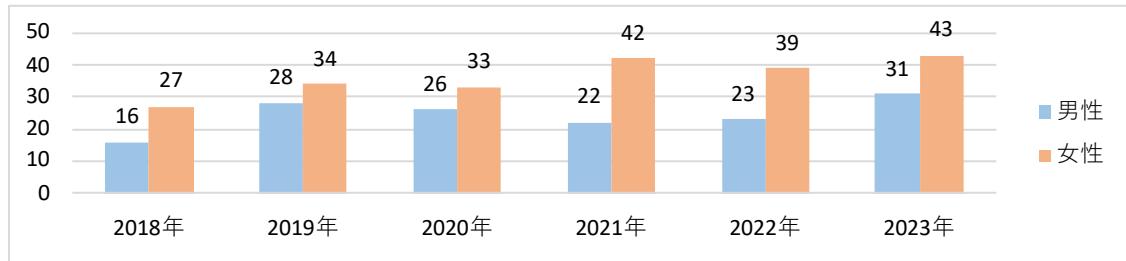


図 20 指定難病 279_巨大静脈奇形(頸部口腔咽頭びまん性病変) 性別 患者数

表 38 指定難病 279_巨大静脈奇形(頸部口腔咽頭びまん性病変) 患者数

| 年齢 | 2018 年 | 2019 年 | 2020 年 | 2021 年 | 2022 年 | 2023 年 |
|---------|--------|--------|--------|--------|--------|--------|
| 0 歳 | 0 | 10 未満 | 10 未満 | 10 未満 | 0 | 10 未満 |
| 1-9 歳 | 10 未満 |
| 10-19 歳 | 10 未満 | 12 | 10 未満 | 11 | 10 未満 | 11 |
| 20-29 歳 | 10 未満 | 11 | 10 未満 | 10 未満 | 10 未満 | 10 |
| 30-39 歳 | 10 未満 |
| 40-49 歳 | 10 未満 | 11 |
| 50-59 歳 | 10 未満 |
| 60-69 歳 | 10 未満 |
| 70-79 歳 | 10 未満 |
| 80 歳以上 | 0 | 10 未満 | 10 未満 | 0 | 10 未満 | 10 未満 |
| 計 | 43 | 62 | 59 | 64 | 62 | 74 |

NDB のガイドラインでは、患者数 10 未満は公表不可(患者数が 0 の場合を除く)と規定されている。

これに従い、患者数が 10 未満の場合は、「10 未満」、10 以上の場合も合計より逆算可能な場合は「○程度」と表記し、10 未満の患者数は、公表しない。

また、便宜上、グラフでは、10 未満を 10 としている。

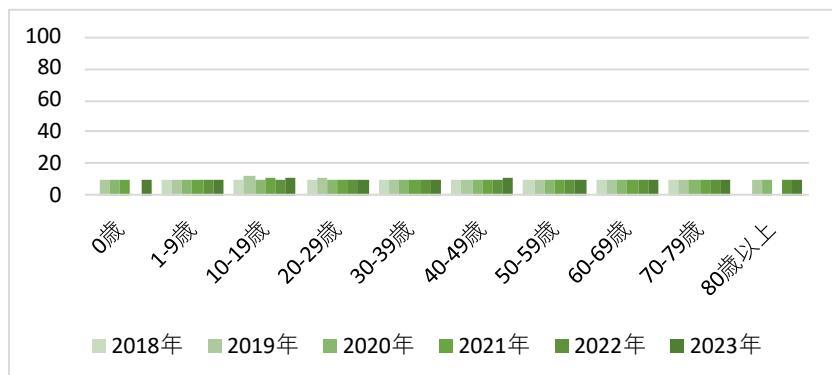


図 21 指定難病 279_巨大静脈奇形(頸部口腔咽頭びまん性病変) 患者数

11)指定難病280_巨大動脈奇形(頸部顔面又は四肢病変) 性年齢別 患者数

表 39 指定難病 280_巨大動脈奇形(頸部顔面又は四肢病変) 性別 患者数

| 性別 | 2018 年 | 2019 年 | 2020 年 | 2021 年 | 2022 年 | 2023 年 |
|----|--------|--------|--------|--------|--------|--------|
| 男性 | 110 | 154 | 146 | 162 | 163 | 184 |
| 女性 | 120 | 154 | 167 | 186 | 190 | 220 |
| 計 | 230 | 308 | 313 | 348 | 353 | 404 |

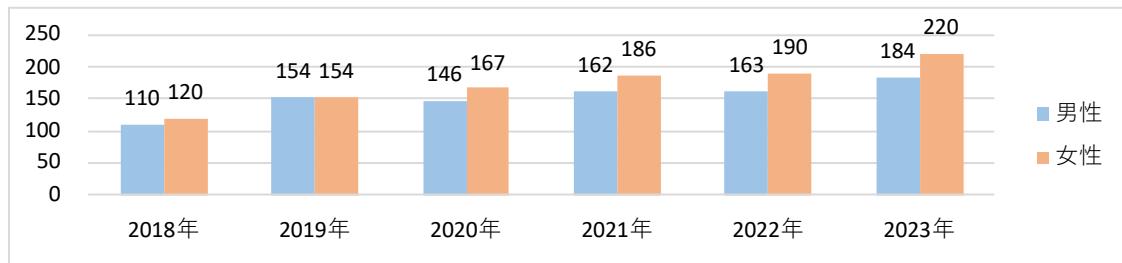


図 22 指定難病 280_巨大動脈奇形(頸部顔面又は四肢病変) 患者数

表 40 指定難病 280_巨大動脈奇形(頸部顔面又は四肢病変) 患者数

| 年齢 | 2018 年 | 2019 年 | 2020 年 | 2021 年 | 2022 年 | 2023 年 |
|---------|--------|--------|--------|--------|--------|--------|
| 0 歳 | 10 未満 | 11 | 10 未満 | 10 未満 | 10 未満 | 10 未満 |
| 1-9 歳 | 19 | 22 | 30 | 36 | 30 | 33 |
| 10-19 歳 | 38 | 39 | 41 | 43 | 36 | 51 |
| 20-29 歳 | 41 | 40 | 45 | 48 | 56 | 60 |
| 30-39 歳 | 25 | 33 | 44 | 49 | 53 | 54 |
| 40-49 歳 | 38 | 56 | 54 | 62 | 60 | 69 |
| 50-59 歳 | 26 | 41 | 31 | 39 | 47 | 53 |
| 60-69 歳 | 16 | 22 | 22 | 25 | 29 | 30 |
| 70-79 歳 | 16 | 31 | 24 | 29 | 23 | 32 |
| 80 歳以上 | 10 未満 | 13 | 10 度 | 10 度 | 10 度 | 20 度 |
| 計 | 230 | 308 | 313 | 348 | 353 | 404 |

NDB のガイドラインでは、患者数 10 未満は公表不可(患者数が 0 の場合を除く)と規定されている。

これに従い、患者数が 10 未満の場合は、「10 未満」、10 以上の場合は合計より逆算可能な場合は「○度」と表記し、10 未満の患者数は、公表しない。

また、便宜上、グラフでは、10 未満を 10 としている。

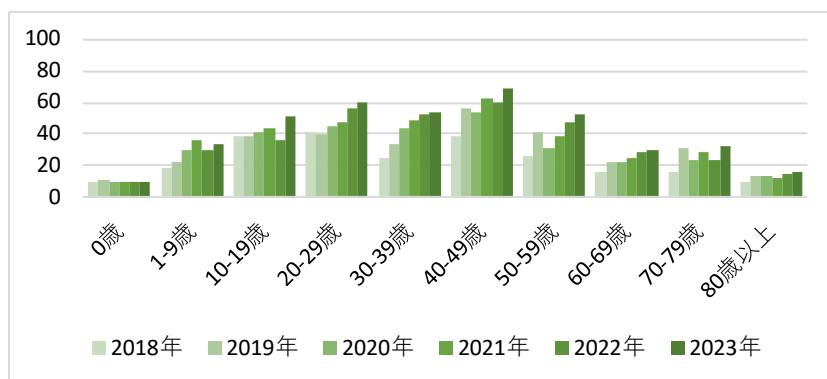


図 23 指定難病 280_巨大動脈奇形(頸部顔面又は四肢病変) 患者数

12)指定難病281_クリッペル・トレノネー・ウェーバー症候群 性年齢別 患者数

表 41 指定難病 281_クリッペル・トレノネー・ウェーバー症候群 性別 患者数

| 性別 | 2018 年 | 2019 年 | 2020 年 | 2021 年 | 2022 年 | 2023 年 |
|----|--------|--------|--------|--------|--------|--------|
| 男性 | 536 | 589 | 570 | 611 | 590 | 633 |
| 女性 | 678 | 742 | 717 | 794 | 786 | 828 |
| 計 | 1,214 | 1,331 | 1,287 | 1,405 | 1,376 | 1,461 |

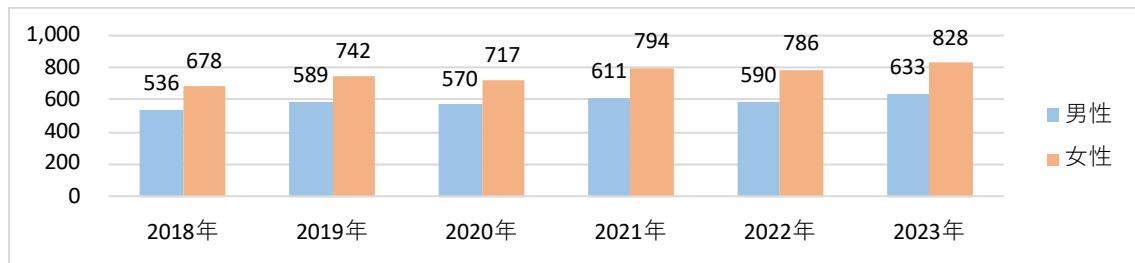


図 24 指定難病 281_クリッペル・トレノネー・ウェーバー症候群 性別 患者数

表 42 指定難病 281_クリッペル・トレノネー・ウェーバー症候群 年齢別 患者数

| 年齢 | 2018 年 | 2019 年 | 2020 年 | 2021 年 | 2022 年 | 2023 年 |
|--------|--------|--------|--------|--------|--------|--------|
| 0歳 | 33 | 42 | 49 | 50 | 39 | 35 |
| 1-4歳 | 123 | 101 | 101 | 103 | 97 | 114 |
| 5-9歳 | 183 | 184 | 164 | 161 | 163 | 155 |
| 10-14歳 | 115 | 138 | 132 | 157 | 165 | 181 |
| 15-19歳 | 109 | 119 | 110 | 112 | 113 | 111 |
| 20-24歳 | 77 | 75 | 69 | 89 | 82 | 92 |
| 25-29歳 | 63 | 72 | 71 | 75 | 83 | 78 |
| 30-34歳 | 69 | 75 | 77 | 72 | 66 | 70 |
| 35-39歳 | 53 | 70 | 62 | 90 | 81 | 90 |
| 40-44歳 | 61 | 70 | 71 | 70 | 66 | 70 |
| 45-49歳 | 74 | 87 | 77 | 86 | 72 | 78 |
| 50-54歳 | 62 | 67 | 72 | 85 | 85 | 97 |
| 55-59歳 | 48 | 55 | 57 | 68 | 67 | 68 |
| 60-64歳 | 32 | 38 | 41 | 41 | 46 | 58 |
| 65-69歳 | 43 | 51 | 44 | 42 | 45 | 44 |
| 70-74歳 | 32 | 45 | 39 | 53 | 48 | 51 |
| 75-79歳 | 26 | 25 | 27 | 23 | 25 | 28 |
| 80歳以上 | 11 | 17 | 24 | 28 | 33 | 41 |
| 計 | 1,214 | 1,331 | 1,287 | 1,405 | 1,376 | 1,461 |

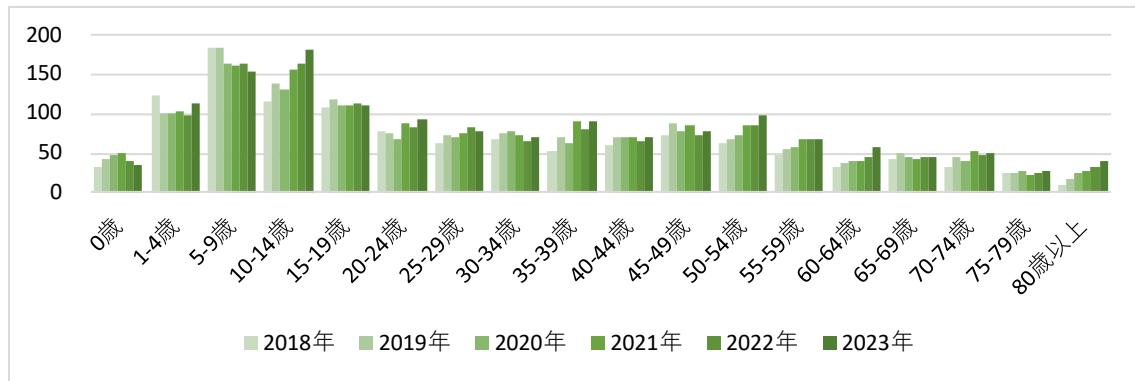


図 25 指定難病 281_クリッペル・トレノネー・ウェーバー症候群 年齢別 患者数

D. 考察・結論

今年度の研究では、対象となる傷病名コードの有無に基づいて患者数を算出した。NDB データには、検査結果や診察所見といった臨床情報が含まれていないため、診断基準に準拠した厳密な患者判別はできない。しかし、治療内容や医療費情報(公費助成の有無)などを組み合わせて判別することで、抽出精度を高めることが可能である。

来年度は、地域別患者数、治療の有無(再建切除術、硬化療法、塞栓術など)、併存疾患の有無、医療費情報(公費助成の有無)などの集計を行う予定であり、これらの情報を併せて活用することで、より精度をあげた患者数の見直しを行う。

E. 健康危険情報

なし

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(予定を含む。)

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（難治性疾患等政策研究事業（難治性疾患政策研究事業））

分担研究報告書

難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・ リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究

分担課題

難治性リンパ管疾患等の診断基準・ガイドライン作成および 希少難治性脈管異常（脈管系腫瘍・脈管奇形）疾患レジストリに関する研究

研究分担者氏名 小関道夫 岐阜大学大学院医学系研究科小児病態学 講師

研究要旨

難治性リンパ管疾患とは、リンパ管腫症、ゴーハム病、リンパ管拡張症を指す。脈管異常の国際分類である International Society for the Study of Vascular Anomalies (ISSVA) 分類においては、これらは最も頻度の高い囊胞性リンパ管奇形と同じ Lymphatic malformations (LMS) に分類されているが、頻度が稀なだけでなく、様々な特徴を有し、未だ不明な点が多い。また、これらの臨床症状はオーバーラップしており、鑑別が困難な場合が多い。これらの疾患を理解し、正確に鑑別することは的確な治療方針の決定に結び付くと考える。

本年度は、小児慢性特定疾病における記載内容が現状に合わない点があったため、修正案を作成した。疾患は難治性リンパ管疾患であるリンパ管腫、リンパ管腫症だけでなく、青色ゴムまり様母斑症候群、巨大静脈奇形、クリッペル・トレノネー・ウェーバー症候群、カサバッハ・メリット現象（症候群）になる。

以前からの記載とは大きく変わったが、シロリムスが本邦において 2021 年 9 月に難治性リンパ管疾患に、2024 年 1 月にその他の難治性脈管異常である、青色ゴムまり様母斑症候群、静脈奇形、クリッペル・トレノネー・ウェーバー症候群、カサバッハ・メリット現象にも薬事承認となつたため、それらの情報を盛り込んだ形となつた。

さらに研究班においては、2020 年よりガイドラインの改訂が開始となり、2023 年 3 月に「血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形・リンパ管腫症 診療ガイドライン 2022」が完成となつた。難治性リンパ管疾患についても、第 2 版の CQ をそのままに、再度文献検索を行い、情報をアップデートした。特に CQ 3.5.（旧 CQ 3.3）「難治性の乳び胸水や心嚢液貯留、呼吸障害を呈するリンパ管腫症やゴーハム病に対して有効な治療法は何か？」においてはシロリムスが初めて優先される薬剤であることを示した。また小児科チームとして、乳児血管腫に対するプロプラノロールの副作用の予防法およびカサバッハ・メリット現象に対する治療法に関する CQ も作成した。また今後は、研究班で取り扱う「希少難治性脈管異常（脈管系腫瘍・脈管奇形）疾患」について、難病プラットフォーム事業の元で、「難治性リンパ管疾患レジストリ」を構築し、新たな疾患情報や、診断、治療法の研究、また遺伝子解析、臨床研究、治験などにも応用していきたい。

A. 研究目的

難治性リンパ管疾患とは、リンパ管腫症、ゴーハム病、リンパ管拡張症を指す。脈管異常の国際分類である International Society for the Study of Vascular Anomalies (ISSVA) 分類においては、これらは最も頻度の高い囊胞性リンパ管奇形と同じ Lymphatic malformations (LMS) に分類されているが、頻度が稀なだけでなく、様々な特徴を有し、未だ不明な点が多い。また、これらの臨床症状はオーバーラップしており、鑑別が困難な場合が多い。これらの疾患を理解し、正確に鑑別することは的確な治療方針の決定に結び付くと考える。

本年度は、小児慢性特定疾病における記

載内容が現状に合わない点があったため、修正案を作成した。疾患は難治性リンパ管疾患であるリンパ管腫、リンパ管腫症だけでなく、青色ゴムまり様母斑症候群、巨大静脈奇形、クリッペル・トレノネー・ウェーバー症候群、カサバッハ・メリット現象（症候群）になる。

以前からの記載とは大きく変わったが、シロリムスが本邦において 2021 年 9 月に難治性リンパ管疾患に、2024 年 1 月にその他の難治性脈管異常である、青色ゴムまり様母斑症候群、静脈奇形、クリッペル・トレノネー・ウェーバー症候群、カサバッハ・メリット現象にも薬事承認となつたため、それらの情報を盛り込んだ形となつた。

さらに研究班においては、2020年よりガイドラインの改訂が開始となり、難治性リンパ管疾患についても、第2版のCQをそのままに、再度文献検索を行い、情報をアップデートする。さらにリンパ管疾患以外に小児科班として乳児血管腫に対するプロプラノロールの副作用の予防法およびカサバッハ・メリット現象に対する治療法に関するCQも作成する。

また研究班で取り扱う「希少難治性脈管異常（脈管系腫瘍・脈管奇形）疾患」について、難病プラットフォーム事業の元で、「難治性リンパ管疾患レジストリ」を構築する。

B. 研究方法

1. 小児慢性特定疾患の記載の見直し

(a) 記載の見直し

小児慢性特定疾患の難治性リンパ管疾患であるリンパ管腫、リンパ管腫症だけでなく、青色ゴムまり様母斑症候群、巨大静脈奇形、クリッペル・トレノネー・ウェーバー症候群、カサバッハ・メリット現象（症候群）になる。

シロリムスが本邦において2021年9月に難治性リンパ管疾患に、2024年1月にその他の難治性脈管異常である、青色ゴムまり様母斑症候群、静脈奇形、クリッペル・トレノネー・ウェーバー症候群、カサバッハ・メリット現象にも薬事承認となつたため、それらの情報を盛り込んだ形となつた。今回はこれらを実情に合わせて見直す。

2. ガイドラインの改訂

(a) 関連CQの見直し

リンパ管疾患に関するCQを見直し、新たなCQの作成、および修正を行う。ガイドライン作成委員、SRチーム（小児科、リンパ管疾患）と連携し、目標時期までにまとめる。今回、小児科としても新たに乳児血管腫に対するプロプラノロールの副作用の予防法およびカサバッハ・メリット現象に対する治療法に関するCQも作成する。

(b) ガイドライン改訂

「血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形・リンパ管腫症 診療ガイドライン」の改訂のため、予定通りに総説の作成（ISSVA分類、乳児血管腫の副作用対策、リンパ管腫症）、各CQ作成、および各学会などパブリックコメントの実施と対応、発行を行う。

3. レジストリ作成と情報公開

(a) 希少難治性脈管異常（脈管系腫瘍・脈管奇形）疾患」レジストリ作成

本研究班が取り扱っている、希少難治性脈管異常（脈管系腫瘍・脈管奇形）疾患について、前向き、永続的なレジストリシステム

を構築する。症例登録を開始し、データ収集体制を構築する。

(b) 情報公開

市民公開講座やホームページ上で難治性リンパ管疾患、脈管異常、薬物療法の情報を公開する。

（倫理面への配慮）

全国調査は複数の医療機関に依頼し、診療情報を調査・集計し、解析して患者数、実際の治療、予後、社会生活レベル等を明らかにし、現在の考え得る最善の治療指針を作成し、また医療全体における当疾患の位置づけを行うことを目的としており、厚生労働省の「疫学研究における倫理指針」の適応範囲に合致する。集計されるデータは、「連結可能匿名化された情報」「観察研究である」

「被験者の心理的苦痛を伴わない」ものであると考えられる。人権擁護については厚生労働省の「疫学研究における倫理指針」に準拠しており、プライバシーの保護、不利益・危険性の排除については特に厳守した研究計画を作成する。現計画では倫理問題に抵触する研究は含まれないと考えられるが、研究計画は研究に協力する各施設における倫理審査委員会へ必ず提出し、厳正な審理の後に承認を受けた上で実行に移す。また施行後も岐阜大学倫理審査委員会により、定期的な監査・モニタリングがおこなわれる。

本疫学研究は岐阜大学大学院医学系研究科医学研究等倫理審査委員会にて「難治性血管・リンパ管疾患患者のレジストリシステム構築に関する研究」として承認済みである。

C. 研究結果

1. 小児慢性特定疾患の記載の見直し

(a) 記載の見直し

小児慢性特定疾患の難治性リンパ管疾患であるリンパ管腫、リンパ管腫症だけでなく、青色ゴムまり様母斑症候群、巨大静脈奇形、クリッペル・トレノネー・ウェーバー症候群、カサバッハ・メリット現象（症候群）になる。主にシロリムスが本邦において2021年9月に難治性リンパ管疾患に、2024年1月にその他の難治性脈管異常である、青色ゴムまり様母斑症候群、静脈奇形、クリッペル・トレノネー・ウェーバー症候群、カサバッハ・メリット現象にも薬事承認となつたため、それらの情報を盛り込んだ形となつた。

1) 青色ゴムまり様母斑症候群

内科的治療としてステロイド、インター フェロン、プロプラノロールが用いられているが、その効果は限定的である。保険適応外であるがmTOR阻害剤（シロリムス、エベロリムス）などが試みられ有効

性が報告されており、今後の臨床データの集積が待たれる 4), 5)。

→

内科的治療としてステロイド、インターフェロン、プロプラノロールが用いられているが、その効果は限定的である。mTOR 阻害剤であるシロリムスの有効性が報告されており 4), 5)、本邦においては 2024 年に青色ゴムまり様母斑症候群を含む難治性脈管奇形に薬事承認された。

2) リンパ管奇形 (リンパ管腫)

日本ではピシバニールのみが保険適応となっている。海綿状リンパ管奇形 (microcystic LM) の場合は、硬化療法が無効な場合が多く、切除術が必要となる。広範囲であったり、周辺に重要な臓器があるなど全摘出が出来ない場合もある。薬物療法は、病変の治療においてコンセンサスが得られているものはない。近年、mTOR 阻害剤であるシロリムスの有用性が注目されてきており、国内でも治験が実施されたが、現時点では薬事承認はされていない。

→

日本ではピシバニールのみが保険適応となっている。海綿状リンパ管奇形 (microcystic LM) の場合は、硬化療法が無効な場合が多く、切除術が必要となる。広範囲であったり、周辺に重要な臓器があるなど全摘出が出来ない場合もある。薬物療法は、病変の治療においてコンセンサスが得られているものはない。近年、mTOR 阻害剤であるシロリムスの有用性が注目されてきており、本邦では 2021 年にリンパ管奇形を含む難治性リンパ管疾患に薬事承認された。

3) リンパ管腫症 (ゴーハム病を含む)

また大量胸水や蛋白漏出性胃腸症の症例などは、低アルブミン血症や低ガンマグロブリン血症、低栄養を起こすため、重症例はアルブミン製剤やガンマグロブリン製剤などが必要となる。ビスフォスフォネートやインターフェロン、プロプラノロール、ベバシズマブ、シロリムスなどの薬物療法も行われることがあるが、現時点では、リンパ管腫症に保険適応のある薬剤はない。

→

また大量胸水や蛋白漏出性胃腸症の症例などは、低アルブミン血症や低ガンマグロブリン血症、低栄養を起こすため、重症例はアルブミン製剤やガンマグロブリ

ン製剤などが必要となる。近年、mTOR 阻害剤であるシロリムスの有用性が注目されており、本邦では 2021 年にリンパ管腫症、ゴーハム病を含む難治性リンパ管疾患に薬事承認された。その他、ビスフォスフォネートやインターフェロン、プロプラノロール、ベバシズマブなどの薬物療法も行われることがあるが、保険適応はない。

4) カサバッハ・メリット (Kasabach-Merritt) 現象 (症候群)

確立した治療法はない。プレドニゾロン、インターフェロン、ビンクリスチン、抗線溶剤、抗血小板薬の投与などの内科的治療が行われることが多いが、近年、シロリムスの有用性が注目されている。これらの治療に抵抗を示す場合は、血管内治療 (経動脈的塞栓術) や外科的切除を行なうこともある。血小板輸血は病態を悪化させる可能性があるため、重症出血がある場合のみとすべきである。ヘパリンは、腫瘍の増大や病状を悪化させることがあり禁忌である。いずれにしても単一の治療では十分な効果を得ることが難しく、集学的な治療が必要である。放射線治療は晚期合併症が必発であるため、通常は行わないが、重症例では考慮される。四肢原発の場合は成長障害を避けるために、可能な限り骨を避けて照射する。

→

確立した治療法はない。プレドニゾロン、インターフェロン、ビンクリスチン、抗線溶剤、抗血小板薬の投与などの内科的治療が行われることが多いが、近年、シロリムスの有用性が注目されてきており、本邦では 2024 年にカサバッハ・メリット現象を起こす難治性脈管腫瘍に薬事承認された。これらの治療に抵抗を示す場合は、血管内治療 (経動脈的塞栓術) や外科的切除を行なうこともある。血小板輸血は病態を悪化させる可能性があるため、重症出血がある場合のみとすべきである。いずれにしても単一の治療では十分な効果を得ることが難しく、集学的な治療が必要である。放射線治療は晚期合併症が必発であるため、通常は行わないが、重症例では考慮される。四肢原発の場合は成長障害を避けるために、可能な限り骨を避けて照射する。

ヘパリンに関しては、禁忌であるというエビデンスは示されていないため、削除した。

2. ガイドラインの改訂

(a) 関連 CQ の見直し

リンパ管疾患に関する CQ を見直し、新たな CQ の作成、および修正を行うこととした。ガイドライン作成、SR チームの小児科

のリーダーとして各専門家と連携し、期日までに目標を達成するよう、計画を立てた。またチーム内の情報共有を共有ネットワークに作成し、効率的に行なった。定期的にWEBミーティングを開き、情報を共有、依頼はメールで行ない、全て目標時期までにまとめることができた。

今回、小児科としても新たに乳児血管腫に対するプロプラノロールの副作用の予防法のCQを立てた。

CQ 2 1. (新規 CQ)

乳児血管腫に対するプロプラノロール内服療法の注意すべき副作用と予防策は何か？

治療に関するCQは前のガイドラインでもあったが、本治療は特に低血糖、徐脈などの副作用に注意しなければならないため、予防策とともに文献的な検討を行なった。その結果、副作用に関しては、過去に多くの文献があり、まとめることができた。また予防策、モニタリングに関する文献はRCTのようなエビデンスの高い文献はほとんどなく、ケースシリーズによる提案に留まるものであった。しかし、リスクの高い患者、低月齢（日齢90日未満）、低体重（5kg未満）は嚴重なモニタリングなどが必要である可能性が示唆された。同じ内容を総説にも記載し、より注意しながら治療を行うことを推奨した。

推奨文：プロプラノロール療法の副作用は、低血圧、徐脈、気管支攣縮、睡眠障害、消化管異常、低血糖などがあり、時に重篤な後遺症を残す場合もあるため、注意が必要である。副作用は、低月齢（日齢90日未満）、低体重（5kg未満）がリスク因子であり、より嚴重なモニタリングなどが必要である可能性がある。治療前の心疾患スクリーニングとして、心電図、心超音波などの施行や血糖測定を行うことによる副作用の回避、予防を示したエビデンスは存在しなかった。しかし、総説などでもまとめられているように、高リスク症例などには入院での治療導入をすべきであり、かつ治療期間中は特に低血糖を起こさないよう、保護者に十分な教育が必要である。

推奨の強さ2
エビデンスD

さらに、カサバッハ・メリット現象に対する治療法に関するCQとして、CQ25を作成した。

CQ 2 5. (新規 CQ)

カポジ肉腫様血管内皮細胞腫と房状血管腫によって起こったカサバッハ・メリット現象に対する適切な治療法は何か？

もともとカサバッハ・メリット現象にたいしては様々な薬物療法が小児科、特に腫瘍を専門とする医師がステロイド、抗がん剤（ビンクリスチン）などで治療を行なっていたが、最近、シロリムスの治療効果が注目され、2024年1月に本邦でも薬事承認となった。今回のガイドライン作成時はまだその情報は盛り込めなかったが、ケースシリーズばかりだが既に多くの臨床試験が行われていた。そのため、以下のようにまとめた。

推奨文：シロリムス、エベロリムス、ビンクリスチン、外科的介入、塞栓術、プロプラノロール*、放射線照射、インターフェロン α *、ステロイド、ステロイド局注療法の手段が抽出された。中でも、シロリムスの有効例は近年報告が増えており、システムティックレビュー、複数の後向き観察研究がみられたほか、血中濃度や副反応に言及した論文もみられた。ビンクリスチンに関する報告も多くみられたが、シロリムス普及前の論文が多かった。いずれの治療法においても、有効性や安全性について具体的な数値をもとに提示することは困難である。一方、治療効果に言及した報告と比べ、副作用、晚期合併症に言及している論文は少ない。ビンクリスチン、インターフェロン α などの薬物療法は晚期合併症を起こすリスクが懸念され、今後の情報の蓄積が待たれる。本CQの検討には、今後ランダム化比較試験などのデザインによる検証が必要と思われる。

*保険適用外（令和5年1月時点）

推奨の強さ2
エビデンスD

最後に、難治性リンパ管疾患に関するCQとして、CQ35、37の作成に関わった。CQ35は旧CQ33で、難治性の乳び胸水や心嚢液貯留、呼吸障害を呈するリンパ管腫症やゴーハム病に対して有効な治療法として、様々な治療法を検討した。CQ37は新規CQで皮膚・粘膜のリンパ管奇形（限局性リンパ管腫）に有効な治療を検討した。

CQ 3 5. (旧 CQ 3 3)

難治性の乳び胸水や心嚢液貯留、呼吸障害を呈するリンパ管腫症やゴーハム病に対して有効な治療法は何か？

推奨文：

栄養療法、薬物療法、外科的治療、硬化療法、放射線治療などの治療が必要に応じて組み合わせて行われる。その中でもシ

ロリムス療法は、優先的に考慮される治療である。
推奨の強さ 2
エビデンス D

CQ 3 7. (新規CQ)
皮膚・粘膜のリンパ管奇形（限局性リンパ管腫）に有効な治療は何か？

推奨文：
外科的切除、硬化療法、炭酸ガスレーザー、ラジオ波焼灼、電気凝固療法、シロリムス外用療法などの治療法が過去に報告されている。これらの治療はそれぞれ有効性を認めるが、合併症や再発を認めることもあり、症状に応じて慎重に選択する必要がある。
推奨の強さ 2
エビデンス D

いずれもシロリムスが最新の文献にてアップデートされた情報が注目される結果となった。

2. 「希少難治性脈管異常（脈管系腫瘍・脈管奇形）疾患」レジストリ作成

(a) レジストリに研究分担者の施設より症例が登録されている。本レジストリでは希少難治例を中心に臨床個人情報が含まれている。特に難治性リンパ管疾患については、前向き、永続的なレジストリシステムを構築する。症例登録を開始し、データ収集体制を構築する。

(b) 2024年2月4日に市民公開講座にてシロリムス等の最新の薬物療法についての講演を行なった。また継続的にホームページ上で難治性脈管異常に対する薬物療法の情報を公開した。

D. 考察

リンパ管腫症、ゴーハム病について新たに診断基準を定めた。GLA、KLAとの区別に関しては、予後の違いがあり、GLAとKLAの違い、GSDとGLA/KLAとの違いを明確にすることから進めることとした。我々の調査研究でも、画像所見および病理所見の違いははっきりとしており、これらの鑑別は可能となった。それを反映した新しい診断基準を作成することができた。

また改訂ガイドライン上では、難治性リンパ管疾患と乳児血管腫に対するプロプロノロール療法、カサバッハ・メリット現象に対する治療など、小児科関連の疾患のCQを新たに立てて作成することができた。またISSVA分類を参考に、疾患を明確に分類化し、永続的な症例情報をまとめられる、新たな疾患レジストリを作成した。これらは開始

したばかりであるが、このような取り組みは国内でも類がなく、世界的にもこのような幅広い疾患レジストリは未だ構築されていない。非常に価値があるものであり、今後このレジストリを利用し、さらに疾患毎の詳細な情報を集めるレジストリも作成する。また、こうした情報を診断基準、重症度分類作成だけでなく、臨床研究、遺伝学的解析にも応用できるような幅広い利用を考えている。

E. 結論

小児慢性特定疾患の記載を現状に合わせて修正した。また難治性リンパ管疾患、小児科関連疾患のガイドラインの作成、総説などの作成に関わった。

F. 研究発表

1. 論文発表

1. 小関道夫：脈管腫瘍、脈管奇形. イヤーノート小児科 メディックメディア, 9.1-9.2.4 (2024)
2. 小関道夫：【第59回日本小児放射線学会学術集会“多角的に挑む小児画像”より】難治性リンパ管疾患の病態と新規治療薬. 日本小児放射線学会雑誌. 40(1), 28-35 (2024).
3. 小関道夫：【子どもの皮膚診療を極めるために】専門医への紹介が必要な皮膚疾患 血管腫・脈管奇形. 小児科診療. 87(春増刊), 232-239 (2024).
4. 小関道夫：【それってほんとにITP?】ITPと鑑別すべき血液・免疫疾患 Kasabach-Merritt現象(症候群). 小児科診療. 87(5), 551-558 (2024).
5. 小関道夫：【公費補助制度を使いこなす!】リンパ管腫/リンパ管腫症. 小児科診療. 87(8), 1157-1163 (2024).
6. 小関道夫：形成外科 Topics! 難治性脈管異常の病態と薬物療法. 形成外科. 67(11), 1216-1221 (2024).
7. Fujino A., Kuniyeda K., Nozaki T., Ozeki M., Ohyama T., Sato I., Kamibeppu K., Tanaka A., Uemura N., Kanmuri K., Nakamura K., Kobayashi F., Suenobu S., Nomura T., Hayashi A., Nagao M., Kato A., Aramaki-Hattori N., Imagawa K., Ishikawa K., Ochi J., Horiuchi S., Nagabukuro H.: The Prospective Natural History Study of Patients with Intractable Venous Malformation and Klippel-Trenaunay Syndrome to Guide Designing a Proof-of-Concept Clinical Trial for Novel Therapeutic Intervention. Lymphat Res Biol. 22(1), 27-36 (2024).
8. Ozeki M., Endo S., Yasue S., Nozawa A., Asada R., Saito A. M., Hashimoto H., Fujimura T., Yamada Y., Kuroda T., Ueno S., Watanabe S.,

- Nosaka S., Miyasaka M., Umezawa A., Matsuoka K., Maekawa T., Hirakawa S., Furukawa T., Fumino S., Tajiri T., Takemoto J., Souzaki R., Kinoshita Y., Fujino A.: Sirolimus treatment for intractable lymphatic anomalies: an open-label, single-arm, multicenter, prospective trial. *Front Med (Lausanne)*. 11, 1335469 (2024).
9. Hirose K., Hori Y., Ozeki M., Motooka D., Hata K., Tahara S., Matsui T., Kohara M., Maruyama K., Imanaka-Yoshida K., Toyosawa S., Morii E.: Comprehensive phenotypic and genomic characterization of venous malformations. *Hum Pathol*. 145, 48–55 (2024).
10. Ito S., Saito A., Sakurai A., Watanabe K., Karakawa S., Miyamura T., Yokosuka T., Ueki H., Goto H., Yagasaki H., Kinoshita M., Ozeki M., Yokoyama N., Teranishi H.: Eculizumab treatment in paediatric patients diagnosed with aHUS after haematopoietic stem cell transplantation: a HSCT-TMA case series from Japanese aHUS post-marketing surveillance. *Bone Marrow Transplant*. 59(3), 315–324 (2024).
11. Immura M., Shin C., Ozeki M., Matsuoka K., Saitoh A., Imai C.: Regression of kaposiform lymphangiomatosis and chronic disseminated intravascular coagulation after inhaled budesonide-formoterol treatment. *Pediatr Blood Cancer*. 71(4), e30907 (2024).
12. Nakamura S., Ozeki M., Hayashi D., Yasue S., Endo S., Ohnishi H.: Sirolimus monotherapy for Kasabach-Merritt phenomenon in a neonate; Case report. *Int J Surg Case Rep*. 117, 109497 (2024).
13. Yasue S., Ozeki M., Nozawa A., Endo S., Ohnishi H.: Changes in cell morphology and function induced by the NRAS Q61R mutation in lymphatic endothelial cells. *PLoS One*. 19(5), e0289187 (2024).
14. Miyazaki T., Hayashi D., Nozawa A., Yasue S., Endo S., Ohnishi H., Asada R., Kato M., Fujino A., Kuroda T., Maekawa T., Fumino S., Kawakubo N., Tajiri T., Shimizu K., Sanada C., Hamada I., Ishikawa Y., Hasegawa M., Patel K., Xie Y., Ozeki M.: Population pharmacokinetic analysis of sirolimus in Japanese pediatric and adult subjects receiving tablet or granule formulations. *Drug Metab Pharmacokinet*. 59, 101024 (2024).
15. Nozawa A., Abe T., Nihori T., Ozeki M., Aoki Y., Ohnishi H.: Lymphatic endothelial cell-specific NRAS p. Q61R mutant embryos show abnormal lymphatic vessel morphogenesis. *Hum Mol Genet*. 33(16), 1420–1428 (2024).
16. Ozeki M., Tanaka A., Kuniyeda K., Nozaki T., Fujino A., Nomura T., Uemura N., Suenobu S., Aramaki-Hattori N., Hayashi A., Kato A., Kiyosue H., Imagawa K., Nagao M., Shimizu F., Ochi J., Horiuchi S., Ohyama T., Ando H., Nagabukuro H.: A phase 2 randomized, double-blind trial of ART-001, a selective PI3K α inhibitor, for the treatment of slow-flow vascular malformations. *Orphanet J Rare Dis*. 2025 Feb 10;20(1):64.
17. Ozeki M., Endo S., Yasue S., Asada R., Saito AM, Hashimoto H., Ueno S., Watanabe S., Kato M., Deie K., Nosaka S., Miyasaka M., Umezawa A., Matsuoka K., Kato M., Kuroda T., Maekawa T., Hirakawa S., Furukawa T., Fumino S., Tajiri T., Takemoto J., Kawakubo N., Fujino A.: Sirolimus treatment for intractable vascular anomalies (SIVA): An open-label, single-arm, multicenter, prospective trial. *Pediatr Int*. 2025 Jan-Dec;67(1):e70002.
2. 学会発表
- Michio Ozeki, Daichi Hayashi, Akifumi Nozawa, Shihoh Yasue, Saori Endo, Shigehisa Fumino, Taizo Furukawa, Junkichi Takemoto, Tatsuro Tajiri, Hidenori Ohnishi: Potential biomarkers of vascular anomalies related with sirolimus treatment. The International Society for the Study of Vascular Anomalies World Congress 2024 (5/7–10/2024 Madrid, Spain)
 - 小関道夫: 小児外科領域における治療の現状と今後 難治性脈管腫瘍・脈管奇形に対するmTOR阻害剤を用いた治療開発. 日本小児外科学会学術集会(第61回) (2024年5月29–31日 2024年5月29–31日)
 - 小関道夫: 難治性脈管腫瘍・脈管奇形に対するシロリムス治療. 日本皮膚科学会総会(第123回) (2024年6月6–9日 京都市)
 - 小関道夫: 難治性脈管異常の病態と

- これらの薬物療法について. 第 44 回日本静脈学会総会 (2024 年 6 月 13-14 日 軽井沢町)
5. 小関 道夫: 静脈奇形の病態と新規分子標的治療. 第 44 回日本静脈学会総会 (2024 年 6 月 13-14 日 軽井沢町)
6. 小関 道夫: 四肢, 骨・軟部に発生する血管腫・血管奇形. 日本整形外科学会骨・軟部腫瘍学術集会(第 57 回) (2024 年 7 月 11-12 日 福井市)
7. 小関 道夫: 難治脈管腫瘍・脈管奇形に対する薬物療法. 日本形成外科学会総会・学術集会(第 67 回) (2024 年 4 月 11 日 神戸市)
8. 小関 道夫: 難治性脈管異常の病態と薬物療法. 日本形成外科学会総会・学術集会(第 67 回) (2024 年 4 月 11 日 神戸市)
9. 小関 道夫: 難治性脈管腫瘍・脈管奇形に対する新規治療薬について. 日本医学放射線学会総会(第 83 回) (2024 年 4 月 13 日 横浜市)
10. 小関 道夫: シロリムス薬事承認後、どうする. 日本血管腫血管奇形学会学術集会(第 20 回) (2024 年 7 月 27 日 新潟市)
11. 小関 道夫: 難治性脈管異常に対しシロリムスをどのように使うか?. 日本血管腫血管奇形学会学術集会(第 20 回) (2024 年 7 月 27 日 新潟市)
12. 小関 道夫: 難治脈管腫瘍・脈管奇形に対する TOR 阻害薬の臨床応用. 日本分子生物学会年会 (第 47 回) (2024 年 11 月 29 日 福岡市)
13. 小関 道夫: 小児血液がん専門医が遭遇する血管腫・脈管奇形の最新情報. 日本小児血液・がん学会学術集会 (第 66 回) (2024 年 12 月 13 日 京都市)
14. 石丸 真璃子, 宮地 充, 宇田 大祐, 富田 晃正, 吉田 秀樹, 柳生 茂希, 土屋 邦彦, 文野 誠久, 小関 道夫, 家原 知子: mTOR 阻害薬が有効であった Kasabach-Merritt 現象を伴うカポジ肉腫様血管内皮細胞腫の二例. 日本小児科学会学術集会(第 127 回) (2024 年 4 月 19-21 日 福岡市)
15. 小関 道夫, 安江 志保, 野澤 明史, 遠渡 沙緒理, 大西 秀典: Klippel-Trenaunay 症候群の脈管異常の特徴-どのように治療計画を立てていくべきか? Klippel-Trenaunay 症候群の診断法とシロリムス療法. 日本静脈学会総会(第 44 回) (2024 年 6 月 13-14 日 軽井沢町)
16. 野澤 明史, 阿部 太紀, 新堀 哲也, 小関 道夫, 青木 洋子, 大西 秀典: カポジ型リンパ管腫症の病態解明を目指した 新規動物モデルの開発. 中部日本小児科学会(第 59 回) (2024 年 08 月 18 日 津市)
17. 小関 道夫, 林 大地, 安江 志保, 遠渡 沙緒理, 前川 貴伸, 藤野 明浩, 文野 誠久, 古川 泰三, 武本 淳吉, 川久保 尚徳, 加藤 源俊, 田尻 達郎, 黒田 達夫, 大西 秀典: 低流速型脈管奇形に伴う Localized intravascular coagulopathy に対するシロリムスの効果. 日本血栓止血学会学術集会(第 46 回) (2024 年 6 月 15 日 金沢市)
18. 小関 道夫, 馬場 直子, 吉岡 大輔, 久保 亮太, 佐々木 了: ヘマンジオルシロップ小児用 0.375% の乳児血管腫に対する特定使用成績調査. 日本小児皮膚科学会学術集会 (第 48 回) (2024 年 7 月 7 日 東京)
19. 酒井 むい, 林 大地, 野澤 明史, 安江 志保, 遠渡 沙緒理, 小関 道夫, 大西 秀典: 脈管性腫瘍と増殖期の乳児血管腫における血漿 microRNA の網羅的解析. 日本血管腫血管奇形学会学術集会(第 20 回) (2024 年 7 月 27 日 新潟市)
20. 小関 道夫, 林 大地, 野澤 明史, 安江 志保, 遠渡 沙緒理, 文野 誠久, 川久保 尚徳, 田尻 達郎, 前川 貴伸, 加藤 源俊, 藤野 明浩, 大西 秀典: シロリムス療法に関連した脈管異常のバイオマーカー検索. 日本血管腫血管奇形学会学術集会(第 20 回) (2024 年 7 月 27 日 新潟市)
21. 野澤 明史, 小関 道夫, 安江 志保, 遠渡 沙緒理, 石原 拓磨, 国本 佳代, 垣本 信幸, 大西 秀典, 神人 正寿: 乳児血管腫の増殖に関わるバイオマーカーの探索的研究. 日本血管腫血管奇形学会学術集会(第 20 回) (2024 年 7 月 27 日 新潟市)
22. 小関 道夫, 林 大地, 安江 志保, 遠渡 沙緒理, 前川 貴伸, 藤野 明浩, 文野 誠久, 古川 泰三, 武本 淳吉, 川久保 尚徳, 加藤 源俊, 田尻 達郎, 黒田 達夫, 大西 秀典: 低流速型脈管奇形に伴う Localized intravascular coagulopathy に対するシロリムスの効果. 日本小児血液・がん学会学術集会(第 66 回) (2024 年 12 月 13 日 京都市)
23. 小関 道夫: 難治性脈管奇形に対する薬物療法について. 令和 5 年度 厚生労働科学研究費補助金 難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形 (リンパ管腫)・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究 市民公開講座 (2024 年 2 月 4 日 オンライン)
24. 小関 道夫: 脈管奇形(静脈奇形・囊胞型リンパ管奇形)と薬物療法について. 難治性脈管奇形カンファレンス (2024 年 2 月 6 日 オンライン)
25. 小関 道夫: 難治性血管腫・脈管奇形の診断・治療と最新情報. 静岡県立こども病院 院内学術講演会 (2024 年 2 月 9 日 静岡市)

26. 小関 道夫: 難治性脈管異常に対するシロリムス療法の実際. 東北エリアラパリムス講演会 (2024年5月25日 仙台市)
27. 小関 道夫: 脈管奇形診療における薬物療法のこれからの役割. 全国オンライン講演会 (2024年6月24日 オンライン)
28. 小関 道夫: 難治性脈管異常に対する新たな薬物療法. 難治性脈管腫瘍・脈管奇形セミナー in 東海 (2024年9月21日 名古屋市)
29. 小関 道夫: 乳児血管腫と難治性脈管異常の最新情報. 京都こどもの皮膚病カンファレンス (第17回) (2024年10月24日 京都市)
30. 小関 道夫: 血管腫・脈管奇形の診断と対応を考える. 脈管奇形・血管性腫瘍を学ぶ学術講演会 (2024年10月25日 浜松市)
31. 小関 道夫: 脈管奇形に対する分子標的治療薬の最前線. 難治性脈管奇形・血管性腫瘍 Expert Seminar in metropolitan (2024年11月16日 東京)
32. 小関 道夫: 脈管異常診療でラパリムスを使いこなすために. 北関東・甲信越エリアラパリムス講演会 (2024年11月18日 オンライン)
33. 小関 道夫: ISSVA2024 報告 ~最新トピックスの紹介とこれから~. 特定非営利活動法人 血管腫・血管奇形の患者会医療講演会(第31回) (2024年8月4日 オンライン)

G. 知的所有権の出願・取得状況(予定を含む)

1 特許取得
なし

2 実用新案登録
なし

3 その他
【関連学会、医療従事者、患者及び国民への普及・啓発】
難治性血管腫・血管奇形薬物療法研究班
情報サイト
<https://cure-vas.jp/>

難治性血管腫・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究

研究分担者 森本 哲 自治医科大学小児科 客員教授

研究要旨：研究班の分担研究者として班会議に出席し、班全体の研究活動に関して審議を行った。乳児血管腫の乳児血管腫に対するプロプラノロール療法の適正使用について啓発した。早産/低出生体重児の乳児血管腫に対するプロプラノロール療法に関する全国調査の研究計画書を作成した。

A. 研究目的

長期にわたり患者のQOLを深刻に損なう難治性の病態が含まれる、血管腫・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症およびその関連疾患を対象とし、関連各学会、患者団体の意見を統合して提言し、広く医学会・社会の認知を得ることを目的とする。その中で特に、乳児血管腫の治療法について、および、小児から成人への移行期医療について検討する。

B. 研究方法

研究班の分担研究者として班会議に出席し、班全体の研究活動に関して審議を行った。指定難病の概説・診断基準・重症度分類の改訂作業を行った。移行期医療の進め方について検討した。乳児血管腫に対するプロプラノロール療法の適正使用について講演し、早産/低出生体重児の乳児血管腫に対するプロプラノロール療法に関する全国調査の研究計画書を作成した。

（倫理面への配慮）

個人情報を削除された既存のデータの提供を受ける。IRBの承認を受けた。

C. 研究結果

乳児血管腫 (Infantile hemangioma : IH) は毛細血管内皮細胞が増殖する良性腫瘍であり、従来いちご状血管腫と呼ばれてきた。出生時には気づかれないが、生後2～3か月頃に急速に増殖し、1歳を過ぎると退縮するという、特徴的な臨床経過をたどるが、無治療の場合、約半数に後遺症を残す。2008年に非選択的βアドレナリン受容体遮断薬であるプロプラノロール (PPL) の有効性が報告され、本邦では2016年9月に乳児血管腫に特化したPPL製剤（ヘマンジオル®）がマルホ株式会社（以下マルホ）より発売された。国内外のガイドラインにおいて、PPL療法は増殖期のIHに対する第一選択治療である。PPL療法は生後2～3か月までに導入したほうが効果が高いと言われている。

乳児血管腫の発症率は、早産/低出生体重児で高く、コーカシアンのデータでは、出生体重1,500～2,000gでは10%、1000～1500gでは14%、<1000gでは23%と報告されている。しかし、PPLは、肝臓のCYPで代謝されるが、新生児はCYP活性が極めて低く、生後週数と体重と相関するため、通常用量では過剰となり有害事象が発現しやすい。このことから、本邦では、原則、修正5週以降かつ体重2,000g以上で使用することになっている。

このことから、発症率が高いと早期産児・低出生体重児の乳児血管腫に、早期にPPL療法導入は困難であり、未解決の課題がある。しかし、実臨床においては、修正5週未満、体重2,000g未満でもPPLを使わざるを得ない例が存在するが、その治療実態については不明な点が多い。

これまでに本邦から出された修正5週未満または体重2,000g未満でPPL療法が行われた症例報告をまとめると、徐脈や低血圧といった循環器系の有害事象を4/18例(22%)と高率に認めた。そこで、早期産児・低出生体重児における乳児血管腫の日本での治療実態と転帰を明らかにするために、後方視的な全国調査の血球計画書を作成し、IRBの承認を受けた。

D. 考察

この調査により、PPL療法の開始を修正5週後かつ体重2,000gまで待つメリットとデメリットが評価可能となると考えられる。

E. 結論

早産/低出生体重児の乳児血管腫に対するPPL療法の位置づけ、適切な使用法が明らかになることが期待される。

F. 健康危険情報

該当なし

G. 研究発表

- 論文発表
該当なし
- 学会発表
森本 哲. 乳児血管腫の治療戦略 新生児科医へのメッセージ. 第60回日本周産期・新生児医学会学術集会.2024年7月14日. 大阪.

H. 知的財産権の出願・登録状況

該当なし

別添4

令和6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）
分担研究報告書
難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症および
関連疾患についての調査研究

研究分担：小児慢性特定疾病と指定難病の整合性 トランジション

研究分担者 康勝好
埼玉県立小児医療センター 血液腫瘍科科長

研究要旨

小児慢性特定疾病と指定難病の整合性整備、トランジション体制の整備に向けて、前秋田班で診療ガイドライン改訂作業を完遂し、2022年度版を完成させた。今年度は完成したガイドラインを普及すべく、小児科学会や、小児血液・がん学会のシンポジウム等で、広く学会員を対象とした啓発活動を行った。また関係各学会の英文誌にガイドラインの英語版を掲載できるように努め、具体的には *Pediatrics International* 誌と交渉して同時掲載の了解を得た。英文誌用の原稿はほぼ完成しており、今後は投稿作業に入る予定である。ガイドラインの普及において大きな成果を得た。

A. 研究目的

指定難病、小児慢性特定疾患の永続的把握、診断標準化努力、オミクス医療への展開を進め、政策に寄与する研究を行う。

は患者・家族から文書による同意を取得し、十分な個人情報保護対策をとる。

B. 研究方法

小児慢性特定疾病と指定難病の整合性整備、トランジション体制の整備に向けて、完成した2022年度版のガイドラインの普及に努める。

（倫理面への配慮）
ガイドライン作成は、MINDSに従って実施する。疾患レジストリ登録において

C. 研究結果

今年度は完成したガイドラインを普及すべく、小児科学会や、小児血液・がん学会等で、広く学会員を対象とした啓発活動を行った。この2,3年で学会員の本領域についての関心、知識は確実に向かっていると言える。また関係各学会の英文誌にガイドラインの英語版を掲載できるように努め、具体的には *Pediatrics International* 誌と交渉して同時掲載の了解を得た。ガイドラインの普及において大きな成果を得た。英文誌用の原稿はほぼ完成しており、今後は投稿作業に入る予定である。

D. 考察

小児慢性特定疾病と指定難病の整合性整備、トランジション体制の整備のためには、診療の質を担保するガイドラインの普及が必須である。今年度は完成したガイドライン内容を普及する活動を行い、大きな成果となった。

E. 結論

ガイドライン改訂を完遂し、普及活動を行った。

E. 健康危険情報

なし

F. 研究発表

1. 論文発表

1. Koh K, Kosaka Y, Okamoto Y, Maeda N, Ogawa A, Kobayashi R, Hasegawa D, Koga N, Tessier A, Shvenke Y, Zhu J, Benettaib B, Horibe K, Ogawa C. Phase 2 multicenter study of pegaspargase in Japanese patients with previously untreated acute lymphoblastic leukemia. *Int J Hematol.* 2025 Mar 31. doi: 10.1007/s12185-025-03976-4. Online ahead of print.
2. Sekimizu M, Watanabe T, Fukushima H, Koh K, Yuza Y, Takeshima Y, Watanabe H, Anan T, Mori T, Mori T, Kobayashi R, Nakazawa A, Ohshima K, Saito AM, Takimoto T, Tsurusawa M, Horibe K, Sunami S. Localized Lymphoblastic Lymphoma in Children and Adolescents: Results of the LLB-NHL03 Trial-A Report From the Japan Children's Cancer Group. *Pediatr Blood Cancer.* 2025 May;72(5):e31590. doi: 10.1002/pbc.31590. Epub 2025 Feb 13.
3. Sakai K, Hamamura A, Yoshimura Y, Abe M, Ogawa Y, Tanaka K, Hattori N, Tokugawa T, Kanai R, Ikejiri F, Takeyama M, Taoka T, Fujita N, Kanaya M, Koh K, Shiragami H, Azumi H, Saito K, Matsumoto M. Therapeutic switch from plasma to recombinant ADAMTS13 for patients with congenital TTP from Japanese real-world data. *Blood.* 2025 Mar 16:blood.2024027516. doi: 10.1182/blood.2024027516. Online ahead of print.
4. Yoshikawa T, Ishida H, Watanabe A, Yuza Y, Shima H, Ito M, Sakurai Y, Keino D, Ichimura T, Kato K, Osugi Y, Sunami S, Shinoda K, Imamura T, Koh K, Okimoto Y, Tono C, Shimada H, Tanizawa A. Favorable outcomes of de novo advanced phases of pediatric

- chronic myeloid leukemia in the tyrosine kinase inhibitor era. *Int J Hematol.* 2025 Mar 15. doi: 10.1007/s12185-025-03953-x. Online ahead of print.
5. Kato I, Tomizawa D, Kato M, Hirabayashi S, Manabe A, Irie M, Sasahara Y, Arakawa Y, Koh K, Sakaguchi H, Sugiyama M, Ogawa C, Kamiya T, Saito S, Nakazawa Y, Nishio N, Takahashi Y, Iwai N, Adachi S, Takita J, Miyamura T, Yokoyama S, Oba U, Ueda T, Koga Y, Hiramatsu H. Real-world Outcomes of Commercial Tisagenlecleucel for Children, Adolescents, and Young Adults With Acute Lymphoblastic Leukemia in Japan. *Transplant Cell Ther.* 2025 Feb;31(2):86-96.
6. Kato M, Okamoto Y, Imamura T, Kada A, Saito AM, Iijima-Yamashita Y, Deguchi T, Ohki K, Fukushima T, Anami K, Sanada M, Taki T, Hashii Y, Inukai T, Kiyokawa N, Kosaka Y, Yoshida N, Yuza Y, Yanagimachi M, Watanabe K, Sato A, Imai C, Taga T, Adachi S, Horibe K, Manabe A, Koh K. JCCG ALL-B12: Evaluation of Intensified Therapies With Vincristine/Dexamethasone Pulses and Asparaginase and Augmented High-Dose Methotrexate for Pediatric B-ALL. *J Clin Oncol.* 2025 Feb 10;43(5):567-577.
7. Fukuoka K, Zhao J, Oshima K, Honda M, Mitani Y, Mori M, Arakawa Y, Ohashi K, Kawashima H, Tanami Y, Momose S, Tamaru JI, Nakazawa A, Koh K. Isolated testicular second-relapsed T-lymphoblastic lymphoma after allogeneic stem cell transplantation: Therapeutic implication from sequential molecular genetic analysis. *Br J Haematol.* 2024 Dec;205(6):2519-2522.
8. Locatelli F, Antmen B, Kang HJ, Koh K, Takahashi Y, Kupesiz A, Dias Matos MGA, Chopra Y, Bhat S, Im HJ, Güngör T, Lu MY, Stefanelli T, Rosko C, St Pierre A, Burock K, Smith Y, Sinclair K, Diaz-de-Heredia C. Ruxolitinib in treatment-naïve or corticosteroid-refractory paediatric patients with chronic graft-versus-host disease (REACH5): interim analysis of a single-arm, multicentre, phase 2 study. *Lancet Haematol.* 2024 Aug;11(8):e580-e592.
9. Locatelli F, Kang HJ, Bruno B, Gandemer V, Rialland-Battisti F, Faraci M, Takahashi Y, Koh K, Bittencourt H, Cleary G, Rosko

- C, Li X, St Pierre A, Prahallad AC, Diaz-de-Heredia C. Ruxolitinib for pediatric patients with treatment-naïve and steroid-refractory acute graft-versus-host disease (REACH4). *Blood*. 2024 Nov 14;144(20):2095-2106.
10. Hashii Y, Kawaguchi K, Kurakami H, Umeda K, Hasegawa D, Taki T, Hyakuna N, Ishida H, Takahashi Y, Nagasawa M, Yabe H, Yano M, Nakazawa Y, Fujisaki H, Matsumoto K, Yanagimachi M, Yoshida N, Kakuda H, Satou A, Tabuchi K, Tomizawa D, Taga T, Adachi S, Koh K, Kato K. A Retrospective Study of Pediatric Patients With Low- or Intermediate-Risk Acute Myeloid Leukemia Who Underwent Allogeneic Hematopoietic Cell Transplantation for the AML-05 Study Conducted by the Japanese Pediatric Leukemia/Lymphoma Study Group. *Transplant Cell Ther.* 2024 Nov;30(11):1102.e1-1102.e12.
11. Yamanaka J, Ogawa C, Arakawa A, Deguchi T, Hori T, Kiyokawa N, Ueki H, Nishi M, Mochizuki S, Nishikawa T, Kumamoto T, Nishiuchi R, Kikuta A, Yamamoto S, Koh K, Hasegawa D, Ogawa A, Watanabe K, Sato A, Saito AM, Watanabe T, Manabe A, Horibe K, Goto H, Toyoda H. Outcomes in children with first-relapsed acute lymphoblastic leukemia in Japan: Results from JCCG Study JPLSG-ALL-R08. *Pediatr Blood Cancer*. 2024 Dec;71(12):e31319.
12. Sakaguchi H, Taga T, Ishida H, Hama A, Okamoto Y, Sano H, Sato M, Koga Y, Koh K, Iwasaki F, Yoshida N, Cho Y, Okada K, Watanabe K, Watanabe A, Hasegawa D, Noguchi M, Hashii Y, Matsumoto K, Tabuchi K; Pediatric Acute Myeloid Leukemia Working Group of Japanese Society for Transplantation and Cellular Therapy. Salvage hematopoietic cell transplantation for children with acute myeloid leukemia relapsed after first transplantation: a Japanese national registry study. *Bone Marrow Transplant*. 2024 Nov;59(11):1621-1624.
13. Ishida H, Kawahara Y, Tomizawa D, Okamoto Y, Hama A, Cho Y, Koh K, Koga Y, Yoshida N, Sato M, Terui K, Miyagawa N, Watanabe A, Takita J, Kobayashi R, Yamamoto M, Watanabe K, Okada K, Kato K, Matsumoto K, Hino M, Tabuchi K, Sakaguchi H.

- A higher CD34 + cell dose correlates with better event-free survival after KIR-ligand mismatched cord blood transplantation for childhood acute myeloid leukemia. *J Hematol Oncol.* 2024 Apr 29;17(1):24.
14. Ishida H, Imamura T, Kobayashi R, Hashii Y, Deguchi T, Miyamura T, Oda M, Yamamoto M, Okada K, Sano H, Koh K, Yuza Y, Watanabe K, Nishimura N, Takimoto T, Moriya-Saito A, Sekimizu M, Suenobu S, Sunami S, Horibe K. Differential impact of asparaginase discontinuation on outcomes of children with T-cell acute lymphoblastic leukemia and T-cell lymphoblastic lymphoma. *Cancer Med.* 2024 Jun;13(12):e7246.
15. Horiguchi A, Arakawa Y, Mitani Y, Isobe K, Mori M, Fukuoka K, Oshima K, Koh K. Regular prophylaxis with activated prothrombin complex concentrates in pediatric hemophilia. *Pediatr Int.* 2024 Jan-Dec;66(1):e15774.
16. Matsui M, Makimoto A, Chin M, Koh K, Tomotsune M, Kaneko T, Morikawa Y, Hamada R, Yuza Y. Magnesium supplementation therapy to prevent cisplatin-induced acute nephrotoxicity in pediatric cancer: a randomized phase-2 trial. *Int J Clin Oncol.* 2024 May;29(5):629-637.
17. Amano H, Uchida H, Harada K, Narita A, Fumino S, Yamada Y, Kumano S, Abe M, Ishigaki T, Sakairi M, Shirota C, Tainaka T, Sumida W, Yokota K, Makita S, Karakawa S, Mitani Y, Matsumoto S, Tomioka Y, Muramatsu H, Nishio N, Osawa T, Taguri M, Koh K, Tajiri T, Kato M, Matsumoto K, Takahashi Y, Hinoki A. Scoring system for diagnosis and pretreatment risk assessment of neuroblastoma using urinary biomarker combinations. *Cancer Sci.* 2024 May;115(5):1634-1645.
18. Sato T, Yoshida K, Toki T, Kanezaki R, Terui K, Saiki R, Ojima M, Ochi Y, Mizuno S, Yoshihara M, Uechi T, Kenmochi N, Tanaka S, Matsubayashi J, Kisai K, Kudo K, Yuzawa K, Takahashi Y, Tanaka T, Yamamoto Y, Kobayashi A, Kamio T, Sasaki S, Shiraishi Y, Chiba K, Tanaka H, Muramatsu H, Hama A, Hasegawa D, Sato A, Koh K, Karakawa S, Kobayashi M, Hara J, Taneyama Y, Imai C, Hasegawa D, Fujita N, Yoshitomi M, Iwamoto S, Yamato G, Saida S, Kiyokawa N, Deguchi T, Ito M, Matsuo H, Adachi S Prof,

- Hayashi Y, Taga T, Moriya Saito A, Horibe K, Watanabe K, Tomizawa D, Miyano S, Takahashi S, Ogawa S, Ito E. Landscape of driver mutations and their clinical effects on Down syndrome-related myeloid neoplasms. *Blood*. 2024 Jun 20;143(25):2627-2643.
19. 細谷 通靖, 新津 健裕, 林 拓也, 植田 育也, 康 勝好 気道緊急患者の施設間搬送 2 症例の経験 埼玉小児医療センター医学誌 (0911-4866)41巻 Page22-25(2024.10)
20. 本田 護, 荒川 ゆうき, 水島 喜隆, 入倉 朋也, 石川 貴大, 渡壁 麻依, 金子 綾太, 三谷 友一, 窪田 博仁, 森 麻希子, 福岡 講平, 大嶋 宏一, 福地 麻貴子, 小久保 知寿子, 中村 有里, 一色 恒平, 康 勝好 高リスク神経芽腫に対する抗 GD2 抗体の使用経験 日本小児血液・がん学会雑誌(2187-011X)61巻 2号 Page184-190(2024.07)
21. 高崎 晃, 桃井 貴裕, 入江 紗瑛子, 秦 美能理, 三山 智史, 高橋 千恵, 小島 あきら, 越野 由紀, 古谷 憲孝, 三谷 友一, 康 勝好, 西本 創 軽度の血球減少を伴う耳下腺腫脹から急性リンパ性白血病の診断にいたった小児例 小児内科(0385-6305)56巻 8号 Page1293-1296(2024.08)
22. 小川 千登世, 石原 阜, 今井 千速, 岡本 康裕, 加藤 元博, 康 勝好, 後藤 裕明, 堀田 恵美子, 佐藤 篤, 下之段 秀美, 関水 匡大, 豊田 秀実, 早川 文彦, 矢野 未央, 山崎 悅子, 真部 淳, Consensus expert recommendations 本邦の実臨床での急性リンパ性白血病/リンパ芽球性リンパ腫(ALL/LBL)治療におけるアスピラギナーゼ製剤の最適使用の検討, 血液内科 2024 ; 88(4) : 445-454

2. 著書

G. 知的財産権の出願・登録状況

(予定を含む)

1. 特許取得
なし
2. 実用新案登録
なし
3. その他
なし

(具体的かつ詳細に記入すること)

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患政策研究事業）
分担研究報告書難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・
リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究

研究分担者 木下 義晶 新潟大学医学部教授

研究要旨

「血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形・リンパ管腫症診療ガイドライン 2022」について各関連学術団体の学術集会や市民公開講座などを分担者の担当領域の学会などの liaison として啓発活動を行った。またガイドライン英文化のための準備を行った。小児慢性特定疾病・指定難病における新規申請について関係の研究班と連携・検討し、申請を行った。

研究分担者氏名・所属研究機関名及び所属研究機関における職名

（分担研究報告書の場合は、省略）

A. 研究目的

以下の 3 つの目的を設定し活動を行う。

1. 各医学専門領域の liaison の設置
2. 診療ガイドラインの啓発活動
3. 小児慢性特定疾病・指定難病における新規申請の検討

B. 研究方法

1. 各医学専門領域の liaison の設置
2. 診療ガイドラインの啓発活動
各関連領域の学術集会におけるシンポジウム、パネルディスカッション、また市民公開講座などを企画し、周知を行う。また英文化を各領域関連の雑誌へ掲載し国際的に発信する。
3. 小児慢性特定疾病・指定難病における新規申請の検討
新規の疾患、またすでに認定されているものの部位が限定されている疾患（リンパ管奇形）などについて関連研究班と連携・検討を行い、申請する。

C. 研究結果

1. 各医学専門領域の liaison の設置
ガイドラインの啓発活動、小児慢性特定疾病・指定難病の申請における関連学会との連携窓口を担った。
2. 診療ガイドラインの啓発活動

1)以下の学会を主宰し、ガイドラインの啓発をはじめとして、難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症および関連疾患について多くの演題にて討議を行った。
第 20 回日本血管腫・血管奇形学会学術集会
(2024 年 7 月 26 日～27 日新潟)
「こんなトキどうする？」

2)ガイドライン英文化の準備
各領域における英文ジャーナルとの打ち合わせ。原稿の準備。

3. 小児慢性特定疾病・指定難病における新規申請の検討
小児慢性特定疾患（【6】リンパ管腫、【7】リンパ管腫症、【8】腸管リンパ管拡張症）
指定難病（【278】巨大リンパ管奇形（頸部顔面病変）、【277】リンパ管腫症/ゴーハム病）
それぞれについて関連研究班（秋田班、照井班、田口班）で連携、協議した。

D 考察

診療ガイドラインの啓発活動、小児慢性特定疾病・指定難病における新規申請の検討について liaison として窓口となり、それぞれ一定の成果をあげた。特に診療ガイドラインの啓発活動については各領域の学術団体の協力を得て、シンポジウムやパネルディスカッションのような様々な形で行うことができた。市民公開講座ではガイドライン中に新設した一般市民へのサマリーなどの項目を解説し、啓発に努めることが可能であった。またガイドラインの英文化は投稿への最終段階にある。

慢性特定疾病・指定難病の申請結果については、今後研究班としてどのように対応すべきかを引き続き検討する。

E 結論

ガイドラインの啓発活動をさらに多様な形で推進、英文化を完成し、本領域における小児慢性特定疾病・指定難病に関する政策研究を引き続き継続する。

G. 研究発表
1. 論文発表

1. Ozeki M, Endo S, Yasue S, Nozawa A, Asada R, Saito AM, Hashimoto H, Fujimura T, Yamada Y, Kuroda T, Ueno S, Watanabe S, Nosaka S, Miyasaka M, Umezawa A, Matsuoka K, Maekawa T, Hirakawa S, Furukawa T, Fumino S, Tajiri T, Takemoto J, Souzaki R, Kinoshita Y, Fujino A.
Sirolimus treatment for intractable lymphatic anomalies: an open-label, single-arm, multicenter, prospective trial
Front Med (Lausanne). 2024 Feb 8:11:1335469. doi: 10.3389/fmed.2024.1335469. eCollection 2024.
2. Kobayashi T, Miura K, Ishikawa H, Sakata J, Takizawa K, Hirose Y, Toge K, Saito S, Abe S, Kawachi Y, Ichikawa H, Shimada Y, Takahashi Y, Wakai T, Kinoshita Y.
Malignancy After Living Donor Liver Transplantation.
Transplant Proc. 2024 Apr;56(3):660-666. doi: 10.1016/j.transproceed.2024.02.015. Epub 2024 Mar 21. PMID: 38519268
3. Takahashi Y, Kobayashi T, Kinoshita Y, Arai Y, Ohyama T, Yokota N, Sugai Y, Takano S.
Early and late outcomes of congenital biliary dilatation in pediatric patients
Pediatr Int. 2024 Jan-Dec;66(1):e15712. doi: 10.1111/ped.15712. PMID: 38563281

4. 久保 正昭, 渋井 勇一, 武本 淳吉, 宗崎 良太, 孝橋 賢一, 木下 義晶, 田口 智章, 田尻 達郎, 家入 里志, 高槻 光寿
腫瘍摘出術前にGnRH依存性思春期早発症への移行が確定診断された小児精巣Leydig細胞腫の1例
本邦報告24例からみた臨床的特徴
日本小児外科学会雑誌.
60(2):172-180:2024. 4
5. 高野 祥一, 木下 義晶, 小林 隆, 高橋 良彰, 荒井 勇樹, 大山 俊之, 横田 直樹, 菅井 佑, 細貝 亮介, 近藤 修平
急性腹症で発症し男性化兆候を契機に診断された副腎皮質癌の1例
日小外会誌
59: 892-898, 2023
6. 荒井 勇樹, 木下 義晶
短腸症候群患者における静脈栄養離脱後の問題.
小児外科.
Vol156 N010 : Page1051-1053, 2024.
7. 荒井 勇樹, 木下 義晶
SSI (surgical site infection)
小児外科,
Vol156 NO9, Page943 - 947, 2024.
8. 総編集／福井 次矢, 高木 誠,
小室 一成
共著／木下 義晶
今日の治療指針 私はこう治療している 小児科疾患「肥厚性幽門狭窄症」
医学書院 2024

2. 学会発表

1. 経皮的針生検後に呼吸不全を来たした胸腺過形成の1例
斎藤 浩一, 木下 義晶, 小林 隆,
荒井 勇樹, 大山 俊之
第3回新潟小児悪性腫瘍研究会・
学術集会
2024/3/1, 新潟
2. 総排泄腔遺残の消化管再建に
必要な解剖生理総論
木下 義晶,
第2回総排泄腔異常シンポジウム,
2024/3/2, 岡山
3. 外来経過観察中に無症候性胆石症を
合併した遺伝性球状赤血球症に対
する今後の治療
小林 隆, 木下 義晶, 大山 俊之,
荒井 勇樹, 斎藤 浩一
第37回日本小児脾臓・門脈研究会
2024/3/16, 京都
4. 当院における18トリソミーの出生
前診断と外科的介入の現状と課題
斎藤 浩一, 木下 義晶, 高橋 良彰,
小林 隆, 荒井 勇樹, 大山 俊之
第124回日本外科学会定期学術集会
2024/4/17-4/19, 名古屋
5. 日本外科学会とサブスペシャルティ
学会としての日本小児外科学会の
連携（専門医・施設認定委員会）
「新専門医制度におけるサブスペ
シャルティ小児外科領域の現状
～施設認定委員会より～」
木下 義晶
第61回日本小児外科学会学術集会
2024/5/29-5/31, 福岡
6. 経皮的針生検後に重篤な呼吸不全を
きたした胸腺過形成の1例
小林 隆, 木下 義晶, 大山 俊之,
荒井 勇樹, 斎藤 浩一
第61回日本小児外科学会学術集会
2024/5/29-5/31, 福岡
7. 総排泄腔異常症における小児期の
治療戦略と課題
荒井 勇樹, 木下 義晶, 小林 隆,
大山 俊之, 斎藤 浩一
第61回日本小児外科学会学術集会
2024/5/29-5/31, 福岡

8. 多発小腸穿孔を来たした急性腎不全を
伴う重症新生児仮死の2例

斎藤 浩一, 木下 義晶, 小林 隆,
荒井 勇樹, 大山 俊之
第61回日本小児外科学会学術集会
2024/5/29-5/31, 福岡

9. A review of rhabdomyosarcoma
cases treated during the last 30
years in the Niigata area in
Japan

木下 義晶,
SIOP Asia
2024/6/22-6/25, 横浜

10. 「小児泌尿器科腫瘍の現状と課題」
横紋筋肉腫の現状と課題

木下 義晶
第33回日本小児泌尿器科学会総会
2024/7/10-7/12, 茨木

11. 「総排泄腔遺残／鎖肛」総排泄腔遺
残症における排便機能予後と治療戦略
荒井 勇樹, 木下 義晶, 小林 隆,
武本 淳吉, 大山 俊之, 斎藤 浩一,
高野 祥一

第33回日本小児泌尿器科学会総会
2024/7/10-7/12, 茨木

12. 「CDH」右先天性横隔膜ヘルニアの
臨床像の検討

斎藤 浩一, 木下 義晶, 小林 隆,
荒井 勇樹, 大山 俊之
第60回日本周産期・新生児学会学術
集会

2024/7/13-7/15, 大阪

13. 当院の18トリソミーに対する小児外
科的介入の現状と課題

斎藤 浩一, 木下 義晶, 小林 隆,
武本 淳吉, 荒井 勇樹, 大山 俊之,
高野 祥一

第34回新潟周産母子研究会学術集会
2024/7/20, 新潟

14. 外傷により気道狭窄を来たした頸縦隔
リンパ管奇形の1例

荒井 勇樹, 木下 義晶, 小林 隆,
武本 淳吉, 大山 俊之, 斎藤 浩一,
高野 祥一

第20回日本血管腫血管奇形学会
学術集会

2024/7/26-7/27, 新潟

- | | |
|---|---|
| <p>15. 脈管奇形に対するシロリムス使用経験 武本 淳吉, <u>木下 義晶</u>, 小林 隆, 大山 俊之, 斎藤 浩一, 高野 祥一 第20回日本血管腫血管奇形学会学術集会 2024/7/26-7/27, 新潟</p> <p>16. 先天性胆道拡張症の治療 1 「胆管切除後14年後に肝内結石を合併した戸谷IV - A型の先天性胆道拡張症の1例 小林 隆, <u>木下 義晶</u>, 武本 淳吉, 大山 俊之, 荒井 勇樹, 斎藤 浩一, 高野 祥一 第47回日本臍・胆管合流異常研究会 2024/9/6-9/8, 名古屋</p> <p>17. Comprehensive management in Cloaca <u>木下 義晶</u> 2024 pertemuan Ilmiah Tahunan PERPEDSI 2024/10/10-10/15, インドネシア</p> <p>18. Current surgical management and Controversies in retroperitoneal Tumors ~Perinatally diagnosed adrenal gland, renal, and retroperitoneal tumors ~ <u>木下 義晶</u> 2024 pertemuan Ilmiah Tahunan PERPEDSI 2024/10/10-10/15, インドネシア</p> <p>19. [消化管 3 : 虫垂・結腸] 早期結腸癌を合併した家族性大腸腺腫症に対する腹腔鏡補助下大腸全摘術の1例 小林 隆, <u>木下 義晶</u>, 武本 淳吉, 大山 俊之, 荒井 勇樹, 斎藤 浩一, 高野 祥一 第40回日本小児外科学会秋季シンポジウム・PSJM 2024 「第43回日本小児内視鏡外科・手術手技研究会」 2024/10/23-/10/26, 東京</p> <p>20. [テデュグルチド2] MMIHSにおけるGLP-2アナログ製剤の使用経験 荒井 勇樹, <u>木下 義晶</u>, 小林 隆, 武本 淳吉, 大山 俊之, 斎藤 浩一, 高野 祥一 第40回日本小児外科学会秋季シンポジウム・PSJM 2024 「第53回日本小児外科代謝研究会」 2024/10/23-10/26, 東京</p> | <p>21. 小児患者に対するタムガイドの使用経験例 高野 祥一, <u>木下 義晶</u>, 小林 隆, 武本 淳吉, 荒井 勇樹, 大山 俊之, 斎藤 浩一 第289回新潟外科集談会 2024/12/7, 新潟</p> <p>22. 小児外科のトランジション(移行期医療)への取り組み 小林 隆, <u>木下 義晶</u> 第289回新潟外科集談会 2024/12/9, 新潟</p> <p>23. 新潟県におけるstage4高リスク神経芽腫の長期予後 今村 勝, 久保 暢大, 細貝 亮介, 阿部 咲子, 岩渕 晴子, 渡辺 輝浩, 小川 淳, 荒井 勇樹, <u>木下 義晶</u>, 今井 千速 第66回日本小児血液・がん学会学術集会 2024/12/13, 京都</p> |
|---|---|

分担研究報告書

診療ガイドラインの改定に関する研究

研究分担者 神人正寿 和歌山県立医科大学 教授

研究要旨

2013年に作成した血管腫・血管奇形診療ガイドラインの改訂のため、R2年度よりclinical question (CQ)を設定し、最新のエビデンスのシステムティックレビューをもとに各CQの推奨文や解説の作成を行った。R6年度は完成した本ガイドラインの内容について関連学会・研究会において積極的に周知し得られたフィードバックをもとに今後の改善点を検討した。

A. 研究目的

血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症および関連疾患は難治性の疾患の一つであるが、近年の治療薬の進歩により、ある程度の有効性を示す治療戦略が確立されてきた。しかし、病状によってはそれらの有効性が低くなるのみならず、副作用のためrisk-benefitの面で推奨されない可能性もある。

本研究班では2013年2月に班研究として「血管腫・血管奇形診療ガイドライン」を作成・公表した。そして、厚生労働省研究班の分担研究者と分担協力者などにより最新のEBMに基づいたガイドラインの改定が計画された。この改定版ガイドラインには、血管腫血管奇形の全体像について解説する総説部分と、主に治療の流れを示す「診療アルゴリズム」、診療上の具体的な問題事項であるclinical question (CQ)に対する「推奨文」、「推奨度」さらには「解説」よりなる「診療ガイドライン」が記載されている。本研究事業において我々はガイドライ

ンのさらなる改定を通じて標準的治療の周知に努めたい。本研究分担者は乳児血管腫および毛細血管奇形、青色ゴムまり様母斑症候群関連のCQを担当した。本年度は主に第3版のガイドラインの内容について関連学会・研究会において積極的に周知し得られたフィードバックをもとに今後の改善点を検討した。

B. 研究方法

①ガイドライン改定の流れ

最初に、ガイドライン作成チームが治療上問題となりうる事項および治療と密接に関連する事項を質問形式でCQとして列挙したものを草案とした。そのリストを委員全員で検討し取捨選択したあと、それぞれのCQに解答するため、システムティックレビューチームが国内外の文献や資料を網羅的に収集し、システムティックレビューを行った。

続いて、ガイドライン作成チームが再び本邦における医療状況や人種差も考慮しつつ、CQに対する推奨文を作成した。さらに、エビデンスレベルに基づいて各推奨文の推奨度を分類した。推奨文の後には「解説」を付記し、根拠となる文献の要約や解説を記載した。

アルゴリズムには上述のCQを位置づけて診療の流れをわかりやすく図示した。最終的には独立した専門家に査読を依頼し、さらにはパブリックコメントを広く募集した。また関連学会や研究会での討議を通じてガイドラインの完成度をさらに高めるべく努力した。

(倫理面への配慮)

企業から奨学寄付金は受けているが、文献の解析や推奨度・推奨文の決定に影響を及ぼしていない。

C. 研究結果

本研究者が担当したのは総説部分、6つのCQ、そして乳児血管腫の診療アルゴリズムの作成である。

本ガイドラインの内容について関連学会・研究会において積極的に発表を行ったところ、「乳児血管腫についてのレーザー治療についてのCQ」や「血管腫血管奇形に対するシロリムス外用剤の治療についてのCQ」について今後検討する予定はあるかとの質問を受けた。

→回答を以下のように行った

・乳児血管腫についてのレーザー治療については日常的に行われておりCQとして設定するかどうか今回の改訂の際にも慎重に議論したが、エビデンスの欠如を指摘する声が多く、総説部分への記載にとどめた。今後、プロプラノロール内服療法との併用を含め、エビデンスの蓄積を待つ必要がある。

・血管腫血管奇形に対するシロリムスグレルの有用性が臨床試験などで検討されており、現在その効果と安全性が評価されつつあるため、その結果を待ってガイドラインで言及できる可能性がある。

一方で、今回の改訂において乳児血管腫に対するプロプラノロール内服療法に関するCQが増え、治療開始あるいは中止のタイミング、そして副作用対策について一定の見解が出されたことについては評価する声多かった。

D. 考察

本ガイドラインでは、現在の血管腫・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症の診療現場の状況を十分に熟知した上で、診療上の疑問点・問題点を取り上げ、それらに対して可能な限り具体的な指針が提示されている。医師は常にエビデンスを背景とした最適な医療であるevidence based medicine (EBM)を施す事を要求される。しかし、各医師が日常診療の合

間に個人的にEBM の手法で情報を収集し評価することは容易でない。最新の文献や情報に基づいた信頼できるガイドラインの存在は臨床的に極めて価値が高いものと考える。本研究班の班員は、業績の豊富な専門家であり国際的に活躍しているため、血管腫・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症診療ガイドラインの改訂とさらなる普及による、標準的治療のさらなる周知徹底が期待される。また、本ガイドラインは世界的にも類を見ない、血管腫血管奇形の大部分を網羅する内容を有するため、英文化に向けての作業が必要になると思われる。

E. 結論

血管腫・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症の新しい文献的なエビデンスに基づき診療ガイドラインを改訂し、標準的治療を周知する本研究は国民の健康を守る観点から非常に重要な事業であり、患者QOLや予後を改善するとともに、患者の不安を取り除く効果も期待される。

F. 研究発表

1. 論文発表

(発表誌名巻号・頁・発行年等も記入)

なし

2. 学会発表

神人正寿、血管腫・血管奇形 基本と最新のトピックス、第48回日本小児皮膚科学会学術大会、2024.7

神人正寿、遺伝子からみた脈管奇形と薬物療法、第40回日本脳神経血管内治療学会学術集会、2024.11

G. 知的所有権の出願・取得状況（予定を含む）

1. 特許取得

なし

2. 実用新案登録

なし

3. その他

なし

別紙3

厚生労働科学研究費補助金 難治性疾患等政策研究事業（難治性疾患政策研究事業） 分担研究報告書

難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症 および関連疾患についての調査研究

研究分担者

藤野 明浩 慶應義塾大学医学部 外科学（小児） 教授

研究要旨

ガイドライン改訂作が終了した。
厚労科研田口班・照井班と共同でデータベース「リンパ管腫全国調査2015」の長期経過
2次調査の準備を開始した。HP内に調査サイトを追加し、前登
録施設に追跡調査を依頼する。2024年度末に田口班・照井班チームと連携の合意を得た。
HP リンパ管疾患情報ステーションは患者さんサイトを中心として更新しており、現時点
で153万件のページ閲覧回数を記録して、広く利用されている。また患者さんから質問があり、
回答している。

A. 研究目的

- 1, ガイドライン策定
- 2, 症例調査研究
- 3, HP/関連シンポジウム（小児リンパ管疾患シンポジウム）にて情報公開を行う。

にて英文化作業が行われた。照井班分担研究者が胸部に関するCQの英文化校正を担当し、年度末に作業を終了した。

一方、第4版の作成チームの編成が始まっています。照井班においては、これまでと同様に胸部・気道に関するリンパ管疾患に関するCQ検討を担当する見込みであるがまだ作業は始まっていない。

C. 研究結果

- 1, 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行われ、2023年3月末に出版された。前回と同様に疾患の解説としてリンパ管奇形（リンパ管腫）の総説を藤野が担当した。世界で唯一の脈管疾患全体に対するガイドラインであり、本年度は厚労科研秋田班

にて英文化作業が行われた。照井班分担研究者が胸部に関するCQの英文化校正を担当し、年度末に作業を終了した。

一方、第4版の作成チームの編成が始まっています。照井班においては、これまでと同様に胸部・気道に関するリンパ管疾患に関するCQ検討を担当する見込みであるがまだ作業は始まっていない。

2, 小児リンパ管疾患シンポジウムは第5回が2023年1月22日（日）PMに行われた。本シンポジウムは2015年以降ほぼ2年毎に開催している。本研究班における研究成果や取り組みの発表も含めて2025年度に第6回を開催することを予定している。詳細は未定

である。

2022年度にリニューアルし、コンテンツの全面改訂を行ったHP リンパ管疾患情報ステーション

(<http://lymphangioma.net>) は、現在ホームページアクセス数は153万件を超え(2025年4月23日現在)、「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。患者の体験の共有・対話の場として増設した「患者さん体験ページ」の質疑項目を大幅に拡充した3年前の5月頃からはアクセス数が急増した。またシンポジウム後のアンケートでもこのページへの新たな質疑項目の要望が寄せられ、ページへの期待度がうかがえる。

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て管理をしてきたが、今後も、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こととなる。

また分担研究者小関らが AMED 研究の一環として、関連学会、医療従事者、患者及び国民への普及・啓発を目的として作成した難治性血管腫・血管奇形薬物療法研究班情報サイト <https://cure-vas.jp/> も連携して運用している。

D. 考察

難病として一般への情報発信の一環として、ホームページ「リンパ管疾患情報ステーション」を拡充しており、本分担研究では2025年度に「第6回小児リンパ管疾患シンポジウム」を開催予定である。

今後2次調査による症例登録研究が計画されており、そのデータの詳細な解析から診療指針に関わる結果を導出できるよう進めて行きたい。また引き続き本研究の対象疾患を国に難病として指定されるべく提言を進めて行きたい。引き続きこの研究は学問的・社会的に大きく貢献できると見込まれる。

E. 結論

軟部体表リンパ管疾患(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、前研究班から引き継ぎ、ガイドラインの改定、データベース利用研究、HP/シンポジウムによる情報公開等、多角的に研究を進めている。

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と登録症例の2次調査をもって、来年度以降の難病見直しの機会に新規難病として提言する機会を待つ。

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

- Yaga T, Maekawa T, Sakamoto K, Fujino A, Miyazaki O, Kubota M, Ishiguro A. Kasabach-Merritt phenomenon following intratumoral hemorrhage: A case report. *Pediatr Int*. 2024 Jan-Dec;66(1):e15806.
- Ozeki M, Endo S, Yasue S, Nozawa

- A, Asada R, Saito AM, Hashimoto H, Fujimura T, Yamada Y, Kuroda T, Ueno S, Watanabe S, Nosaka S, Miyasaka M, Umezawa A, Matsuoka K, Maekawa T, Hirakawa S, Furukawa T, Fumino S, Tajiri T, Takemoto J, Souzaki R, Kinoshita Y, Fujino A. Sirolimus treatment for intractable lymphatic anomalies: an open-label, single-arm, multicenter, prospective trial. *Front Med (Lausanne)*. 2024 Feb 8;11:1335469.
3. Ozeki M, Tanaka A, Kuniyeda K, Nozaki T, Fujino A, Nomura T, Uemura N, Suenobu S, Aramaki-Hattori N, Hayashi A, Kato A, Kiyosue H, Imagawa K, Nagao M, Shimizu F, Ochi J, Horiuchi S, Ohyama T, Ando H, Nagabukuro H. A phase 2 randomized, double-blind trial of ART-001, a selective PI3K α inhibitor, for the treatment of slow-flow vascular malformations. *Orphanet J Rare Dis*. 2025 Feb 10;20(1):64.
4. Fujino A, Kuniyeda K, Nozaki T, Ozeki M, Ohyama T, Sato I, Kamibeppu K, Tanaka A, Uemura N, Kanmuri K, Nakamura K, Kobayashi F, Suenobu S, Nomura T, Hayashi A, Nagao M, Kato A, Aramaki-Hattori N, Imagawa K, Ishikawa K, Ochi J, Horiuchi S, Nagabukuro H. The Prospective Natural History Study of Patients with Intractable Venous Malformation and Klippel-Trenaunay Syndrome to Guide Designing a Proof-of-Concept Clinical Trial for Novel Therapeutic Intervention. *Lymphat Res Biol*. 2024 Feb;22(1):27-36. Epub 2023
5. Ozeki M, Endo S, Yasue S, Asada R, Saito AM, Hashimoto H, Ueno S, Watanabe S, Kato M, Deie K, Nosaka S, Miyasaka M, Umezawa A, Matsuoka K, Kato M, Kuroda T, Maekawa T, Hirakawa S, Furukawa T, Fumino S, Tajiri T, Takemoto J, Kawakubo N, Fujino A. Sirolimus treatment for intractable vascular anomalies (SIVA): An open-label, single-arm, multicenter, prospective trial. *Pediatr Int*. 2025 Jan-Dec;67(1):e70002.

10. 学会発表

- 1) 藤野明浩. リンパ管疾患に対する最近の研究と外科的治療. 第 83 回日本医学放射線学会 (20240411_14, 横浜)
- 2) Fujino A, et al. The timing of onset is a prognostic factor in cystic lymphatic malformation (lymphangioma): a nationwide survey in Japan. Pacific Association of Pediatric Surgeons 2024 (2024.4.30, 香港)
- 3) 藤野明浩 他. 難治性嚢胞状リンパ管奇形及びKTSに対する治療戦略第44回日本静脈学会総会(20240613, 軽井沢)

- 4) 藤野明浩, 木下義晶, 小関道夫, 野坂俊介, 松岡健太郎, 上野滋, 加藤源俊, 山岸徳子. 囊胞性リンパ管奇形（リンパ管腫）における発症時期による検討：全国調査結果. 第60回日本周産期・新生児医学会学術集会 (2024.7.15, 大阪)
- 5) 藤野明浩, 特別講演：リンパ管腫（囊胞状リンパ管奇形）患者の長期QOL. 第34回日本小児外科QOL研究会(2024.10.12, 弘前)
- 6) 加藤源俊, 藤野明浩, 出口晴教, 近藤 彩, 山岸徳子. 眼窩リンパ管奇形に対するシロリムス内服治療. 第 20 回日本血管腫血管奇形学会学術集会 (2024.7.27, 新潟)
- 7) 近藤彩、出口晴教、熊谷知子、城崎浩司、工藤裕実、狩野元宏、加藤源俊、山田洋平、藤野明浩. 当院小児外科における脈管奇形に対するシロリムス療法の経験・副作用とトラフ値の関係-第20回日本血管腫血管奇形学会学術集会(2024.7.27, 新潟)
- 8) 山岸 徳子, 下島 直樹, 加藤 源俊, 藤野 明浩. リンパ管腫（囊胞状リンパ管奇形）およびKlippel-Trenaunay症候群の蜂窩織炎治療の後方視的検討. 第20回日本血管腫血管奇形学会学術集会(2024.7.27, 新潟)
- 9) 山本 洋輔、荒牧 典子、小柳 喬幸、松原 健太郎、塚田 実郎、田村 全、中塚 誠之、野崎 太希、尾原 秀明、井上 政則、藤野 明浩、陣崎 雅弘. 治療方針に難渋している乳児期に発見された孤発性上腕動脈瘤の1例. 第20回日本血管腫血管奇形学会学術集会(2024.7.27, 新潟)
- 10) 橋口太郎、前川貴伸、山野詩央、井口晶裕、吉田和恵、彦坂信、三井真理、宮坂実木子、下島直樹、羽賀千都子、藤野明浩. 9 歳時から静脈拡張が全身に拡大し、診断に苦慮している 10 歳女子. 第 20 回日本血管腫血管奇形学会学術集会(2024.7.27, 新潟)

G. 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（難治性疾患等政策研究事業）
(分担) 研究報告書

難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究

研究分担者 杠 俊介 信州大学医学部形成再建外科学教室 教授

研究要旨：分担研究者としての研究活動、また日本血管腫血管奇形学会理事長として、班会議、国内外関連学術集会、患者会参加型企画において講演や司会を行い、当該難病についての知見を創出蓄積し、社会的に啓発した。

研究分担者氏名・所属研究機関名及び所属研究機関における職名
(分担研究報告書の場合は、省略)

A. 研究目的

長期にわたり患者のQOLを深刻に損なう難治性血管腫・脈管奇形に関して、国内外の団体の意見を統合し、広く社会に啓発し、より安全で効果的な治療法を適切な形で患者に提供することにつなげる。

B. 研究方法

班会議、学会、患者会参加型討論会などにおいて口演や司会をし、意見交換を行い合意形成に務めた。難治脈管奇形への採寸オーダーメイド弾性ストッキングの長期着用の臨床研究の結果を国際学会にて公表した。静脈奇形に対するオルダミン硬化療法についての多施設医師主導治験の結果を公表し保険収載に向けた活動を関連各学会と連動して行っている。当該疾患に関する国際学会とわが国の学会との連携を推進する活動を行った。

(倫理面への配慮)

「人を対象とする医学系研究に関する倫理指針」を遵守した。

C. 研究結果

肥大を伴う混合型脈管奇形に対する採寸オーダーメイド弾性着衣長期着用治療および静脈奇形に対するオルダミン硬化療法の安全性と有効性についてのエビデンスを多施設共同の臨床研究と医師主導治験により創出し、公表することができた。

国際血管腫脈管奇形学会の学術委員にわが国の研究者2名を加えることができた。

D. 考察

難治性血管腫・脈管奇形には様々な病態の疾患があり、個々に対して適した治療と社会的扶助が求められる。学会や公開企画を通してその啓発持続が重要である。

また、具体的な治療を安全効果的に適切な形で患者に届けられるように継続的研究活動が必要である。

E. 結論

難治性血管腫・脈管奇形についての社会啓発および治療法の開発と適切使用についてのエビデンスを創出できた。

F. 健康危険情報 総括研究報告書に記入

G. 研究発表

1. 論文発表

Ozaki M, Nomura T, Osuga K, Kurita M, Hayashi A, Yuzuriha S, Aramaki -Hattori N, Hikosaka M, Nozaki T, Ozeki M, Ochi J, Akiyama S, Kakei Y, Miyakoda K, Kashiwagi N, Yasuda T, Iwashina Y, Kaneko T, Kamibeppu K, Soejima T, Harii K: Effect and safety of ethanolamine oleate in sclerotherapy in patients with difficult-to-resect venous malformations: A multicenter, single -arm study. PLoS One. 2025 Jan 31;20(1):e0303130.

2. 学会発表

Yuzuriha S: In what situations is surgical intervention necessary for the treatment of vascular anomalies? The 76th Annual Congress of the Korean Surgical Society, Seoul, Oct 31, 2024.

H. 知的財産権の出願・登録状況

該当無し

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患等政策研究事業）
(分担) 研究報告書

難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究
研究分担者 野村 正 神戸大学医学部附属病院形成外科 准教授

研究要旨：研究班の分担研究者として班会議に出席し、班全体の研究活動に関して審議を行った。重症乳児血管腫、リンパ管奇形や毛細血管奇形を伴う混合型血管奇形（クリッペル・トレノナー・ウェーバー症候群など）患者への局所治療（手術ならびに硬化療法）、物理療法、薬物療法の効果を検証した。

A. 研究目的

本研究は血管腫・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症およびその関連疾患を対象とする。これらの疾患には長期にわたり患者のQOLを深刻に損なう多くの難治性の病態が含まれる。これらの難治性血管腫・脈管奇形に関して、関連各学会、患者団体の意見を統合して提言し、広く医学会・社会の認知を得ることを目的とする。さらに治療法が確立していない難治な病態を呈している患者たちの生活の質を向上するための局所療法（手術ならびに硬化療法）や物理療法を代表とする病状コントロールの手法を開発し、それらを患者たちに経済的地理的不利無く提供できるような制度を模索する。

B. 研究方法

臨床研究では、静脈奇形に対するモノエタノールアミンオレイン酸塩による硬化療法の①有効性ならびに安全性の検討、②凝固マーカーの変動についての研究を行った。政策面では研究班の分担研究者として班会議に出席し、レジストリーデータの活用法について議論した。

（倫理面への配慮）

集計されたデータは、「連結可能匿名化された情報」「人体から採取された試料等を用いない」「観察研究である」「被験者の心理的苦痛を伴わない」ものであった。人権擁護については厚生労働省の「疫学研究における倫理指針」「臨床研究に関する倫理指針」に準拠しており、「人を対象とする医学系研究に関する倫理指針」を遵守した。

C. 研究結果

①「静脈奇形に対するモノエタノールアミンオレイン酸塩による硬化療法の有効性ならびに安全性の検討」

前向き単群介入試験として、切除困難な静脈奇形44症例（嚢胞型22とびまん型22例）がエントリーされ、主要評価項目としてMRIによる病変体積の変化を、主要副次評価項目として主に疼痛に関してvisual analog scaleを用いて評価した。主要評価項目に関しては、44例中26例（59.1%、95%信頼区間：44.41–72.31%）が20%以上の奇形容積減少を達成し、16例が嚢胞型（72.7%、51.85–86.85%）、10例がびまん型（45.5%、26.92–65.34%）であった。両コホートとも硬化療法後3ヵ月で、病変に関連した自己申告の疼痛スコアに有意な改善がみられた。死亡または重篤な有害事象は発生しなかった。

②「静脈奇形に対するモノエタノールアミンオレイン酸塩による硬化療法における凝固マーカーの変動」

上記①研究の事後解析として行った。MRIで決定された容積縮小と凝固マーカーにおける硬化療法後の変化との相関を評価した。術後1日目（POD1）のDダイマー値は、治療前のスクリーニングと比較して有意に増加したが（ $p<0.001$ ）、フィブリノゲン値とプロトロンビン国際標準化比値は変化しなかつた。体積減少20%以上の達成群では、体積減少率と病変体積あたりのEO投与量（mL/cm³； Spearmanの $\rho=0.43$, $p=0.03$ ）の間に有意な相関が観察された。非達成群は達成群より有意に高いDダイマー上昇を示した（ $p=0.03$ ）。

D. 考察

静脈奇形に対するモノエタノールアミンオレイン酸塩による硬化療法の有効性ならびに安全性が証明された。さらに、POD1におけるDダイマー値の上昇は治療効果の予測因子とはならず、治療効果評価における臨床的有用性が限定的であることが明らかになった。これらの結果は静脈奇形に対する治療方法のさらなる研究開発に寄与できる。

E. 結論

難治で重症な混合型脈管奇形に対する集学的治療が必須であり、さらなる治療方法の開発が急務である。

F. 健康危険情報

（総括研究報告書にまとめて記入）

G. 研究発表

1. 論文発表

Ozaki M, Nomura T, Osuga K, Kurita M, Hayashi A, Yuzuriha S, Aramaki-Hattori N, Hikosaka M, Nozaki T, Ozeki M, Ochi J, Akiyama S, Kakei Y, Miyakoda K, Kashiwagi N, Yasuda T, Iwashina Y, Kaneko T, Kamibeppu K, Soejima T, Harii K. Efficacy and Safety of Ethanolamine Oleate in Sclerotherapy in Patients with Difficult-To-Resect Venous Malformations: A Multicenter, Open-Label, Single-Arm Study. PLoS One. 20(1), e0303130, 2025.

H. 知的財産権の出願・登録状況

該当なし

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患政策研究事業）
(総括・分担) 研究報告書

難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究

研究分担者 野崎 太希 慶應義塾大学医学部放射線科学教室(診断)・准教授

研究要旨：難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症および関連疾患について、主に難治性血管奇形や血管奇形症候群について、個々の症例のコンサルテーション、画像評価、病態検討、文献検索を行い、学会発表並びに3本の英文誌への投稿、出版を行なった。全体班会議を通して、班研究の審議内容について議論を行い、指定難病基準・重症度分類改訂・小児慢性特定疾病に係る疾患概要および診断の手引きの更新を行った。また血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形・リンパ管腫症診療ガイドライン第3版の改訂に向けた議論を深めた。適切な診断・診療を行うことを全国に推進するために、日本医学放射線学会、日本IVR学会、血管腫・血管奇形学会、日本小児放射線学会、日本画像医学会において画像診断学、画像評価法、問題点、画像上の陥りやすいピットフォール、鑑別診断などの講演を行い、全国への啓蒙・普及を行なった。

A. 研究目的

本研究班で取り扱う疾患のうち、希少難治性脈管奇形・血管腫について病態や診断法を含めて解決すべき課題が多い。しかし近年は遺伝子異常が発見され、新薬への開発へと繋がりつつある。これらに関係する遺伝子異常・カスケードの知見、そして遺伝子異常をターゲットとした新たな分子標的治療・治験等に関する最新情報、新たに出版された論文の検索など、updateが必要である。また、それらを踏まえた指定難病基準・重症度分類改訂・小児慢性特定疾病に係る疾患概要および診断の手引きの更新作業が必要である。同研究班において作成した血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形・リンパ管腫症診療ガイドライン2022(第3版)の普及、周知を高め、さらに診療ガイドライン改訂への議論と、同領域のさらなる適切な診療を行っていく体制を整えることを目的とする。

B. 研究方法

コンサルテーション症例や学術論文および学会・班会議での議論や症例検討を通して、個々の希少難治性血管奇形・症候群の症例について考察を行った。また近年出版されている英文誌を中心に、遺伝子情報とを含む最新の知見も収集した。そして論文発表や学会での教育講演及び啓蒙活動を行なった。全国からのコンサルテーション業務ではよりよい診療につながるように、画像情報から最大限の情報を引き出し、それらの情報提供およびコンサルテーション先へのフィードバックを行った。また班会議ではさまざまな活動に関して審議を行い、指定難病基準・重症度分類改訂・小児慢性特定疾病に係る疾患概要

および診断の手引きの更新を行った。

(倫理面への配慮)

「疫学研究における倫理指針」「臨床研究に関する倫理指針」、「人を対象とする生命科学・医学系研究に関する倫理指針」を遵守した。

C. 研究結果

学会や研究会を通して、現地でいろいろな人の情報交換を盛んに行ってきた。また、文献検索と現地での最新のアップデートを含めた、希少脈管奇形症候群の情報収集にも力を入れた。画像診断を中心に、難治性脈管奇形、血管腫に関連する疾患について、全国の様々な施設からのコンサルテーションをこれまでと同様に行った。また、文献検索やコンサルテーションを通して収集した情報と本邦での新規薬剤の保険適応拡大等を複合して、指定難病診断基準・重症度分類改訂作業・小児慢性特定疾病に係る疾患概要および診断の手引きの更新作業を行った。

適切な診断・診療を行うことを全国に推進するために、「リンパ系構築異常の画像診断」「血管奇形の画像診断」「血管腫・脈管奇形の画像診断と近年の知見および国内動向」「血管腫・血管奇形の画像診断」というタイトルで特に放射線科医(IVR専門医、放射線診断専門医)、形成医外科医、小児科医、小児外科医等を対象に、日本IVR学会総会、血管腫・血管奇形学会、日本画像医学会、日本小児放射線学会において最新の知見を含めて講演し、啓蒙活動を行った。血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形・リンパ管腫症診療ガイドライン第3版の普及、

啓蒙活動に加え、さらにガイドライン改訂については、班会議、学会を通して議論を行なった。また本年は血管奇形に対する新規治療薬、治療法に関する英文論文が3編採択され、世界に発信することができた。

D. 考察

一昨年までの同研究班で作成した血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形・リンパ管腫症診療ガイドライン2022(第3版)をさらに全国へと普及させていき、全国での診療レベルをあげていくことが重要な課題であるが、これまでの努力により順調に普及してきている印象である。また英文誌への投稿も継続的に行なうことで、本邦での診療を全世界へ発信することも重要である。同研究班で構築してきた難病プラットフォームのレジストリ登録を積極的にさらに継続的に進めていき、それらのデータからさまざまな症候群を含む難治性脈管奇形の病態解析・画像解析を行い、今後の正確な診断および治療の確立へつなげる。また現在行なっている指定難病申請を含め、患者の方々に小児期から成人期へのシームレスな情報提供とより適切な診療および経済援助ができるよう政策提言へつなげる。

E. 結論

症候群を含む希少難治性血管奇形の正確な病態や発症頻度の把握、情報提供・経済支援を含めた制度の整備のために、血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形・リンパ管腫症診療ガイドライン2022(第3版)の普及、そして改訂への議論、啓蒙活動を行なっていることは意義が大きい。難病プラットフォーム、疾患レジストリの活用をさらに進め、全国の医療関係者への周知や政策提言、世界への発信も引き続き進めていきたい。

F. 健康危険情報

(総括研究報告書にまとめて記入)

G. 研究発表

1. 論文発表

- 1) Ozaki M, Nomura T, Osuga K, Kurita M, Hayashi A, Yuzuriha S, Aramaki-Hattori N, Hikosaka M, Nozaki T, Ozeki M, Ochi J, Akiyama S, Kakei Y, Miyakoda K, Kashiwagi N, Yasuda T, Iwashina Y, Kaneko T, Terashi H, Harii K. Effect and safety of ethanolamine oleate in sclerotherapy in patients with difficult-to-resect venous malformations: a multicenter, single-arm-study. PLoS One. 2025; 20(1): e0303130
- 2) Ozeki M, Tanaka A, Kuniyeda K, Nozaki T, Fujino A, Nomura T, Uemura N, Suenobu S, Aramaki-Hattori N, Hayashi A, Kato A, Kiyosue H, Imagawa K, Nagao M, Shimizu F, Ochi J,

Horiuchi S, Ohyama T, Ando H, Nagabukuro H. A phase 2 randomized, double-blind trial of ART-001, a selective PI3K α inhibitor, for the treatment of slow-flow vascular malformations. Orphanet J Rare Dis. 2025; 20(1): 64

- 3) Nomura T, Ozaki M, Osuga K, Kurita M, Hayashi A, Yuzuriha S, Aramaki-Hattori N, Hikosaka M, Nozaki T, Ozeki M, Ochi J, Akiyama S, Kakei Y, Miyakoda K, Kashiwagi N, Yasuda T, Iwashina Y, Kaneko T, Terashi H, Harii K. Post-hoc analysis of a multicenter clinical trial: correlation between coagulation factor changes and MRI-defined treatment outcomes following sclerotherapy for venous malformations. J Clin Med. 2025; 14(3): 905

2. 学会発表

- 1) 野崎太希 : リンパ系構築異常の画像診断 第83回日本医学放射線学会総会 横浜 2024年4月13日
- 2) 野崎太希 : 血管奇形の画像診断 第24回日本IVR学会技術教育セミナー/第53回日本IVR学会総会 和歌山 2024年5月23日
- 3) 野崎太希 : 血管腫・脈管奇形の画像診断と近年の知見および国内動向 第60回日本小児放射線学会 東京 2024年6月21日
- 4) 山本洋輔、荒牧典子、小柳喬幸、松原健太郎、塚田実郎、野崎太希、尾原秀明、井上政則、藤野明浩、陣崎雅弘: 治療方針に難渋している乳児期に発見された孤発性上腕動脈瘤の1例 第20回日本血管腫血管奇形学会学術集会 新潟 2024年7月26日
- 5) 野崎太希 : 血管腫・血管奇形の画像診断(血管系・リンパ管系) 第15回血管腫/血管奇形講習会/第20回日本血管腫血管奇形学会学術集会 新潟 2024年7月26日
- 6) 野崎太希 : 血管腫・血管奇形の画像診断 第44回日本画像医学会 東京 2025年2月14日

H. 知的財産権の出願・登録状況(予定を含む。)

1. 特許取得

該当なし

2. 実用新案登録

該当なし

3. その他

該当なし

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患政策研究事業）

分担研究報告書

難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症
および関連疾患についての調査研究

分担課題 血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形・リンパ管腫症診療ガイドライン2022
の改訂・英文化・普及・啓発

石川 耕資 国立大学法人北海道大学 大学院医学研究院 形成外科学教室 助教

研究要旨

本研究は血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症および関連疾患について、最新のエビデンスに基づいて診療ガイドラインの策定することで、患者、患者家族、医療従事者ならびに一般市民への情報提供に貢献することを目指している。令和6年度は、「血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形・リンパ管腫症診療ガイドライン2022」（第3版）の改訂・英文化・普及・啓発を行った。

A. 研究目的

本研究は血管腫・血管奇形・リンパ管奇形・リンパ管腫症およびその関連疾患を対象とし、指定難病、小児慢性特定疾病と照合しつつ、対象を広く医学会、社会・国民に普及・啓発につとめるものである。

本研究班の前身である難治性血管腫・血管奇形についての調査研究班（平成21-23年度佐々木班）において、「血管腫・血管奇形診療ガイドライン2013」が策定・公表された。続いて、平成26-28年度の本研究班（三村班）において、「血管腫・血管奇形・リンパ管奇形診療ガイドライン2017」（第2版）が策定・公表され、令和2年3月には、その英訳である「Japanese Clinical Practice Guidelines for Vascular Anomalies 2017」が、Journal of Dermatology、Pediatrics International、Japanese Journal of Radiologyの3誌に掲載され世界に発信された。

本研究班では、令和2年度から診療ガイドラインの改訂作業を進め、令和5年3月24日に「血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形・リンパ管腫症診療ガイドライン2022」（第3版）を発行した。令和6年度は、その改訂・英文化・普及・啓発を目的とした。

B. 研究方法

「血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形・リンパ管腫症診療ガイドライン2022」（第3版）の改訂・英文化を行い、市民公開講座において、その普及・啓発を行う。

（倫理面への配慮）

該当なし

C. 研究結果

令和6年9月6日、東京で開催された一般社団法人日本医学会連合第2回診療ガイドライン統括委員長会議に出席し、診療ガイドライン作成における利益相反管理、迅速な更新の取組み等に関して知見を得た。その知見を反映して、利用者の利便性の向上を目指し、PDF目次機能・ページ内ハイパーキークを追加した「血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形・リンパ管腫症診療ガイドライン2022」（第3.1版）を令和6年9月24日に発行した。

英文翻訳会社が英訳した「血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形・リンパ管腫症診療ガイドライン2022」（第3版）に引用文献を挿入し、医学用語・略語・記号の校正を行い、略語一覧を作成した。

令和7年3月2日、本研究班主催オンライン市民公開講座において、「リンパ浮腫・慢性創傷に対する低酸素応答システム活性化薬剤による薬物療法の開発：動物実験からの考察」と題した発表を行った。

D. 考察

日本医学会連合第2回診療ガイドライン統括委員長会議において、今後の診療ガイドライン改訂における利益相反管理、迅速な更新の取組み等に関して知見を得た。

本研究班主催のオンライン市民公開講座において、本疾患に罹患する患者や家族、医療従事者に対してわかりやすい情報提供を行うことができたと考えられる。

E. 結論

「血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形・リンパ管腫症診療ガイドライン2022」(第3版)の改訂・英文化・普及・啓発を行った。

F. 健康危険情報

該当なし

G. 研究発表

1. 論文発表

1. Ishikawa K, Maeda T, Funayama E, Murao N, Miura T, Sasaki Y, Seo D, Mitamura S, Oide S, Yamamoto Y, Sasaki S: Fluoroscopy- and endoscopy-guided transoral sclerotherapy using foamed polidocanol for oropharyngolaryngeal venous malformations in a hybrid operation room: A case series. *J Clin Med* 13: 2369, 2024
2. Fujino A, Kuniyeda K, Nozaki T, Ozeki M, Ohyama T, Sato I, Kamibeppe K, Tanaka A, Uemura N, Kanmuri K, Nakamura K, Kobayashi F, Suenobu S, Nomura T, Hayashi A, Nagao M, Kato A, Aramaki-Hattori N, Imagawa K, Ishikawa K, Ochi J, Horiuchi S, Nagabukuro H: The prospective natural history study of patients with intractable venous malformation and Klippel-Trenaunay syndrome to guide designing a proof-of-concept clinical trial for novel therapeutic intervention. *Lymphat Res Biol* 22: 27-36, 2024
3. 佐々木了, 村尾尚規, 石川耕資: 特集／血管腫・脈管奇形の長期治療経過: 血管腫・脈管奇形の長期治療経過の総論と今後の展望. 形成外科 67: 445-455, 2024
4. 石川耕資, 佐々木雄輝, 佐々木了: 血管腫・脈管奇形の遺伝子異常. 日小児血がん会誌 61: 339-345, 2024

2. 学会発表

1. Ishikawa K, et al: Targeted next-generation sequencing for detection of *PIK3CA* mutations in archival tissues from patients with Klippel-Trenaunay syndrome: A retrospective study of 14 patients. International Society for the Study of Vascular Anomalies (ISSVA) World Congress 2024, Madrid, Spain, 2024.5.7-10
2. Ishikawa K, et al: Fluoroscopy and endoscopy-guided transoral sclerotherapy using foamed polidocanol for oropharyngolaryngeal venous malformations in a hybrid o

peration room: A case series. International Society for the Study of Vascular Anomalies (ISSVA) World Congress 2024, Madrid, Spain, 2024.5.7-10

3. Ishikawa K, et al: International Session. Session 2. Free Paper 1. Genotype-phenotype analyses in patients with Klippel-Trenaunay syndrome using targeted next-generation sequencing for detection of *PIK3CA* mutations. The 44th Annual Meeting for Japanese Society of Phlebology, Karuizawa, 2024.6.13-14
4. 石川耕資, 他: シンポジウム11 ニッポンの形成外科へ血管腫・脈管奇形の未来を託す 徹底討論、これからの血管腫・脈管奇形治療. 顔面の毛細血管奇形に対する色素レーザー治療の長期成績とこれからの治療. 第67回日本形成外科学会総会・学術集会, 神戸, 2024.4.10-12
5. 石川耕資, 他: 下肢Klippel-Trenaunay症候群症例の手術検体におけるmTOR経路のリン酸化タンパク質の病理組織学的検討. 第67回日本形成外科学会総会・学術集会, 神戸, 2024.4.10-12
6. 石川耕資, 他: 要望演題8 Klippel-Trenaunay症候群. 次世代シーケンスによる下肢Klippel-Trenaunay症候群に対する*PIK3CA*遺伝子変異解析と表現型の検討. 第44回日本静脈学会総会, 軽井沢, 2024.6.13-14
7. 石川耕資, 他: 顔面の毛細血管奇形に対する色素レーザー治療の長期経過と合併症の検討. 第16回日本創傷外科学会総会・学術集会, 金沢, 2024.7.11-12
8. 石川耕資, 他: Klippel-Trenaunay症候群における*PIK3CA*遺伝子型とmTOR経路タンパク質リン酸化についての比較検討. 第20回日本血管腫血管奇形学会学術集会, 新潟, 2024.7.26-27 [優秀演題賞]
9. 石川耕資, 他: 顔面の毛細血管奇形に対する色素レーザー治療の中長期的な治療効果の検討. 第45回日本レーザー医学会総会, 京都, 2024.11.9-10

H. 知的財産権の出願・登録状況

(予定を含む。)

1. 特許取得
該当なし

2. 実用新案登録
該当なし

3. その他
該当なし

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患政策研究事業）
分担研究報告書

難治性血管腫・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究
診療ガイドライン改訂

研究分担者 長濱 通子 神戸大学医学部付属病院 医員

研究要旨

令和4年度に公開された「血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症診療ガイドライン2022」の英文化の検討および、脈管奇形の診療をおこなう皮膚科医師に対し、疾患への理解が深まるように幅広く周知することを目的としてガイドラインの解説を行った。

A. 研究目的

血管腫血管奇形、脈管奇形などの疾患は、病態が複雑な疾患で、疾患概念が整理されておらず、病態の全貌を把握することが難しく、多科にわたる複合的な治療が必要であるにも関わらず、共通の認識で治療戦略などをたてることが難しい状態であったが、本研究班により「血管腫・血管奇形診療ガイドライン」が2013年に公表され、疾患概念が統一されてきた。その後、原因遺伝子の解析や治療薬の開発など最新の知見をガイドラインに反映させる目的で改訂を行い、「血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症診療ガイドライン2022」が2023年に公開された。今回、2022年版ガイドラインの英文化への検討を行い、また公開されたガイドラインを皮膚科医師に対して解説し、疾患への理解を深めることを目的とした。

B. 研究方法

「血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症診療ガイドライン2022」が広く周知されるようにガイドラインの英文化を検討した。

皮膚科および関連学会での講演で「血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症診療ガイドライン2022」に関する解説をおこなった。

（倫理面への配慮）

とくに問題とされる項目なし。

C. 研究結果

脈管奇形は難解な疾患であるため、「血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症診療ガイドライン2022」では、疾患にじみのない皮膚科医師に対しても理解しやすいように、診療の場面で問題となるような点をクリニカルクエスチョンとして提起し、解説されている。今回は、関連するより多くの診療科や医師に診療の

ガイドラインが浸透するようにガイドラインの英文化を検討した。皮膚科および関連学会において、診療ガイドラインをわかりやすく解説することで、皮膚科医の疾患に対する理解が深まるよう周知を進めた。

D. 考察

血管腫血管奇形、脈管奇形などの疾患は、病態が複雑な疾患で、病態の全貌を把握することが難しく、患者のみならず医療従事者の理解も低い疾患である。また多科にわたる複合的な診療及び治療が必要であるにも関わらず、共通の認識で治療戦略などをたてることが難しい状態で、専門医が揃わず、診断までの過程が長期かかってしまうことが多い。複雑な脈管奇形の病態を理解し、患者の疾病的診断までの期間が少しでも短縮され、治療に結び付くようにするために本ガイドラインの果たす役割は大きいと考えられ、より多くの医師に周知させる必要性があると考えられた。

E. 結論

血管腫血管奇形、脈管奇形などの疾患は、病態が複雑な疾患で、病態の全貌を把握することが難しいが、より多くの医師および医療従事者、患者が共通の疾患に対する認識を持つ必要があり、本ガイドラインはそのために必要な役割を果たすと考えられる。また病因に関する遺伝子解析や新たな治療薬についての研究が進んでいるため、次回の改訂では新たな知見を加える必要性がある。

G. 研究発表

1. 論文発表
 - ・長濱通子：皮膚科レーザー治療におけるリスクマネジメント Visual Dermatology 23 (6):576-577, 2024
2. 学会発表
 - ・吉岡愛育, 長濱通子ほか: RASA1 バリアント

による capillary
malformation-arteriovenous malformation
の 1 例. 第 507 回大阪地方会. 08. 02. 2025.

- ・ 長濱通子 : 皮膚科領域でのレーザー治療の基礎と乳幼児のアザ治療について乳児血管腫に対する治療について. 第 19 回日本レーザーリプロダクション学会. 14.10.2024.
- ・ 長濱通子 : 乳児血管腫の治療 産科一小児科
一皮膚科 病院間での連携診療について. 第 1
回神戸小児科・皮膚科連携フォーラム.03.08.2024.
- ・ 長濱通子 : 色素レーザーを用いた赤アザの治療について. 第 35 回日本レーザー医学会西日本大会.27.07.2024.
- ・ 長濱通子 : レーザー治療における小児の皮膚
とスキンケアについて. 第 35 回日本レーザー
治療学会.22.06.2024.
- ・ 長濱通子 : 乳児血管腫に対する治療について.
第 35 回日本レーザー治療学会.22.06.2024.

H. 知的財産権の出願・登録状況

(予定を含む。)

1. 特許取得
なし
2. 実用新案登録
なし
3. その他
なし

厚生労働科学研究費補助金（難治性疾患政策研究事業）
分担研究報告書

難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症および関連疾患に関する研究

研究分担者 川上 善久
地方独立行政法人 福岡市立病院機構 福岡市立こども病院 形成外科 科長

研究要旨：研究班の分担研究者として班会議に出席し、班全体の研究活動に関して審議を行った。RADDAR-J 準拠レジストリや弾性着衣の保険適応に向けた取り組みに対して協力を行った。

A. 研究目的

本研究班では難治性血管腫、脈管奇形、血管奇形、リンパ管腫、リンパ管腫症とその関連疾患について扱う。これらは生命のみならず、患者のQOLに大きな影響を与える、その影響は生涯にわたって続く。医師の偏在化が問題となっている現代において、特別な訓練を行わずに実施できる治療である弾性ストッキング着用の有用性を確認し、保険適応に向けて関係機関に諮詢していく。

B. 研究方法

2024年6月2日と11月3日に東京で開催された班会議に参加した。班会議では匿名レセプトデータの連結、全国定点調査などを用いた前向き・後ろ向き解析、RADDAR-J準拠レジストリの進捗状況、弾性着衣の保険収載などについて議論を行った。

弾性ストッキング治療に関しては当院はおそらく九州で唯一のクリッペル・トレノネー・ウェーバー症候群や血管腫・血管奇形に対するカスタムメイド弾性着衣の作成を行っている施設である。臨床研究終了後も引き続きデータの収集を継続して行っている。

（倫理面への配慮）

研究にあたり、当院規定の倫理委員会の審査を受けた。また、集計されたデータは、「連結可能匿名化された情報」「人体から採取された試料等を用いない」「観察研究である」「被験者の心理的苦痛を伴わない」ものであった。人権擁護については厚生労働省の「疫学研究における倫理指針」「臨床研究に関する倫理指針」に準拠しており、「人を対象とする医学系研究に関する倫理指針」を遵守した。

C. 研究結果

当院で得られたデータでは現時点では弾性ストッキングでの合併症は認めず、有効であった印象である。

D. 考察

弾性ストッキングによる治療の安全性と有効性が確立されれば、手術や理学療法などの特別な技術を持つ医師や技師が不在の地においても、高いレベルの治療を受けられることになると考えられる。ただし、完治は困難である。

E. 結論

難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管腫・リンパ管腫症および関連疾患においては集学的治療が必要であり、他の治療方法の開発も必要である。

F. 健康危険情報

（総括研究報告書にまとめて記入）

G. 研究発表

特になし

H. 知的財産権の出願・登録状況

特になし

分担研究報告書

難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症
および関連疾患についての調査研究分担課題 血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形・リンパ管腫症診療ガイドライン2022
の普及・啓発

岩科 裕己 杏林大学医学部附属病院 形成外科・美容外科 任期制助教

研究要旨

本研究は血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症および関連疾患について、最新のエビデンスに基づいて診療ガイドラインの策定することで、患者、患者家族、医療従事者ならびに一般市民への情報提供に貢献することを目指している。令和5年度は、前年度に発行した「血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形・リンパ管腫症診療ガイドライン2022」（第3版）の普及・啓発を行った。

A. 研究目的

本研究は血管腫・血管奇形・リンパ管奇形・リンパ管腫症およびその関連疾患を対象とし、指定難病、小児慢性特定疾病と照合しつつ、対象を広く医学会、社会・国民に普及・啓発につとめるものである。

本研究班の前身である難治性血管腫・血管奇形についての調査研究班（平成21-23年度佐々木班）において、「血管腫・血管奇形診療ガイドライン2013」が策定・公表された。続いて、平成26-28年度の本研究班（三村班）において、「血管腫・血管奇形・リンパ管奇形診療ガイドライン2017」（第2版）が策定・公表された。

本研究班では、令和2年度から診療ガイドラインの改訂作業を進め、令和5年3月24日に「血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形・リンパ管腫症診療ガイドライン2022」（第3版）を発行した。令和6年度は、その普及・啓発を目的とした。

B. 研究方法

医学会におけるシンポジウムや市民公開講座において、「血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形・リンパ管腫症診療ガイドライン2022」（第3版）の普及・啓発を行う。

（倫理面への配慮）

該当なし

C. 研究結果

学会や論文発表を通して血管腫・血管奇形に関する情報発信やガイドラインの普及啓発を行うことができた。

D. 考察

日本形成外科学会総会・学術集会での活動や雑誌「形成外科」での論文・患者会での講演が主な啓蒙活動となった。対象をさらに広げた啓蒙活動を行なっていく

ために形成外科医以外の複数科の医師が多く参加することが見込まれる学会（血管外科医の多く参加する静脈学会、小児分野の医学会、整形外科分野の医学会など）への普及、啓蒙へと活動を拡大していくことを次年度以降の目標としたい。

E. 結論

「血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形・リンパ管腫症診療ガイドライン2022」（第3版）の普及・啓発を行った。

F. 健康危険情報

該当なし

G. 研究発表

1. 論文発表

1. 草間峻, 岩科裕己, 他: 当科で脈管奇形に対してシロリムス内服治療を行った22例に関する検討. 形成外科 68(2):186-192, 2025.

2. 岩科裕己, 他: 遊離皮弁により再建した動静脈奇形切除後の長期経過. 形成外科 67(5): 476-485, 2024.

2. 学会発表

1. 岩科裕己, 他: 舌静脈奇形に対する部分切除術と硬化療法の術後創部合併症に関する検討. 第44回日本静脈学会総会, 軽井沢, 2024.6.13-14.

H. 知的財産権の出願・登録状況

（予定を含む。）

1. 特許取得

該当なし

2. 実用新案登録

該当なし

3. その他

該当なし

厚生労働科学研究費補助金（難治研究事業）
(分担) 研究報告書

「難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・
リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究（秋田班）」に関する研究

研究分担者 孟 真 | 横浜市立大学客員教授

未だデータのない難治性混合性血管奇形であるクリッペルトレナウナネイ病の実態調査を施行する。

研究分担者氏名・所属研究機関名及び所属研究機関における職名
省略
(分担研究報告書の場合は、省略)

- A. 研究目的
クリッペルトレナウナネイ病の実態
把握
- B. 研究方法
エクセルを使用した質問票を日本静脈学会
倫理審査は東北大学で終了した。
(倫理面への配慮)
匿名でデータ収集
- C. 研究結果
データ収集開始前にてなし
- D. 考察
未

E. 結論
未

F. 健康危険情報
記載なし
(分担研究報告書には記入せずに、総括
研究報告書にまとめて記入)

G. 研究発表

- 論文発表
なし
- 学会発表
なし

H. 知的財産権の出願・登録状況
(予定を含む。)

- 特許取得
なし
- 実用新案登録
なし
- その他
なし

研究成果の刊行に関する一覧表レイアウト（参考）

書籍

| 著者氏名 | 論文タイトル名 | 書籍全体の編集者名 | 書籍名 | 出版社名 | 出版地 | 出版年 | ページ |
|--------------------|--|-------------------|-----------------------|--------------------|-----|------|---------------|
| Sadanori A kita | Skin necrosis | | Skin necrosis | Springer Nature | | 2024 | 526 |
| 力久直昭 | 血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形・リンパ管腫症診療ガイドライン2022 (第3版) | 秋田定伯 | | | | 2023 | 364-370 |
| 大須賀慶悟 | 血管奇形：皮下・軟部組織 | 山門亨一郎 | IVRマニュアル第3版 | 医学書院 | 東京 | 2024 | 182-185 |
| 小関道夫 | 脈管腫瘍、脈管奇形。 | | イヤーノート 小児科 | メディックメディア | 東京 | 2024 | 9.1-9.2. 4 |
| 木下義晶 | 小児科疾患「肥厚性幽門狭窄症」 | 総編集／福井次矢、高木誠、小室一成 | 今日の治療指針 私はこう治療している | 医学書院 | | 2024 | |
| 神人正寿 | クイズでわかる皮膚疾患トップ20 | 古川福実、神人正寿 | クイズでわかる皮膚疾患トップ20 | 南江堂 | 東京 | 2024 | 1-228 |
| | | | | | | | |
| | | | | | | | |

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 |
|---|--|-------------------------------|-----------|---------|------|
| Hiske Smart, MR. Gary Sibbald, Laurine Goodman, Elizabeth A. Ayello, PhD, Reneeka Jaimangar, John H. Gregor, Erin Rajhathy, Sadanori, Akita, Afshaneh Alavi, Helen Arputhanathan, Febe Bruwer, Jeremy Caul, Beverley Chan, Belen Dofitas, Jassin Hamed, Catherine Harley, Jolene Heil, Mary Hill, Devon Jahnke, Dale Kalina, Chaitanya Kodange, Bharat Kotru, Laura Lee Kozody, Stephan Landis, Kimberley LeBlanc, Mary MacDonald, Tobi Mark, Carlos Martin, Dieter Mayer, MD, Christine Murphy, Hari krishna Nair, Cesar Orellana, Brian Orstrow, Douglas Queen, Patrick Rainville, Ranjani Somayaji, Michael Stacey, Gulnaz Tariq, Gregory Weir, Catharine Whiteside, Helen Yifter, and Ramesh Zacharias. | Wound Bed Preparation in 2024: Delphi Consensus of the 1 Diabetes Mellitus Foot Ulcer / Other Foot Ulcer Management in Resource-Limited Setting | Advances in Skin & Wound Care | 37(4) | 180-196 | 2024 |
| 野口美帆, 井形堅三, 福井季代子, 藤岡正樹, 石丸英樹, 秋田定伯 | 顔面耳介CM-AVMに対して塞栓-硬化療法に耳介形成手術を組み合わせた1例 | 形成外科 | 67 | 37-42 | 2024 |
| Shimanouchi K, Rikihisa N, Saito Y, Iuchi K, Tsumura N, Sakai H, Mitsukawa N. | Artificial red blood cells increase large vessel wall damage and decrease surrounding dermal tissue damage in a rabbit auricle model after subsequent flashlamp-pumped pulsed-dye laser treatment. | Journal of Dermatol | May;48(5) | 600-612 | 2021 |

| | | | | | |
|--|--|-------------|--------------|----------------------|------------------------|
| Rikihisa N, Shimanouchi K, Saito Y, Sakai H, Mitsukawa N. | Carbon monoxide combined with artificial blood cells acts as an antioxidant for tissues thermally-damaged by dye laser irradiation. | Burns | March 19 | S0305-4179(22)0063-8 | 2022 |
| 力久直昭 力久弘昭 三川信之 中尾正之 | スキン - テア発生抑制を目的とした新型メッシュ付きサージカルテープの開発 | 日本褥瘡学会会誌 | Vol24 No4 | P379-387 | 2022 学会学術賞受賞 (2023) |
| Rikihisa N, Mitsukawa N, Rikhisa H, Nakao M. | A new surgical tape with a mesh designed to prevent skin tears and reduce pain during tape removal | PLOS ONE | Jul 10;18(7) | :e0288304. | 2023 |
| 力久直昭 永井史緒 石川耕資 | 乳児血管腫以外の疾患に対するプロプラノロール内服療法の検討 副題 先行研究レビューから乳児血管腫内服治療の安全性について考察する。 | 日本形成外科学会学術誌 | In press | | 2025 |
| Ozaki M, Nomura T, Osuga K, Kurita M, Hayashi A, Yuzuriha S, Aramaki-Hattori N, Hikosaka M, Nozaki T, Ozeki M, Ochi J, Akiyama S, Kakei Y, Miyakoda K, Kashiwagi N, Yasuda T, Iwashina Y, Kaneko T, Kamibeppu K, Soejima T, Harii K. | Effect and safety of ethanolamine oleate in sclerotherapy in patients with difficult-to-resect venous malformations: A multicenter, single-arm study | PLoS One | 20(1) | e0303130 | 2025 |

| | | | | | |
|--|---|-------------------------------|----------|--|------|
| Tada T, Kumada T, Toyoda H, Yasuda S, Koshiyama Y, Akita T, Kodama Y, <u>Tanaka J</u> | Association of liver fibrosis progression with non-liver-related mortality in metabolic dysfunction-associated steatotic liver disease | Hepatology Research | in press | | 2025 |
| Kaneyasu Y, Fujiwara H, Akita T, <u>Tanaka J</u> , Shibata Y, Nakagawa T, Koh I, Hirata E, Hyodo M, Miyamoto T, Murakami Y, Nishibuchi I, Imano N, Nagata Y, Kudo Y. | Suppressive effect of vitamin K2 (menatetrenone) against bone mineral density loss after radiotherapy in uterine cancer patients | Japanese Journal of Radiology | in press | | 2025 |
| Nishimura T, Tada T, Akita T, Kondo R, Suzuki Y, Imajo K, Kokubu S, Abe T, Kuroda H, Hirooka M, Hiasa Y, Nogami A, Nakajima A, Ogawa S, Toyoda H, Oeda S, Takahashi H, Eguchi Y, Sugimoto K, Yano H, Tanaka J, Moriyasu F, Kage M, Kumada T, Iijima H. | Diagnostic performance of attenuation imaging versus controlled attenuation parameter for hepatic steatosis with MRI-based proton density fat fraction as the reference standard: a prospective multicenter study | Journal of Gastroenterology | in press | | 2025 |
| Phyo Z, Tanaka S, Sugiyama A, Ko K, Takahashi K, Mirzaev U.K, Akuffo G.A, Chhoung C, Akita T, Kozuki M, Sakamori R, Tanaka J. | Unveiling the dynamics of hepatitis C virus transmission among injection drug users and men who have sex with men: A comprehensive study in Japan | Hepatology Research | in press | | 2025 |

| | | | | | |
|---|---|--|----------|----------|------|
| Mirzaev U.K, Yoshinaga Y, Baynazarov M, Ouoba S, Ko K, Phyo Z, Chhoun C, Akuffo G.A, Sugiyama A, Akita T, Takahashi K, Fukuma S, <u>Tanaka</u> <u>J.</u> | Diagnostic accuracy of hepatitis E virus antibody tests: A comprehensive meta-analysis | Hepatology Re search | in press | | 2025 |
| Gotoh T, Kumada T, Ogawa S, Niwa F, Toyoda H, Hirooka M, Koizumi Y, Hiasa Y, Akita T, <u>Tanaka J</u> , Shimizu M | Comparison Between Attenuation Measurement and the Controlled Attenuation Parameter for the Assessment of Hepatic Steatosis Based on MRI Images | Liver Interna tional | 45(1) | e16210 | 2025 |
| Nomura N, Matsumoto H, Asano K, Hayashi Y, Yokoyama A, <u>Tanaka</u> <u>J</u> , et al. (160 人 中 139 番目) | Refractory phenotype of Aspergillus- sensitized asthma with bronchiectasis and allergic bronchopulmonary aspergillosis | Journal of Al lergy and Cli nical Immunol ogy: Global | 4(1) | 100364 | 2025 |
| Ohira M, Imaoka Y, Sato K, Imaoka K, Bekki T, Yano T, Nakano R, Sakai H, Kuroda S, Tahara H, Ide K, Kobayashi T, <u>Tanaka Y</u> , <u>Tanaka</u> <u>J</u> , Ohdan H | A phase I/II study of adoptive immunotherapy using donor liver graft- derived NK cell- enriched immune cells to prevent severe infection after liver transplantation | PLoS ONE | 20(1) | e0313102 | 2025 |
| Ota Y, Yumiya Y, Chimed-Ochir O, Hasegawa A, Yoshida T, Nagata T, <u>Tanaka J</u> , Ohge H, Kuwabara M, Kubo T. | Characteristics of patients with COVID- 19 and smell and/or taste disorders depending on different virus strains: a cross- sectional study in Hiroshima, Japan | BMJ Open | 15(2) | e088377 | 2025 |

| | | | | | |
|--|--|---|-------|---------|------|
| Nagata T, Chimed-Ochir O, Yumiya Y, Tanaka J, Kuwabara M, Kitahara K, Ohge H, Kubo T. | Effect of individual preventive practices on COVID-19 infection: an analysis of big data collected at PCR testing centers in Hiroshima, Japan | Virus Research | 25(1) | 681 | 2025 |
| Kurisu A, Sugiyama A, Akita T, Takumi I, Yamamoto H, Iida K, <u>Tanaka J</u> | Incidence and prevalence of epilepsy in Japan: a retrospective analysis of insurance claims data of 9,864,278 insured persons | Journal of epidemiology | 34(2) | 70-75 | 2024 |
| Toyoda H, Koshiyama Y, Yasuda S, Kumada T, Chayama K, Akita T, <u>Tanaka J</u> | Effect of previous infection with hepatitis B virus on the incidence of hepatocellular carcinoma after sustained virologic response in patients with chronic hepatitis C virus infection | Journal of Viral Hepatitis | 31(3) | 137-142 | 2024 |
| Yamaguchi D, Chimed-Ochir O, Yumiya Y, Kishita E, Akita T, <u>Tanaka J</u> , Kubo, T | Potential Risk Factors to COVID-19 Severity: Comparison of SARS-CoV-2 Delta- and Omicron-Dominant Periods | International Journal of Environmental Research and Public Health | 21(3) | 322 | 2024 |
| Kimura M, Nishikawa T, Shimakami T, Terashima T, Horii R, Fukuda M, Yoshita M, Takata N, Hayashi T, Funaki M, Nio K, Takatori H, Arai K, Yamashita T, Honda M, <u>Tanaka J</u> , Kaneko S, Yamashita T | Higher FIB-4 index at baseline predicts development of liver cancer in a community-based cohort with viral hepatitis | Global Health & Medicine | 6(6) | 404-415 | 2024 |

| | | | | | |
|---|--|-------------------------|--------|-----------|------|
| Okada K, Nakayama Y, Xu J, Cheng Y, Tanaka J | A nation-wide medical record database study: Value of hepatitis B surface antigen loss in chronic hepatitis B patients in Japan | Hepatology Research | 54(11) | 1004–1015 | 2024 |
| Mirzaev UK, Ko K, Bunthen E, Phyo Z, Chhoun C, Ataa AG, Sugiyama A, Akita T, Takahashi K, <u>Tanaka J</u> | Epidemiological assessment of hepatitis E virus infection among 1565 pregnant women in Siem Reap, Cambodia using an in-house double antigen sandwich ELISA | Hepatology Research | 54(10) | 899–911 | 2024 |
| Abe K, Sugiyama A, Ito N, Miwata K, Kitahara Y, Okimoto M, Mirzaev U, Kurisu A, Akita T, Ko K, Takahashi K, Kubo T, Takafuta T, <u>Tanaka J</u> | Variant-specific symptoms after COVID-19: a hospital-based study in Hiroshima | Journal of epidemiology | 34(5) | 238–246 | 2024 |
| Sok S, Chhoun C, Sun BL, Ko K, Sugiyama A, Akita T, Fukuma S, <u>Tanaka J</u> | Knowledge of hepatitis B infection, hepatitis B vaccine, and vaccination status with its associated factors among healthcare workers in Kampot and Kep Provinces, Cambodia | BMC Infectious Diseases | 24(1) | 658 | 2024 |
| Mirzaev UK, Ouoba S, Ko K, Phyo Z, Chhoun C, Ataa AG, Sugiyama A, Akita T, <u>Tanaka J</u> | Systematic review and meta-analysis of hepatitis E seroprevalence in Southeast Asia: a comprehensive assessment of epidemiological patterns | BMC Infectious Diseases | 24(1) | 525 | 2024 |

| | | | | | |
|--|---|---------------------|-------|---------|------|
| Sugiyama A, Takafuta T, Sato T, Kitahara Y, Yoshinaga Y, Abe K, Chanroth C, Ataa AG, Phyo Z, Kurisu A, Ko K, Akita T, Kishita E, Kuwabara M, <u>Tanaka J</u> | Natural course of post-COVID symptoms in adults and children | Scientific reports | 14(1) | 3884 | 2024 |
| Ogawa S, Kumada T, Gotoh T, Niwa F, Toyoda H, <u>Tanaka J</u> , Shimizu M | A comparative study of hepatic steatosis using two different qualitative ultrasound techniques measured based on magnetic resonance imaging-derived proton density fat fraction | Hepatology Research | 54(7) | 638–654 | 2024 |
| Kariyama K, Kawanaka M, Nouso K, Wakuta A, Shiota S, Kurisu A, Sugiyama A, Akita T, Kumada T, <u>Tanaka J</u> | Identification of risk groups for advanced liver fibrosis in the general population using the Fibrosis-3 index | JGH Open | 8(7) | e70010 | 2024 |

| | | | | | | |
|---|--|----------------------|------|----------|------|--|
| Sakoi N, Mori Y, Tsugawa Y, <u>Tanaka</u> I, Fukuma S | Early-Stage Chronic Kidney Disease and Related Health Care Spending | JAMA Network Open | 7(1) | e2351518 | 2024 | |
|---|--|----------------------|------|----------|------|--|

| | | | | | |
|--|--|-----------------|-------|---------|------|
| Kumada T, Toyoda H, Ogawa S, Gotoh T, Suzuki Y, Imajo K, Sugimoto K, Kakegawa T, Kuroda H, Yasui Y, Tamaki N, Kurosaki M, Izumi N, Akita T, <u>Tanaka J</u> , Nakajima A | Advanced-fibrosis leads to overestimation of steatosis with quantitative ultrasound in individuals without hepatic steatosis | Ultrasonography | 43(2) | 121-131 | 2024 |
|--|--|-----------------|-------|---------|------|

| | | | | | | |
|--|---|---------------------|------------|-----------|------|--|
| Kumada T, Toyoda H, Ogawa S, Gotoh T, Suzuki Y, Sugimoto K, Yoshida Y, Kuroda H, Kamada Y, Sumida Y, Ito T, Akita T, <u>Tanaka J</u> | Severe hepatic steatosis promotes increased liver stiffness in the early stages of metabolic dysfunction-associated steatotic liver disease | Liver International | 44(7) 4 | 1700-1714 | 2024 | |
|--|---|---------------------|------------|-----------|------|--|

| | | | | | |
|---|--|---------------------|-------|---------|------|
| Kumada T, Toyoda H, Ogawa S, Gotoh T, Yoshida Y, Yamahira M, Hirooka M, Koizumi Y, Hiasa Y, Tamai T, Kuromatsu R, Matsuzaki T, Suehiro T, Kamada Y, Sumida Y, <u>Tanaka J</u> , Shimizu M | Diagnostic performance of shear wave measurement in the detection of hepatic fibrosis: A multicenter prospective study | Hepatology Research | 54(9) | 851-858 | 2024 |
|---|--|---------------------|-------|---------|------|

| | | | | | | |
|---|--|---|-------|---------|------|--|
| Ishimaru T, Yamaguchi T, Saito T, Hattori Y, Ono T, Arai Y, Hasegawa Y, Shiga H, Tamaki K, <u>Tanaka J</u> , Tsuga K, Abekura H, Miyawaki S, Maeda- Lino A, Mikami S, Gotouda A, Satoh K, Shimizu K, Kato Y, Namita T | Actual state of the diurnal masseteric electromyogram: Differences between awareness and non- awareness of awake bruxism | Journal of Pr osthodontic R esearch | 68(3) | 456–465 | 2024 | |
|---|--|---|-------|---------|------|--|

| | | | | | |
|---|--|--|-------|---------|------|
| Toyoda H, Tada T, Uojima H, Nozaki A, Chuma M, Takaguchi K, Hiraoka A, Abe H, Itobayashi E, Matsuura K, Atsukawa M, Watanabe T, Shimada N, Nakamura M, Kojima M, Tsuji K, Mikami S, Ishikawa T, Yasuda S, Tsutsui A, Arai T, Kumada T, Tanaka Y, | Comparison of six hepatocellular carcinoma prediction models in Japanese patients after sustained virologic response undergoing rigorous surveillance for hepatocellular carcinoma | Journal of Ga stroenterolog y and Hepatol ogy | 39(5) | 949–954 | 2024 |
|---|--|--|-------|---------|------|

| | | | | | | |
|---|---|----------------------------------|--------|----------|------|---|
| Bastard P, Gervais A, Taniguchi M, Saare L, Särekannu K, Le Voyer T, Philippot Q, Rosain J, Bizien L, Asano T, Garcia-Prat M, Parra-Martínez A, Migaud M, Tsumura M, Conti F, Belot A, Rivière JG, Morio T, <u>Tanaka J</u> , Javouhey E, Haerynck F, Duvlis S, Ozcelik T, Keles S, Tandjaoui-Lambotte Y, Escoda S, Husain M, Pan-Hammarström Q, Hammarström L, Ahlijah G, Haidar AA, Soudee C, Arseguel V, Abolhassani H, Sahanic S, Tancevski I, Nukui Y, Hayakawa S, Chrouzos GP, Michos A, Tatsi EB, Filippatos F, Rodriguez-Palmero A, Troya J, Tipu I, Meyts I, Roussel L, Ostrowski SR, Schidlowski L, Prando C, Condino-Neto A, Cheikh N, Bousfiha AA, El Bakkouri J, Peterson P, Pujol A, Lévy R, Quartier P, Vinh DC, Boisson B, Béziat V, Zhang SY, Borghesi A, Pession A, Andreakos E, Marr N, Mentis AFA, Mogensen TH, Rodríguez-Gallego C, Soler-Palacin P, Colobran R, Tillmann V, Neven | Higher COVID-19 pneumonia risk associated with anti-IFN- α than with anti-IFN- ω auto-Abs in children | Journal of Experimental Medicine | 221(2) | e2023135 | 2024 | 3 |
|---|---|----------------------------------|--------|----------|------|---|

| | | | | | |
|--|---|---------------------------------|-------|----------|------|
| Razavi-Shearer DM, Buti M, Tacke F, Terrault NA, Zeuzem S, <u>Tanaka J</u> , et al (139人中 123 番目) | Adjusted estimate of the prevalence of hepatitis delta virus in 25 countries and territories | Journal of Hepatology | 80(2) | 232–242 | 2024 |
| Kurose M, Yamamoto A, Elsayed AMA, Lawal-Ayinde BM, Nomura T, Higashiura A, Irie T, Fukushi M, Kanda M, Tahara H, Morita D, Kuroda T, Ko K, Takahashi K, <u>Tanaka J</u> , Sakaguchi T | Viral coexistence and insertional mutations in the ORF8 region of SARS-CoV-2: A possible mechanism of nucleotide insertion | Virus Research | 350() | 199478 | 2024 |
| Akuffo GA, Ouoba S, Ko K, Chhoun C, Phyto Z, Mirzaev UK, Sugiyama A, Akita T, <u>Tanaka J</u> | Assessing the diagnostic accuracy of serological tests for hepatitis delta virus diagnosis: a systematic review and meta-analysis | Scientific Reports | 14(1) | 18475 | 2024 |
| Phyto Z, Ko K, Ouoba S, Sugiyama A, Mirzaev UK, Akuffo GA, Chhoun C, Akita T, <u>Tanaka J</u> | Intermediate hepatitis C virus (HCV) endemicity and its genotype distribution in Myanmar: A systematic review and meta-analysis | Plos One | 19(9) | e0307872 | 2024 |
| Shimohara C, Kagaya A, Akita T, Tsukue R, Shimohara A, Machizawa MG, Yamawaki S, Tanaka J, Okamura H | Changes in interoception before and after treatment in patients with alcohol use disorder | Neuropsychopharmacology Reports | 44(4) | 792–797 | 2024 |

| | | | | | |
|--|--|-----------------------------|--------|---------|------|
| Ouoba S, Sugiyama A, Ko K, Mirzaev UK, Abe K, Bunthen E, Phyto Z, Khalilov KK, Kurisu A, Akita T, Takahashi K, Sasaki H, Yamamoto T, <u>Tanaka J</u> | Development of a unit conversion tool for five quantitative anti-spike assays and agreement analysis of three qualitative anti-nucleocapsid assays for SARS-CoV-2 | Journal of Medical Virology | 96(8) | e29826 | 2024 |
| Satake M, Sugiyama M, Mizokami M, <u>Tanaka J</u> | Incidences of new hepatitis B infection and anti-hepatitis B core-negative occult hepatitis B infection among Japanese blood donors in relation to anti-hepatitis B surface antigen levels | Journal of Medical Virology | 96(7) | e29823 | 2024 |
| El Ekiaby M, <u>Tanaka J</u> , van Drimmelen H, Allain JP, Lelie N | Infectivity of Hepatitis B Virus Surface Antigen-Positive Plasma With Undetectable HBV-DNA: Can HBsAg Screening Be Discontinued in Egyptian Blood Donors? | Journal of Viral Hepatitis | 31(11) | 700-709 | 2024 |
| Ko K, Lokteva L. M, Akuffo G. A, Phyto Z, Chhoun C, Bunthen E, Ouoba S, Sugiyama A, Akita T, Rattana K, Vichit O, Takahashi K, <u>Tanaka J.</u> | A comparative study of extraction free detection of HBV DNA using sodium dodecyl sulfate, N-lauroylsarcosine sodium salt, and sodium dodecyl benzene sulfonate | Scientific Reports | 14(1) | 25442 | 2024 |

| | | | | | |
|---|---|--------------|-------|------|------|
| Chhoun C, Ko K, Ouoba S, Phyo Z, Akuffo G. A, Sugiyama A, Akita T, Sasaki H, Yamamoto T, Takahashi K, <u>Tanaka J.</u> | Sustained applicability of SARS-CoV-2 variants identification by Sanger Sequencing Strategy on emerging various SARS-CoV-2 Omicron variants in Hiroshima, Japan | BMC Genomics | 25(1) | 1063 | 2024 |
|---|---|--------------|-------|------|------|

| | | | | | | |
|---|---|---------------|--------|----------|------|---|
| Sada H, Hinoi T, Niitsu H, Ohdan H, Yamamoto S, Endo S, Hida K, Kinugasa Y, Enomoto T, Maruyama S, Konishi F, Watanabe M, Sugihara K, Murata K, Horie H, Okajima M, Yamagishi S, Fujii S, Hazama S, Miyake Y, Kurose Y, Takii Y, Hayashi K, Munakata Y, Naito T, Saida Y, Shimamura T, Suda T, Miyajima N, <u>Tanaka J</u> , Goto M, Sakamoto K, Kinugasa Y, Saito S, Kubo Y, Okita K, Furuhata T, Yatsuoka T, Tashiro J, Yamaguchi S, Ito M, Saito N, Hamada M, Kokuba Y, Kinjo Y, Sakai Y, Ueki T, Naito M, Kuroyanagi H, Ueno M, Akamoto S, Nishimura J, Hasegawa J, Kanazawa A, Maeda K, Hirakawa K, Yasui M, Tanaka K, Okuda J, Akagi T, Inomata M, Kitano S, Yamamoto D, Bando H, Shiozawa K, Kanehira E. | Right-sided versus left-sided colorectal cancer in elderly patients: a sub-analysis of a large multicenter case-control study in Japan | Surgery Today | 54(10) | 1173-118 | 2024 | 3 |
|---|---|---------------|--------|----------|------|---|

| | | | | | |
|---|--|---------------------------------------|---------|-----------|--------|
| Akita T, Kurisu A, Masumoto F, Bunthen E, Sugiyama A, Kawaoka T, Imamura M, Aikata H, Seike M, Akuta N, Kumada T, Karino Y, Chayama K, <u>Tanaka J.</u> | Health-related quality of life after sustained virological response to treatment for hepatitis C | Hiroshima Journal of Medical Sciences | 73(1-2) | 1-7 | 2024 |
| 小関 道夫 | 【第 59 回日本小児放射線学会学術集会“多角的に挑む小児画像”より】難治性リンパ管疾患の病態と新規治療薬. | 日本小児放射線学会雑誌. | 40(1) | 28-35 | 2024 |
| 小関 道夫 | 【子どもの皮膚診療を極めるために】専門医への紹介が必要な皮膚疾患 血管腫・脈管奇形. | 小児科診療 | 87(春増刊) | 232-239 | (2024) |
| 小関 道夫 | 【それってほんとにITP?] ITP と鑑別すべき 血液・免疫疾患 Kasabach-Merritt 現象(症候群) | 小児科診療 | 87(5) | 551-558 | 2024 |
| 小関 道夫 | 【公費補助制度を使いこなす!】リンパ管腫/リンパ管腫症 | 小児科診療 | 87(8) | 1157-1163 | 2024 |
| 小関 道夫 | : 形成外科 Topics ! 難治性脈管異常の病態と薬物療法. | 形成外科 | 67(11) | 1216-1221 | 2024 |

| | | | | | |
|---|--|-------------------------|-------|---------|------|
| Ozeki M, Endo S, Yasue S, Nozawa A, Asada R, Saito AM, Hashimoto H, Fujimura T, Yamada Y, Kuroda T, Ueno S, Watanabe S, Nosaka S, Miyasaka M, Umezawa A, Matsuoka K, Maekawa T, Hirakawa S, Furukawa T, Fumino S, Tajiri T, Takemoto J, Souzaki R, Kinoshita Y, Fujino A. | Sirolimus treatment for intractable lymphatic anomalies: an open-label, single-arm, multicenter, prospective trial. | Front Med (Lausanne). | 11 | 1335469 | 2024 |
| Hirose K., Hori Y., Ozeki M., Motoooka D., ... | Comprehensive phenotypic and genomic characterization of venous malformations. | Hum Pathol. | 145 | 48–55 | 2024 |
| Ito S., Saito A., Sakurai A., Watanabe K., ... | Eculizumab treatment in paediatric patients diagnosed with aHUS after haematopoietic stem cell transplantation: a HSCT-TMA case series from Japanese aHUS post-marketing surveillance. | Bone Marrow Transplant. | 59(3) | 315–324 | 2024 |

| | | | | | |
|--|--|-----------------------|----------------------------|-----------|------|
| Imamura M., Shin C., Ozeki M., Matsuoka K., ... | Regression of kaposiform lymphangiomatosis and chronic disseminated intravascular coagulation after inhaled budesonide-formoterol treatment. | Pediatr Blood Cancer. | 71(4) | e30907 | 2024 |
| Nakamura S., Ozeki M., Hayashi D., Yasue S., ... | Sirolimus monotherapy for Kasabach-Merritt phenomenon in a neonate; Case report. | Int J Surg Case Rep. | 117 | 109497 | 2024 |
| Yasue S., Ozeki M., Nozawa A., Endo S., ... | Changes in cell morphology and function induced by the NRAS Q61R mutation in lymphatic endothelial cells. | PLoS One. | 19(5) | e0289187 | 2024 |
| Nozawa A., Abe T., Niihori T., Ozeki M., ... | Lymphatic endothelial cell-specific NRAS p. Q61R mutant embryos show abnormal lymphatic vessel morphogenesis. | Hum Mol Genet. | 33(16) | 1420–1428 | 2024 |
| 掛江 直子 | 染色体・遺伝子検査倫理 | 小児内科 | 56 2024年増刊号「小児臨床検査2024」 | 664–659 | 2024 |

| | | | | | |
|---|---|----------------|----------|---|------|
| 掛江 直子 | 乳幼児・子ども医療費助成 | 小児科診療 | 特集87 (8) | 865-869 | 2024 |
| Koh K, Kosaka Y, Okamoto Y, Maeda N, Ogawa A, Kobayashi R, Hasegawa D, Koga N, Tessier A, Shvenke Y, Zhu J, Benettaib B, Horibe K, Ogawa C. | Phase 2 multicenter study of pegaspargase in Japanese patients with previously untreated acute lymphoblastic leukemia. | Int J Hematol. | | doi: 10.1007/s12185-025-03976-4. Online ahead of print. | 2025 |
| Sakai K, Hamamura A, Yoshimura Y, Abe M, Ogawa Y, Tanaka K, Hattori N, Tokugawa T, Kanai R, Ikejiri F, Takeyama M, Taoka T, Fujita N, Kanaya M, Koh K, Shiragami H, Azumi H, Saito K, Matsumoto M. | Therapeutic switch from plasma to recombinant ADAMTS13 for patients with congenital TTP from Japanese real-world data. | Blood | | doi: 10.1182/blood.2024027516. Online ahead of print. | 2025 |
| Kato M, Okamoto Y, Imamura T, Kada A, Saito AM, Iijima-Yamashita Y, Deguchi T, Ohki K, Fukushima T, Anami K, Sanada M, Taki T, Hashii Y, Inukai T, Kiyokawa N, Kosaka Y, Yoshida N, Yuza Y, Yanagimachi M, Watanabe K, Sato A, Imai C, Taga T, Adachi S, Horibe K, Manabe A, Koh K. | JCCG ALL-B12: Evaluation of Intensified Therapies With Vincristine/Dexamethasone Pulses and Asparaginase and Augmented High-Dose Methotrexate for Pediatric B-ALL.. | J Clin Oncol. | 43 | 566-577 | 2025 |

| | | | | | |
|---|--|-----------------|---|-----------|------|
| Kobayashi T, Miura K, Ishikawa H, Sakata J, Takizawa K, Hirose Y, Toge K, Saito S, Abe S, Kawachi Y, Ichikawa H, Shimada Y, Takahashi Y, Wakai T, <u>Kinoshita Y.</u> | Malignancy After Living Donor Liver Transplantation. | Transplant Proc | Apr;56(3): 660-666. doi: 10.1016/j.transproceed.2024.02.015. Epub 2024 Mar 21. PMID: 38519268 | | 2024 |
| Takahashi Y, Kobayashi T, <u>Kinoshita Y</u> , Arai Y, Ohyama T, Yokota N, Sugai Y, Takano S. | Early and late outcomes of congenital biliary dilatation in pediatric patients | Pediatr Int. | Jan-Dec;66(1):e1571-2. doi: 10.1111/ped.15712. PMID: 38563281 | | 2024 |
| 久保 正昭, 渋井 勇一, 武本 淳吉, 宗崎 良太, 孝橋 賢一, <u>木下 義晶</u> , 田口 智章, 田尻 達郎, 家入 里志, 高槻 光寿 | 腫瘍摘出術前にGnRH依存性思春期早発症への移行が確定診断された小児精巣Leydig細胞腫の1例 本邦報告 24例からみた臨床的特徴 | 日本小児外科学会雑誌 | 60(2) | 172-180 | 2024 |
| 荒井 勇樹, <u>木下 義晶</u> | 短腸症候群患者における静脈栄養離脱後の問題 | 小児外科 | Vol156 N010 | 1051-1053 | 2024 |
| 荒井 勇樹, <u>木下 義晶</u> | SSI (surgical site infection) | 小児外科 | Vol156 N09 | 943-947 | 2024 |
| Miyazaki K, Kunimoto K, Yasue S, Endo S, Nozawa A, Ozeki M, Ishihara T, Tanaka M, Kakimoto N, Suenaga T, Tokuhara D, Ohnishi H, Inose Y, Jinnin M, et al. | Biomarkers associated with progression of infantile hemangioma: Exploratory study. | J Dermatol. | In press | | |
| Yaga T, Maekawa T, Sakamoto K, Fujino A, Miyazaki O, Kubota M, Ishiguro A. | Kasabach-Merritt phenomenon following intratumoral hemorrhage: A case report. | Pediatr Int. | 66(1) | e15806 | 2024 |

| | | | | | |
|--|--|---------------------------|-------|--------|------|
| Fujino A, Kuniyeda K, Nozaki T, Ozeki M, Ohyama T, Sato I, Kamibeppu K, Tanaka A, Uemura N, Kanmuri K, Nakamura K, Kobayashi F, Suenobu S, Nomura T, Hayashi A, Nagao M, Kato A, Aramaki Hattori N, Imagawa K, Ishikawa K, Ochi J, Horiuchi S, Nagabukuro H. | The Prospective Natural History Study of Patients with Intractable Venous Malformation and Klippel-Trenaunay Syndrome to Guide Designing a Proof-of-Concept Clinical Trial for Novel Therapeutic Intervention. | Lymphat Res Biol. | 22(1) | 27-36 | 2024 |
| Ozeki M, Endo S, Yasue S, Asada R, Saito AM, Hashimoto H, Ueno S, Watanabe S, Kato M, Deie K, Nosaka S, Miyasaka M, Umezawa A, Matsuoka K, Kato M, Kuroda T, Maekawa T, Hirakawa S, Furukawa T, Fumino S, Tajiri T, Takemoto J, Kawakubo N, Fujino A. | Sirolimus treatment for intractable vascular anomalies (SIVA): An open-label, single-arm, multicenter, prospective trial. | Pediatr Int. | 67(1) | e70002 | 2025 |
| Miyazaki T, Hayashi D, Nozawa A, Yasue S, Endo S, Ohnishi H, Asada R, Kato M, Fujino A, Kuroda T, Maekawa T, Fumino S, Kawakubo N, Tajiri T, Shimizu K, Sanada C, Hamada I, Ishikawa Y, Hasegawa M, Patel K, Xie Y, Ozeki M. | Population pharmacokinetic analysis of sirolimus in Japanese pediatric and adult subjects receiving tablet or granule formulations. | Drug Metab Pharmacokinet. | 59 | 101024 | 2024 |

| | | | | | |
|--|--|-----------------------------------|----|-----------|------|
| Kajihara R, Yamada S, Hashidume M, Hakoyama Y, Nishimura M, Uehara T, <u>Yuzuriha S,</u> Kondo E, Kurita H | A case of congenital infiltrating lipomatosis of the face with the early eruption of permanent teeth with a review of the English literature. | J Oral Maxillofac Surg Med Pathol | 36 | 759–763 | 2024 |
| Kitano D, Hashikawa K, Furukawa T, <u>Nomura T</u> , T, Tamagawa K, Sakakibara S, Nibu KI, Terashi H. | Salvage surgery for mesenteric lymph node metastasis by resection of the first jejunal flap and reconstruction with the second jejunal flap. | J Surg Case Rep. | 12 | rjad686 | 2023 |
| Maruguchi H, <u>Nomura T</u> , Takeda R, Sakakibara S, Terashi H. | A Clinical Study of Histopathological and Clinical Image Changes After Sclerotherapy of Lip Venous Malformations. | J Craniofac Surg. | 34 | 2410–2412 | 2023 |
| Ueda M, Hirayama Y, Ogawa H, <u>Nomura T</u> , Terashi H, Sakakibara S. | Vasodilating Effects of Antispasmodic Agents and Their Cytotoxicity in Vascular Smooth Muscle Cells and Endothelial Cells—Potential Application in Microsurgery. | Int J Mol Sci. | 24 | 10850 | 2023 |
| Kitano D, <u>Nomura T</u> , Sakakibara S, Terashi H. | Absorbable Barbed Continuous versus Nonabsorbable Nonbarbed Interrupted Suturing Methods for Donor-site Closure of the Rectus Abdominis Myocutaneous Flap. | Plast Reconstr Surg Glob Open. | 11 | e4742 | 2023 |

| | | | | | |
|---|---|------------------------------|--------|--------|------|
| Nomura T, Satake H, Hata Y, Sakakibara S, Terashi H. | Efficacy of Oral Sirolimus Therapy for Adult Orbital Slow-Flow Vascular Malformations: A Volumetric Evaluation. | Cureus | 16(10) | e71478 | 2024 |
| Ozeki M, Tanaka A, Kuniyeda K, Nozaki T, Fujino A, <u>Nomura T</u> , Uemura N, Suenobu S, Aramaki-Hattori N, Hayashi A, Kato A, Kiyosue H, Imagawa K, Nagao M, Shimizu F, Ochi J, Horiuchi S, Ohyama T, Ando H, Nagabukuro H. | Phase 2 Randomized, Double-Blind Trial of ART-001 for the Treatment of Slow-Flow Vascular Malformations. | Orphanet J Rare Dis. | 20(1) | 64 | 2025 |
| Nomura T, Ozaki M, Osuga K, Kurita M, Hayashi A, Yuzuriha S, Aramaki-Hattori N, Hikosaka M, Nozaki T, Ozeki M, Ochi J, Akiyama S, Kakei Y, Miyakoda K, Kashiwagi N, Yasuda T, Iwashina Y, Kaneko T, Terashi H, Harii K. | Post-Hoc Analysis of a Multicenter Clinical Trial: Correlation of Coagulation Factor Changes and MRI-Defined Treatment Outcomes After Sclerotherapy for Venous Malformations. | J Clin Med. | 14(3) | 905 | 2025 |
| Ishikawa K, Maeda T, Funayama E, Murao N, Miura T, Sasaki Y, Seo D, Mitamura S, Oide S, Yamamoto Y, Sasaki S | Fluoroscopy- and endoscopy-guided transoral sclerotherapy using foamed polidocanol for oropharyngolaryngeal venous malformations in a hybrid operation room: A case series | Journal of Clinical Medicine | 13, 8 | 2369 | 2024 |

| | | | | | |
|-------------------------|--|--------------------|-------|---------|-------|
| 佐々木了, 村尾尚規, 石川耕資 | 特集／血管腫・脈管奇形の長期治療経過：血管腫・脈管奇形の長期治療経過の総論と今後の展望 | 形成外科 | 67, 5 | 445-455 | 2024 |
| 石川耕資, 佐々木雄輝, 佐々木了 | 血管腫・脈管奇形の遺伝子異常 | 日本小児血液・がん学会雑誌 | 61, 5 | 339-345 | 2024 |
| 長濱通子 | 皮膚科レーザー治療におけるリスクマネジメント | Visual Dermatology | 23(6) | 576-577 | 2024 |
| 三浦莉理 川上善久ら | 一次二期乳房再建における術後血腫を契機として診断に至った von Willebrand 病の 1 例 | 創傷 | 15巻3号 | 86-91 | 2024年 |
| 草間峻、 <u>岩科裕己</u> 、 他 | 当科で脈管奇形に対してシロリムス内服治療を行った 22 例に関する検討 | 形成外科 | 68巻2号 | 186-192 | 2025年 |
| 岩科裕己、他 | 遊離皮弁により再建した動静脈奇形切除後の長期治療経過 | 形成外科 | 67巻5号 | 476-485 | 2024年 |

令和7年3月31日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 医療法人明和会たまき青空病院

所属研究機関長 職名 理事長

氏名 田蒔 正治

次の職員の令和6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 難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究

3. 研究者名 (所属部署・職名) 形成外科・部長

(氏名・フリガナ) 秋田 定伯・アキタ サダノリ

4. 倫理審査の状況

| | 該当性の有無 有 無 | 左記で該当がある場合のみ記入 (※1) | | |
|-------------------------------------|--|-------------------------------------|----------------|--------------------------|
| | | 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"/> | 医療法人明和会たまき青空病院 | <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
クレ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 7年 4月 25日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 国家公務員共済組合連合会斗南病院

所属研究機関長 職名 病院長

氏名 奥芝俊一

次の職員の令和6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 難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究3. 研究者名 (所属部署・職名) 血管腫・脈管奇形センター・診療部長兼血管腫・脈管奇形センター長
(氏名・フリガナ) 佐々木 了・ササキ サトル

4. 倫理審査の状況

| | 該当性の有無 有 無 | 左記で該当がある場合のみ記入 (※1) | | |
|-------------------------------------|---------------|---------------------|--------|----------|
| | | 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) | ■ □ | ■ | 斗南病院 | □ |
| 遺伝子治療等臨床研究に関する指針 | □ ■ | □ | | □ |
| 厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針 | □ ■ | □ | | □ |
| その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称：) | □ ■ | □ | | □ |

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェック
クレ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 ■ 未受講 □ |
|-------------|------------|

6. 利益相反の管理

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

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

令和 7年 3月 26日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 聖マリアンナ医科大学

所属研究機関長 職名 学長

氏名 北川 博昭

次の職員の令和6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 難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究

3. 研究者名 (所属部署・職名) 医学部・主任教授

(氏名・フリガナ) 三村 秀文・ミムラ ヒデフミ

4. 倫理審査の状況

| | 該当性の有無 有 無 | 左記で該当がある場合のみ記入 (※1) | | |
|-------------------------------------|---------------|---------------------|--------|----------|
| | | 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) | ■ □ | ■ | 京都大学 | □ |
| 遺伝子治療等臨床研究に関する指針 | □ ■ | □ | | □ |
| 厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針 | □ ■ | □ | | □ |
| その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称:) | □ ■ | □ | | □ |

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェック
クレ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 ■ 未受講 □ |
|-------------|------------|

6. 利益相反の管理

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

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

令和 7年 4月 1日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 医療法人社団淳英会
おゆみの中央病院

所属研究機関長 職名 理事長・院長

氏名 山下 剛司

次の職員の令和6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 難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症および
関連疾患についての調査研究3. 研究者名 (所属部署・職名) 形成外科・部長(氏名・フリガナ) 力久 直昭・リキヒサ ナオアキ

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） | ■ | □ | ■ | おゆみの中央病院倫理委員会 | □ |
| 遺伝子治療等臨床研究に関する指針 | □ | ■ | □ | | □ |
| 厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針 | □ | ■ | □ | | □ |
| その他、該当する倫理指針があれば記入すること（指針の名称：） | □ | ■ | □ | | □ |

（※1）当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェック
を入れる。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 ■ 未受講 □ |
|-------------|------------|

6. 利益相反の管理

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

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

令和 7 年 4 月 9 日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 大阪医科薬科大学

所属研究機関長 職名 学長

氏名 佐野 浩一

次の職員の令和 6 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 難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究

3. 研究者名 (所属部署・職名) 放射線診断学教室・教授

(氏名・フリガナ) 大須賀 慶悟・オオスガ ケイゴ

4. 倫理審査の状況

| | 該当性の有無 有 無 | 左記で該当がある場合のみ記入 (※1) | | |
|-------------------------------------|--|-------------------------------------|--------|--------------------------|
| | | 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
クレ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 ■ 未受講 □ |
|-------------|------------|

6. 利益相反の管理

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

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

令和 7 年 4 月 1 日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 国立大学法人広島大学

所属研究機関長 職名 学長

氏名 越智 光夫

次の職員の令和6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 難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究

3. 研究者名 (所属部署・職名) 大学院医系科学研究科 特任教授

(氏名・フリガナ) 田中 純子 タナカ ジュンコ

4. 倫理審査の状況

| | 該当性の有無 有 無 | 左記で該当がある場合のみ記入 (※1) | | |
|-------------------------------------|---------------|---------------------|-------------------------------|----------|
| | | 審査済み | 審査した機関 広島大学 疫学研究倫理審査委員会 | 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) | ■ □ | ■ | 広島大学 疫学研究倫理審査委員会 | □ |
| 遺伝子治療等臨床研究に関する指針 | □ ■ | □ | | □ |
| 厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針 | □ ■ | □ | | □ |
| その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称:) | □ ■ | □ | | □ |

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェック
クレ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 ■ 未受講 □ |
|-------------|------------|

6. 利益相反の管理

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

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

令和 7 年 4 月 21 日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 国立大学法人東海国立大学機構

所属研究機関長 職名 機構長

氏名 松尾 清一

次の職員の令和6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 難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究3. 研究者名 (所属部署・職名) 岐阜大学医学部附属病院・講師(氏名・フリガナ) 小関 道夫・オゼキ ミチオ

4. 倫理審査の状況

| | 該当性の有無 有 無 | 左記で該当がある場合のみ記入 (※1) | | |
|-------------------------------------|---------------|---------------------|-------------------------------|----------|
| | | 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) | ■ □ | ■ | 岐阜大学大学院医学系研究科 医学研究等倫理審査委員会 | □ |
| 遺伝子治療等臨床研究に関する指針 | □ ■ | □ | | □ |
| 厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針 | □ ■ | □ | | □ |
| その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称:) | □ ■ | □ | | □ |

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェック
クレ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 ■ 未受講 □ |
|-------------|------------|

6. 利益相反の管理

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

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

機関名 自治医科大学

所属研究機関長 職名 学長

氏名 永井 良三

次の職員の令和6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 難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究

3. 研究者名 (所属部署・職名) 医学部・客員教授

(氏名・フリガナ) 森本 哲・モリモト アキラ

4. 倫理審査の状況

| | 該当性の有無 有 無 | 左記で該当がある場合のみ記入 (※1) | | |
|-------------------------------------|--|-------------------------------------|--------|--------------------------|
| | | 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"/> | 自治医科大学 | <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
クレ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 ■ 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 ■ 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 ■ 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 ■ (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 7年 4月 1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 6 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 難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究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／スーパーバイザー
（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） | | | 未審査（※ 2） |
|------------------------------------|-------------------------------------|-------------------------------------|-------------------------------------|--------------|
| | 有 | 無 | 審査済み | |
| 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 |
| 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"/> | |
| 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"/> | |
| 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"/> | |

（※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：） |

令和 7年 2月 24日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 埼玉県立小児医療センター

所属研究機関長 職名 病院長

氏名 岡明

次の職員の令和6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 難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究3. 研究者名 （所属部署・職名）血液腫瘍科・科長（氏名・フリガナ）康勝好・コウカツヨシ

4. 倫理審査の状況

| | 該当性の有無 有 無 | 左記で該当がある場合のみ記入（※1） | | |
|-------------------------------------|--|-------------------------------------|-------------|--------------------------|
| | | 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"/> | 福岡大学倫理審査委員会 | <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。

国立保健医療科学学院長 殿

令和 7年 3月 28日

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 辰夫

次の職員の令和6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 難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究

3. 研究者名 (所属部署・職名) 医学部・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 有 無 | 左記で該当がある場合のみ記入 (※1) | | |
|-------------------------------------|--|--------------------------|--------|--------------------------|
| | | 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 7年 3月 21日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 和歌山県立医科大学

所属研究機関長 職名 学長

氏名 中尾 直之

次の職員の令和6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 難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究

3. 研究者名 (所属部署・職名) 医学部・教授

(氏名・フリガナ) 神人正寿・ジンニンマサトシ

4. 倫理審査の状況

| | 該当性の有無 有 無 | 左記で該当がある場合のみ記入 (※1) | | |
|-------------------------------------|--|--------------------------|--------|--------------------------|
| | | 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
クレ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6年度厚生労働科学研究費補助金の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業2. 研究課題名 難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究

3. 研究者名 (所属部署・職名) 医学部・教授

(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 有 無 | 左記で該当がある場合のみ記入 (※1) | | |
|-------------------------------------|--|-------------------------------------|------------------------|--------------------------|
| | | 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"/> | 慶應義塾大学医学部、国立成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7年3月31日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 国立大学法人信州大学

所属研究機関長 職名 学長

氏名 中村 宗一郎

次の職員の令和6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 難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究

3. 研究者名 (所属部署・職名) 医学部・教授

(氏名・フリガナ) 杠 俊介・ユズリハ シュンスケ

4. 倫理審査の状況

| | 該当性の有無 有 無 | 左記で該当がある場合のみ記入 (※1) | | |
|-------------------------------------|--|-------------------------------------|--------|--------------------------|
| | | 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"/> | 信州大学 | <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
クレ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

令和7年4月18日

機関名 国立大学法人神戸大学

所属研究機関長 職名 学長

氏名 藤澤 正人

次の職員の令和6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 難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症

および関連疾患についての調査研究

3. 研究者名 (所属部署・職名) 医学部附属病院・准教授

(氏名・フリガナ) 野村 正・ノムラ タダシ

4. 倫理審査の状況

| | 該当性の有無 有 無 | 左記で該当がある場合のみ記入 (※1) | | |
|-------------------------------------|---------------|---------------------|--------|----------|
| | | 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) | ■ □ | ■ | 京都大学 | □ |
| 遺伝子治療等臨床研究に関する指針 | □ ■ | □ | | □ |
| 厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針 | □ ■ | □ | | □ |
| その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称:) | □ ■ | □ | | □ |

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェック
クレ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 ■ 未受講 □ |
|-------------|------------|

6. 利益相反の管理

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

(留意事項)

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

国立保健医療科学院長 殿

機関名 慶應義塾大学

所属研究機関長 職名 学長

氏名 伊藤 公平

次の職員の令和6年度厚生労働科学研究費補助金の調査研究における、倫理審査状況及び利益相反等の管理については以下のとおりです。

1. 研究事業名 難治性疾患政策研究事業2. 研究課題名 難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究

3. 研究者名 (所属部署・職名) 医学部・准教授

(氏名・フリガナ) 野崎 太希・ノザキ タイキ

4. 倫理審査の状況

| | 該当性の有無 有 無 | 左記で該当がある場合のみ記入 (※1) | | |
|-------------------------------------|--|-------------------------------------|---------|--------------------------|
| | | 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"/> | 京都大学医学部 | <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 7年 4月 1日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 北海道大学

所属研究機関長 職名 総長

氏名 審金 清博

次の職員の令和6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 難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究

3. 研究者名 (所属部署・職名) 大学院医学研究院・助教

(氏名・フリガナ) 石川 耕資 ・イシカワ コウスケ

4. 倫理審査の状況

| | 該当性の有無 有 無 | 左記で該当がある場合のみ記入 (※1) | | |
|-------------------------------------|---------------|---------------------|--------|----------|
| | | 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) | ■ □ | ■ | 北海道大学 | □ |
| 遺伝子治療等臨床研究に関する指針 | □ ■ | □ | | □ |
| 厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針 | □ ■ | □ | | □ |
| その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称:) | □ ■ | □ | | □ |

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェック
クレ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 ■ 未受講 □ |
|-------------|------------|

6. 利益相反の管理

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

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

国立保健医療科学院長 殿

令和7年4月18日

機関名 国立大学法人神戸大学

所属研究機関長 職名 学長

氏名 藤澤 正人

次の職員の令和6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 難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症

および関連疾患についての調査研究

3. 研究者名 (所属部署・職名) 医学部附属病院・医員

(氏名・フリガナ) 長濱 通子・ナガハマ ミチコ

4. 倫理審査の状況

| | 該当性の有無 有 無 | 左記で該当がある場合のみ記入 (※1) | | |
|-------------------------------------|--|--------------------------|--------|--------------------------|
| | | 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
クレ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 7 年 3 月 31 日

国立保健医療科学院长 殿

機関名 福岡市立こども病院

所属研究機関長 職名 院長

氏名 楠原 浩一

次の職員の令和 6 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 難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究

3. 研究者名 (所属部署・職名) 形成外科・科長

(氏名・フリガナ) 川上 善久・カワカミ ヨシヒサ

4. 倫理審査の状況

| | 該当性の有無 有 無 | 左記で該当がある場合のみ記入 (※1) | | |
|-------------------------------------|--|-------------------------------------|-----------|--------------------------|
| | | 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"/> | 福岡市立こども病院 | <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

令和 7年 4月 4日

機関名 杏林大学

所属研究機関長 職名 学長

氏名 渡邊 卓

次の職員の令和6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 難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究

3. 研究者名 (所属部署・職名) 医学部 助教

(氏名・フリガナ) 岩科裕己 イワシナユウキ

4. 倫理審査の状況

| | 該当性の有無 有 無 | 左記で該当がある場合のみ記入 (※1) | | |
|-------------------------------------|--|-------------------------------------|--------|--------------------------|
| | | 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
クレ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 7 年 4 月 24 日

国立保健医療科学院長 殿

機関名 横浜市立大学

所属研究機関長 職名 学長

氏名 石川 義弘

次の職員の令和6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 難治性血管腫・脈管奇形・血管奇形・リンパ管奇形（リンパ管腫）・リンパ管腫症および関連疾患についての調査研究

3. 研究者名 (所属部署・職名) 医学研究科・客員教授

(氏名・フリガナ) 孟 真 · モウ マコト

4. 倫理審査の状況

| | 該当性の有無 有 無 | 左記で該当がある場合のみ記入 (※1) | | |
|-------------------------------------|---------------|---------------------|--------|----------|
| | | 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) | ■ □ | ■ | 東北大学 | □ |
| 遺伝子治療等臨床研究に関する指針 | □ ■ | □ | | □ |
| 厚生労働省の所管する実施機関における動物実験等の実施に関する基本指針 | □ ■ | □ | | □ |
| その他、該当する倫理指針があれば記入すること (指針の名称:) | □ ■ | □ | | □ |

(※1) 当該研究者が当該研究を実施するに当たり遵守すべき倫理指針に関する倫理委員会の審査が済んでいる場合は、「審査済み」にチェック
クレ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 ■ 未受講 □ |
|-------------|------------|

6. 利益相反の管理

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

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