

厚生労働科学研究費補助金（がん対策推進総合研究事業）

次期がん対策推進基本計画に向けて小児がん拠点病院および連携病院の小児がん医療・支援の質を評価する新たな指標開発のための研究

研究分担：小児がん拠点病院および連携病院の小児がん医療・支援の質を評価する新たな指標開発に関する研究

分担研究報告書

研究分担者 井口晶裕 国立成育医療研究センター
小児がんセンター 診療部長

研究要旨

拠点病院および日本小児がん研究グループ（JCCG）の施設を中心とした標準的な疾患は各小児がん診療施設で適切に診療が行われており一定の均てん化が達成されている。2020年から地域での小児がん診療およびフォローアップのための小児がん連携病院が指定された。その一方で、難治例や治験など拠点病院でないと行えないような治療については、拠点病院に患者の紹介が行われている。具体的には、再発・難治症例、CART療法、新規薬剤の治験、肝移植などが必要となった小児がん患者の受け入れなどについては集約化が行われた。

拠点病院としては、小児がん診療のための人材育成のための研究会や研修会は医療者から市民まで参加対象者に応じた形態での開催が毎年行われている。コロナ禍以降、webを併用した勉強会を継続している。患者・家族支援のための院内教育充実化のため、webでも復学支援会議を常設化しており、よりスムーズな復学につながるものと考えている。

本研究において全小児がん拠点病院と共同で設定した quality indicator(QI)の36指標を当センターの全部署で毎年評価し共有している。これにより自律的にPDCAサイクルが回るようになった。さらには小児がん連携病院のQI指標を決定し各連携施設に配布した。来年度以降も地域の事情に応じたより良い拠点病院のあり方、連携のあり方につき研究および実践を進める予定である。

A. 研究目的

小児がん拠点病院および連携病院の小児がん医療・支援の質を評価する新

な指標開発を行い、地域の事情に応じたより良い拠点病院と連携病院のあり方につき実践、検討を行う。

B. 研究方法

小児がん拠点病院および連携病院の小児がん医療・支援の質を評価する新たな指標を策定し、以下の課題に取り組み、拠点病院と連携病院のあり方につき検討を行う。

- (1) 集約化と均てん化のバランス
- (2) 地域の病院との連携、人材育成、
- (3) 患者・家族支援について
- (4) PDCA サイクルの自律的回転

C. 研究結果

(1) 均てん化と集約化

各地域においては大学病院や中核病院などの JCCG（日本小児がん研究グループ）のメンバーを中心とした患者の集約化が行われている。標準的治療に関しては、それぞれの小児がん診療施設で行われ集学的治療をふくむ標準的な診療を提供している。

再発難治例など標準的な治療以上の療が必要な患者については、拠点病院でのみ行われている治験や先進医療について、大学病院を含む複数の施設から患者の紹介が行われた。具体的には、CART 療法、固形腫瘍/脳腫瘍に対する治験、肝移植などが必要となった小児がん患者の受け入れなどである。

集約化を進めるためには、このような新規薬剤を用いた臨床試験など小児がん拠点病院でないとできない治験や臨床試験を増やしていくことが不可欠と考えられる。

(2) 地域連携と人材育成

小児がん診療に携わる医療者のみならず、地域の医療スタッフや広く市民まで参加可能な研修会が国立成育医療

研究センターの主催で定例で開催されている。

コロナ禍以降は、拠点病院と小児がん連携病院のスタッフや研修医が協力して web を併用した勉強会を継続している。このような取り組みにより小児医療や小児がん診療を志す若い研修医の増加を目指している。これらの研修会や勉強会は、web 開催になったことによりむしろ開催のハードルが低下し開催回数が増加した。

(3) 患者・家族支援

患者・家族支援のための院内教育充実化のため、コロナ禍以降は web でも復学支援会議を行いよりスムーズな復学につなげている。

(4) PDCA サイクル

本研究班において、全国の小児がん拠点病院と共同で設定した quality indicator(QI)の 36 指標を当センターの各部署に毎年行い、院内の全部署で共有している。これにより自律的に PDCA サイクルが回るようになっている。

(5) 小児がん拠点病院の QI は改訂を経ながら毎年行い自律的な PDCA サイクルを回すことができている。小児がん連携病院における小児がん医療・支援の質を評価する新たな指標はカテゴリー①の施設に配布され評価している。

D. 考察

JCCG 施設を中心とした集約化と均てん化については比較的良好な連携ができています。拠点病院でないとできないような治験、先進医療には患者の集約

化を行うことができている。

地域の病院との連携、患者負担の軽減、転校・復学支援および高校生の教育などの患者・家族支援に課題は地域によって実情が大きく異なり、コロナ禍のためもあって依然として十分ではない。病院と原籍校をwebでつなぐシステムなどに期待したい。

小児がん診療のための人材確保や地域の病院との連携のための研修会や勉強会の継続により、小児医療や小児がん診療を志す若い研修医の増加を得ている。face to faceの勉強会が減ってしまっている中、当面はwebを併用した継続的な粘り強い取り組みが必要と考えられる。

拠点病院としてQI評価により、自律的にPDCAサイクルは回せているが、小児がん連携病院のQI評価を行うことにより今後のより良い小児がん拠点病院と連携病院のあり方について検討を進めていくことになる。

E. 結論

JCCG施設および拠点病院を中心とし集約化と均てん化のバランスが取れるようになっている。標準的な疾患は各小児がん診療施設で適切に診療が行われており、治験や先進医療などの拠点病院でないと行えないようなものについては、拠点病院に患者の紹介が行われるようになった。小児がん連携病院が指定され地域の実情に即した集約化と均てん化を推進する必要がある。

患者・家族支援のため院内教育充実化を進めており、高校生の教育支援にも繋げていきたい。

QI評価による拠点病院と連携病院の適切なあり方を引き続き研究・検討を進める必要がある。

F. 健康危険情報

なし

G. 研究発表

1. 論文発表

1. Sakamoto A, Nakadate H, Iguchi A, Tsumura Y, Tsuruta T, Yamashiro Y, Hattori Y, Ishiguro A. Unstable hemoglobin Bicêtre, NM_000518.4(HBB):C.191A>C (p.His64Pro), with slightly decreased P50 and no polycythemia after splenectomy. *Pediatr Blood Cancer*. 69:e29777, 2022
2. Yaga T, Iguchi A, Nakayama R, Kosaki R, Ishiguro A. Potocki-Shaffer syndrome revealed in a WAGR syndrome case with multiple exostoses. *Pediatr Int*. 2023; 65:e15405.
3. Yamano S, Iguchi A, Ishikawa K, Sakamoto A, Uchiyama T, Yanagi K, Kaname T, Ishiguro A. Splenectomy as an effective treatment for macrothrombocytopenia in Takenouchi-Kosaki syndrome. *Int J Hematol*. 2023;117:622-625.
4. Nishida M, Sugita J, Takahashi S, Iwai T, Sato M, Kudo Y, Omotehara S, Horie T, Sakano R, Shibuya H, Yokota I, Iguchi A, Teshima T. Correction to: Refined ultrasonographic criteria for sinusoidal obstruction syndrome after hematopoietic stem cell transplantation. *Int J Hematol*. 2023;117:468.
5. Ishida H, Imamura T, Tatebe Y, Ishihara T,

- Sakaguchi K, Suenobu S, Sato A, Hashii Y, Deguchi T, Takahashi Y, Hasegawa D, Miyamura T, Iguchi A, Kato K, Saito-Moriya A, Hara J, Horibe K. Impact of asparaginase discontinuation on outcomes of children with acute lymphoblastic leukaemia receiving the Japan Association of Childhood Leukaemia Study ALL-02 protocol. Br J Haematol. 2023, in press
6. 長谷河昌孝, 長祐子, 大久保淳, 寺下友佳代, 杉山未奈子, 井口晶裕, 河北一誠, 荒桃子, 本多昌平, 若林健人, 高桑恵美, 外木秀文, 真部淳. ウィリアムズ症候群の男児に発症したバーキットリンパ腫. 日本小児血液・がん学会雑誌 59: 292-295, 2022
 7. 歌野智之, 富澤大輔, 加藤元博, 大隅朋生, 牛腸義宏, 坂口大俊, 井口晶裕, 松本公一, 山谷明正. 携帯型精密輸液ポンプを用いたブリナツモマブの在宅投与. 日本小児血液・がん学会雑誌 59: 281-286, 2022
 8. 藤井聡子, 中尾寛, 竹澤芳樹, 坂本淳, 井口晶裕, 石黒精. RS ウイルス感染に続発した発作性寒冷血色素尿症の1例. 小児科診療 85: 2022
- ## 2. 学会発表
1. 藤森健太郎, 坂口大俊, 坂本淳, 寶月啓太, 松井俊大, 清水総一郎, 池邊記士, 湊苑子, 森田麻莉, 豊原美環子, 牛腸義宏, 山田悠司, 内山徹, 塩田曜子, 清谷知賀子, 寺島慶太, 出口隆生, 井口晶裕, 加藤元博, 新井勝大, 義岡孝子, 矢ヶ崎博, 富澤大輔, 松本公一. 造血幹細胞移植後の難治性消化管 GVHD に対してベドリズムマブが奏功した小児の3例. 第44回日本造血・免疫細胞療法学会総会 2022年5月 (横浜) 口頭
 2. 藤森健太郎, 井口晶裕, 湊苑子, 森田麻莉, 豊原美環子, 池邊記士, 清水総一郎, 坂本淳, 寶月啓太, 松井俊大, 牛腸義宏, 山田悠司, 内山徹, 塩田曜子, 清谷知賀子, 寺島慶太, 出口隆生, 坂口大俊, 竹内一朗, 新井勝大, 義岡孝子, 中尾佳奈子, 鳴海覚志, 富澤大輔, 石黒精, 松本公一. POLE 遺伝子バリエーションを伴う造血障害に対して造血幹細胞移植を行なった2例. 第44回日本造血・免疫細胞療法学会総会 2022年5月 (横浜) ポスター
 3. 池邊記士, 牛腸義宏, 新井勝大, 義岡孝子, 羽賀千都子, 井口晶裕, 富澤大輔, 松本公一, 坂口大俊. 反復性消化管大量出血を伴うステロイド抵抗性消化管 GVHD に対して二次治療が奏功したムコ多糖症2型の一例. 第64回日本小児血液・がん学会学術集会 2022年11月 (東京) 口頭
 4. 石川孝太郎, 牛腸義宏, 松井俊大, 坂口大俊, 井口晶裕, 出口隆生, 富澤大輔, 宮寄治, 松本公一. 小児血液腫瘍患者に対するメトトレキサート関連神経毒性後のメトトレキサート再投与. 第64回日本小児血液・がん学会学術集会 2022年11月 (東京) 口頭
 5. 松井俊大, 牛腸義宏, 山田悠司, 坂口大俊, 井口晶裕, 塩田曜子, 清谷知賀子, 寺島慶太, 富澤大輔, 松本公一. 小児血液・腫瘍および造血細胞移植患者における新型コロナウイルス感染症の

- 臨床的影響. 第 64 回日本小児血液・がん学会学術集会 2022 年 11 月 (東京) 口頭
6. 歌野智之、竹林晃、辻本真一、田之島れお、坂口大俊、牛腸義宏、井口晶裕、富澤大輔、松本公一、加藤元博、山谷明正. 小児がん患者におけるポリコナゾール併用によるシクロフォスファミド薬物動態への影響. 第 64 回日本小児血液・がん学会学術集会 2022 年 11 月 (東京) 口頭
7. 湊苑子、牛腸義宏、坂口大俊、井口晶裕、出口隆生、大木健太郎、清河信敬、松本公一、富澤大輔. 小児急性全骨髄性白血病に対する ATRA/三酸化ヒ素治療. 第 64 回日本小児血液・がん学会学術集会 2022 年 11 月 (東京) 口頭
8. 可児涼真、杉山未奈子、大島淳二郎、井口晶裕、長祐子、真部淳、宮城久之、本多昌平. 臍帯血移植後に長期生存している CBF β -MYH11 融合遺伝子を伴う小腸骨髄肉腫の一例. 第 64 回日本小児血液・がん学会学術集会 2022 年 11 月 (東京) ポスター
9. 内山徹、大原修、要匡、笹原洋二、國島伸二、坂本淳、井口晶裕、石黒精. 先天性血小板減少症・異常症へのレジストリおよび網羅的遺伝子診断の確立. 第 64 回日本小児血液・がん学会学術集会 2022 年 11 月 (東京) 口頭
10. 渡辺直樹、坂本淳、井口晶裕、石黒精、中舘尚也. インヒビター保有重症血友病 A 男児での emicizumab 治療と ITI の意義. 第 64 回日本小児血液・がん学会学術集会 2022 年 11 月 (東京) ポスター
11. 板倉陽介、坂口大俊、井口晶裕、松井俊大、藤森健太郎、清水総一郎、池邊記士、湊苑子、牛腸義宏、宮坂実木子、宮寄治、堤義之、渡辺栄一郎、狩野元宏、出口隆生、富澤大輔、松本公一. EBMT 基準および HokUS-10 による診断と defibrotide による治療が奏功した最重症類洞閉塞症候群の小児 2 例. 第 45 回日本造血・免疫細胞療法学会総会 2023 年 2 月 (名古屋) 口頭
12. 池邊記士、明神翔太、松井俊大、牛腸義宏、山田全毅、大宜見力、小池研太郎、阿部裕一、小関元太、山本祐輝、藤野明浩、松本正太郎、中川聡、出口隆生、井口晶裕、富澤大輔、松本公一、坂口大俊. 最重症再生不良性貧血に対する免疫抑制療法後に播種性真菌感染を呈し緊急ハプロ造血細胞移植を施行した一例. 第 45 回日本造血・免疫細胞療法学会総会 2023 年 2 月 (名古屋) 口頭
- ### 3. ガイドライン
1. 造血細胞移植ガイドライン 造血幹細胞採取 (第 2 版). 日本造血・免疫細胞療法学会 Japanese Society for Transplantation and Cellular Therapy. 2022 年 5 月
- ### 4. 知的財産権の出願・登録状況
1. 特許取得
なし
 2. 実用新案登録
なし
 3. その他
なし