

厚生労働科学研究費補助金（がん対策推進総合研究事業）  
（分担研究報告書）

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

研究分担者 川井 章（国立がん研究センター中央病院骨軟部腫瘍・リハビリテーション科科长）  
研究協力者 岩田慎太郎（国立がん研究センター中央病院骨軟部腫瘍・リハビリテーション科医長）

研究要旨（骨軟部腫瘍臨床データベースの現状と将来）

全国骨・軟部腫瘍登録は古くより日本整形外科学会骨・軟部腫瘍委員会と国立がん研究センターの協力事業として継続実施されてきた通年登録であり、そのデータを用いた研究も多数報告されている。今回その実施体制を検討することで、全国がん登録データの予後データとの連携の必要性や、症例登録先の第三者への委託、さらには登録データの利活用に関する規定などといった改善点が確認された。また本登録データを活用した研究結果を、国民に分かりやすい形で公表・還元していくことが今後求められる。

**A. 研究目的**

全国骨・軟部腫瘍登録は我が国で唯一の骨腫瘍および軟部腫瘍の疾患レジストリである。1964年より日本整形外科学会骨軟部腫瘍委員会と国立がんセンターの連名で全国骨腫瘍登録が開始、さらに1985年からは軟部腫瘍の情報の登録が開始され、以降良悪性を含めた骨および軟部腫瘍の詳細な情報が通年登録として実施されてきた。2006年からは登録は電子化され、また2009年からは予後データも合わせて収集されることになり、さらには2014年からは、一般公開されていない予後データを含めた詳細な登録データの希望者（日本整形外科学会会員に限る）への提供が開始され、これまでに骨軟部腫瘍に関する我が国発の研究が多数報告されてきた。2006～19年の総登録数は骨腫瘍58,538例、軟部腫瘍81,351例、骨肉腫2,591例と、希少がんの代表とも言える骨軟部腫瘍としては、世界的にも類を見ない貴重なビッグデータとなっている。本研究では、全国骨・軟部腫瘍登録の現状につき検討を行った。

**B. 研究方法**

2019年度は、全国骨・軟部腫瘍登録の現状と課題について、事前の通知質問への回答を含め班会議で報告を行い、当該登録への意見収集を行なった。

2020年度は、研究代表者からの「患者・国民向けの登録研究情報提供の責任と公開の在り方について、及び患者・国民向けの具体的な情報提供、体裁について」のアンケート調査に対し研究分担者および協力者が回答し、これを元に日本整形外科学会骨軟部腫瘍委員会において議論を行なった。

2021年度は、日本整形外科学会骨軟部腫瘍委

員会に対し、「がん症例登録に関するアンケート」、「登録データ等に基づく英文研究論文を対象とした市民向けの紹介文の作成」、および「登録事業の組織規定、運用規定、研究規定、倫理規定の設定」に関する各アンケート調査を実施し、その回答結果を全国骨・軟部腫瘍登録ワーキンググループおよび日本整形外科学会骨軟部腫瘍委員会において議論した。

（倫理面への配慮）

全国骨・軟部腫瘍登録は臨床研究として、各参加施設の倫理審査委員会で承認を受けて実施している。

**C. 研究結果**

2019年度は、全国骨・軟部腫瘍登録の歴史的経緯と現状の紹介に加え、以下の通知質問への回答を行なった。

- ・ 通年登録の有無については、本登録は1985年から通年登録を行ってきている。
- ・ 登録先については、登録事務局（国立がんセンター内）で行なっており、第三者組織への委託は予定していない。
- ・ 登録情報を用いた研究としては、日整会理事会で承認された研究が、これまで20件実施され、10件の論文として成果が残っている。また、診療ガイドラインに4件が引用されている。
- ・ 国民への成果の公表については、大学、国立図書館などへの集計報告書を提供しているが、臨床研究については公表という体裁をとっていない。

2020年度は、全国骨・軟部腫瘍登録に対するアンケート調査について、日本整形外科学会

骨軟部腫瘍委員会での議論の結果を以下の通り報告した。

- 全国がん登録の予後データを全国骨・軟部腫瘍登録に反映させることについては特に異論はなく、今後その体制構築を前向きに検討していくこととなった。
- 登録内容の検証については、全国骨・軟部腫瘍登録では実施していないが、登録症例の予後調査（2、5、10年後）の際に、病理診断や治療内容などの項目を確認することとなっている。
- 登録・分析業務の第三者機関への業務委託については、現在行なっておらず、登録事務局（国立がん研究センター中央病院内）がその登録業務を行なっている。今後は第三者機関へ依頼することも検討する必要があるとの意見があった。
- 短期間登録研究の計画は現時点ではないが、その潜在的ニーズは高いと思われる。
- 登録データの利活用に関する臨床研究における規定については、日本整形外科学会ホームページの会員向けサイトに掲載されている。

2021年度は、全国骨・軟部腫瘍登録に関する情報の更新（骨軟部腫瘍委員会での議論を経て）を行ない、以下の点が追加報告された。

- 日本癌治療学会から要請としての「厚生労働省科学研究費補助金による研究班」からの照会内容を日本整形外科学会骨軟部腫瘍委員会で審議した結果、照会内容が適切であるとの結論に至り、現行の「がん登録推進法」の一部改訂あるいは解釈の工夫を依頼すべきとのこととなった。
- 現在の全国骨・軟部腫瘍登録に関する課題として、登録項目の旧態化やwebアプリケーションへの移行の遅延、各項目の入力方法の明確化などが挙げられた。
- 一般国民に向けた、登録データを活用した研究成果の公表・説明のための特設説明サイトは無い。今後日本整形外科学会とも相談し、学会ホームページ内への掲載を企画していく。

また、登録データを活用した英文研究論文を対象とした市民向けの紹介文として、2つの疫学調査論文（英文雑誌 Journal of Orthopaedic Science 誌に発表）の結果をもとに、「わが国における悪性骨・軟部腫瘍の治療成績について～全国骨・軟部腫瘍登録のデータより～」と題した市民向けの解説文を作成した。本解説文では、悪性骨腫瘍および悪性軟部腫瘍における予後因子ごとの疾患特異的生存率がわかりやすく記載されており、今後日本整形外科学会ホームページ内への掲載を予定している。

## D. 考察

全国骨・軟部腫瘍登録は本邦での骨軟部腫瘍診療に関する詳細な情報が、登録参加施設の一人一人の研究者の献身的努力により収集されてきた貴重なデータベースであり、希少がんである骨・軟部腫瘍に関する国レベルの情報として、世界的にも類を見ないものである。またその情報を利用した骨軟部腫瘍に関する臨床研究がこれまでも数多く発表されている。

しかしその運営に関して、持続可能なものとは言い難い側面がある。事務局業務は事実上一臨床医によって行われており、その登録作業も第三者への委託は行われていない。さらにはデータベースのアップデートの遅延や全国がん登録データの予後データとの連携、入力データの検証作業などについては、これから改善の余地があると考ええる。

また、登録データを用いた研究発表は他の疾患領域と比較しても充実していると思われるが、それらの結果を国民に分かりやすい形で公表・還元していくことは今後の重要な課題である。骨軟部腫瘍は希少がんの一種であり、一般向けの情報も主要がんと比較し希薄である。骨軟部腫瘍と診断され不安の中で情報を求める患者や家族に対し、正確な情報を分かりやすい形で提供することで、本登録の意義も高まるものと考ええる。

今後は、日本整形外科学会と連携しながら、上記の課題についての議論を日本整形外科学会骨軟部腫瘍委員会および全国骨・軟部腫瘍登録ワーキンググループで行なっていく予定である。

## E. 結論

全国骨・軟部腫瘍登録は希少がんである骨軟部腫瘍に関する情報が集積された貴重なデータベースであり、長期にわたり通年登録が実施されてきている。今後全国がん登録の予後データを反映させることで、より精度の高いデータベースとなると考えられる。また本登録データを活用した研究結果を、国民に分かりやすい形で公表・還元していくことが今後求められる。

## F. 健康危険情報

特になし

## G. 研究発表

### 1. 論文発表

- Kawai A, Higashi T, Shibata T, Yoshida A, Katoh Y, Fujiwara Y, Nishida T. Rare cancers in Japan: definition, clinical features and future perspectives. Jpn J

- Clin Oncol. 2020;50(9):970-975.
- Tap WD, Wagner AJ, Schöffski P, Martín-Broto J, Krarup-Hansen A, Ganjoo KN, Yen CC, Abdul Razak AR, Spira A, Kawai A, Le Cesne A, Van Tine BA, Naito Y, Park SH, Fedenko A, Pápai Z, Soldatenkova V, Shahir A, Mo G, Wright J, Jones RL; ANNOUNCE Investigators. Effect of Doxorubicin Plus Olaratumab vs Doxorubicin Plus Placebo on Survival in Patients With Advanced Soft Tissue Sarcomas: The ANNOUNCE Randomized Clinical Trial. *JAMA*. 2020; 323(13):1266-1276.
  - Kawai A, Naka N, Shimomura A, Takahashi S, Kitano S, Imura Y, Yonemori K, Nakatani F, Iwata S, Kobayashi E, Outani H, Tamiya H, Naito Y, Yamamoto N, Doi T. Efficacy and safety of TAS-115, a novel oral multi-kinase inhibitor, in osteosarcoma: an expansion cohort of a phase I study. *Invest New Drugs*. 2021;39(6):1559-1567.
  - Iwata S, Kawai A, Ueda T, Ishii T; Japanese Musculoskeletal Oncology Group (JMOG). Symptomatic Venous Thromboembolism in Patients with Malignant Bone and Soft Tissue Tumors: A Prospective Multicenter Cohort Study. *Ann Surg Oncol*. 2021;28(7):3919-3927.
  - Benefit of surgical resection of distant metastasis in soft tissue sarcoma: a systematic review. Hayashi K, Hiraoka K, Akiyama T, Iwata S, Tsuchiya H, Kawai A. *Jpn J Clin Oncol*. 51(7):1088-1093. 2021
  - Nagano A, Tsugita M, Nishimoto Y, Akiyama H, Kawai A. The 'other' bone sarcomas in Japan: a retrospective study of primary bone sarcomas other than osteosarcoma, Ewing sarcoma and chondrosarcoma, using data from the Bone Tumor Registry in Japan. *Jpn J Clin Oncol*. 2021;51(9):1430-1436.
  - P Jones RL, Wagner AJ, Kawai A, Tamura K, Shahir A, Van Tine BA, Martín-Broto J, Peterson PM, Wright J, Tap WD. Prospective Evaluation of Doxorubicin Cardiotoxicity in Patients with Advanced Soft-tissue Sarcoma Treated in the ANNOUNCE Phase III Randomized Trial. *Clin Cancer Res*. 2021;27(14):3861-3866.

#### H. 知的財産権の出願・登録状況 (予定を含む)

1. 特許取得
2. 実用新案登録
3. その他