

II. 分担研究報告

令和4年度の新生児先天性横隔膜ヘルニア研究グループの活動

研究分担責任者 永田 公二 国立大学法人九州大学・九州大学病院・講師
研究分担責任者 近藤 拓也 国立大学法人九州大学・九州大学病院・助教

研究要旨

【研究目的】 本研究の目的は、呼吸器系先天異常疾患に関する診療ガイドラインを整備し、長期的なフォローアップ体制を構築して移行期医療を支援するとともに、AMED 研究班や難病拠点病院と連携して研究を推進し、患者の QOL 向上に資する適切な診療体制を構築することである。令和4年度の日本先天性横隔膜ヘルニア研究グループ（以下、JCDHSG）の活動は、令和2-3年度においてCDH診療ガイドライン改訂が終了したため、次の4項目：1)CDH研究グループ分科会、2)症例登録制度の確立とエビデンス創出、3)患者・家族会支援、4)バイオバンク設立について活動を行った。

【研究方法】 1) CDH研究グループ分科会活動として、①心機能分科会、②長期予後分科会、③DPC-linkage分科会、④国際共同研究分科会が各々活動を行った。2) 症例登録制度を一部改訂し、既存のデータやガイドライン改訂作業などから新たなエビデンスを創出する。3) 患者・家族会支援：CDH患者・家族会の依頼を受けて活動の支援を行う。4) バイオバンク設立：九州大学で研究を開始し、症例を集積する。

【研究結果】 1) ①心機能分科会は近畿大学が親施設となり、今後8施設の多機関共同研究が実施される。②長期予後分科会は九州大学、神奈川県立こども医療センターが中心となり、6施設が参加予定である。コンセプトシートをもとに研究計画を立案する。③DPC-linkage分科会は成育医療研究センターが親施設となり、4施設で多機関共同研究を実施中である。④国際共同研究は、九州大学が親施設となり、大阪大学と九州大学でテーマ別の研究が遂行されている。2) 症例登録制度を一部改訂し、新たなエビデンスを創出した。3) 患者・家族会の活動を支援した。4) バイオバンク設立：九州大学病院でCDH患者の母親の臍帯6例から間葉系幹細胞の抽出を試みた。

【研究結論】 令和2-3年度でCDH診療ガイドラインを改訂したため、R4年度は新たな研究活動として分科会がたちあげた。症例登録制度はエビデンス創出とともに国際共同研究にも利用できるように互換性を担保した。患者・家族会の要請に応じて講演会や会報誌への寄稿など継続的に活動を支援した。バイオバンク設立を最終目標として、試験的にCDH母体臍帯から間葉系幹細胞の採取をおこなった。

A. 研究目的

1) 新生児先天性横隔膜ヘルニア研究グループ(JCDHSG)分科会

設立から現在まで、JCDHSG では全 15 施設が症例登録を行う症例登録制度を用いた臨床研究を遂行してきた。しかしながら、多施設共同研究では多診療科が存在し、modality や治療、長期予後に特化した臨床研究を行いたい場合にはすべての施設均等にエフォートを割き、データを収集できる訳ではない。CDH 診療においては、テーマ別により深層に焦点を当てた小規模臨床研究を行う事も可能である。今回、4 つのテーマに応じた臨床研究を新規または継続で立ち上げた。

2) 症例登録制度の確立とエビデンス創出

日本先天性横隔膜ヘルニア研究グループ（以下、JCDHSG）では 2006 年から現在まで Research Electronic Data Capture（以下、REDCap）を用いた症例登録を行っている。一方、米国 CDHSG との国際共同研究においては、5 年毎にデータシートの改訂が行われている。今回、国際共同研究との協調も視野に入れて、また、項目過多に伴う trial fatigue を防ぐ目的で入力項目の改訂を行うこととした。また、データベースからの新たな研究を立ち上げ、ガイドライン作成過程についてもまとめて論文投稿を行い、新たなエビデンスの創出に努めた。

3) 患者・家族会支援

令和 2 年 5 月に立ち上がった CDH 患者家族会も今年で 3 年目を迎えるが、社会的認知度の向上や会員のモチベーション維持、具体的支援策や医師との連携など、持続可能性を追求する際の課題は残っていると考える。患者会の求める姿と今後の JCDHSG との連携について考察した。

4) バイオバンク設立

希少難治性疾患に対する基礎研究の目的は、疾患の原因検索と新規治療法の開発である。生体組織試料と臨床データがリンクするデータベースの構築が理想的である。倫理的配慮を踏まえて、将来的には、症例登録制度に生体組織登録を上乗せし、未知の病因検索や新規治療法の開発に取り組む事を目標としたい。

B. 研究方法ならびに研究結果

研究代表者 1 名、研究分担者 7 名、研究協力者 48 名の協力を得て、今年度の研究を遂行した(資料 2-1)。本年度の CDH 研究グループ会議は令和 4 年 7 月と令和 5 年 2 月の計 2 回 web 会議で施行した。(資料 2-2)

1) 新生児先天性横隔膜ヘルニア研究グループ(JCDHSG)分科会

① 心機能分科会

令和 4 年 1 月から開始された心機能分科会は令和 5 年 2 月までに計 5 回の web 会議が開催された(資料 2-3)。現在、2 つの研究（稲村研究：簡易な心機能の指標として左右心房・心室の形態評価をおこなう研究、豊島研究：ストレインや 3D エコーなどの新たなエコー機器を用いた心機能評価をおこなう先進的な研究）が立案されている。稲村研究については、近畿大学を親施設として 8 施設の協力のもとに多機関共同研究が進められる予定である。現在、近畿大学の倫理審査が通った状況(資料 2-4)であり、多機関共同研究の手続きを行っていく。

② 長期予後分科会

長期予後については、令和 3 年 1 月に初回会議が開催され、令和 4 年 11 月に 2 回目の会議が実施された(資料 2-5)。長期予後

の重要性については各施設ともに認識されているが、成長発達の追跡調査を行っている施設自体は15施設中6施設のみである。まず、REDCapにおける3歳時の長期予後について、入力状況を確認する事を目標してデータを収集している。

③ DPC-Linkage 分科会

国立成育医療研究センターの小林徹先生が主導されているAMED研究(成育疾患克服研究事業-BIRTHDAY)の「周産期・小児領域における高品質臨床研究推のための臨床研究コンソーシアム」と連携して、研究協力施設4施設がREDCapに登録されたデータを提供し、その4施設から抽出された抽出データとの互換性を検討する研究を開始している。成育医療研究センターを親施設として多機関共同研究が締結されており、途中経過の報告がなされた(資料2-6、資料2-7)。

④ 国際共同研究

令和3年11月23日に米国よりデータを受領し、2つの国際共同研究が始まっていた。大阪大学小児外科は3666例の登録症例から「気胸発生とCDHの予後」について解析を行い、九州大学小児外科は8251例の登録症例から「有嚢性CDHと予後」について解析を行っていたが、Data Transfer and Use Agreementに関する契約期間が終了していたため、再契約を結んだ。この際、通常であれば1施設vs1施設の契約となるが、日本では国際共同研究として多機関共同研究を行っているため、各施設で連結匿名化されてREDCapに入力されたデータを九州大学で取りまとめて翻訳し、JCDHSG15施設のデータとして一括で米国のデータベースへ送ることとして再契約をおこなった(資料2-8)。引き続き、論文の作成、投稿先の選定などをすすめていく。

2) 症例登録制度の確立とエビデンス創出

本研究班で症例データ登録に利用しているREDCapの症例登録システムにおける登録状況について報告する。2006年出生からの症例を登録し、現在1124例が症例登録されている。(資料2-9) 成果として、今年度は英文論文で5編の論文が既に採用・掲載され、さらに1編が採用・掲載待ちの状態である(資料2-10)。

3) 患者・家族会支援

2020年に「先天性横隔膜ヘルニア患者・家族会(CDH-PFA)」が発足した。CDH-PFA代表はその立ち上げの軌跡が日本公衆衛生雑誌に報告された(資料2-11)。今年度のJCDHSGの主な活動支援内容としては、患者会代表者の海外発表支援、患者会での講演(2022年5月8日:永田、web講演)、CDH-PFA会報「こもれば」における寄稿(Vol. 4(5月):奥山宏臣先生、Vol. 5(11月):豊島勝昭先生)おこない、近日患者会から発行予定の「合併症ハンドブック」の校閲を行っている。

4) バイオバンク設立

CDHのバイオバンク設立の先駆けとして、親施設である九州大学小児外科ではCDH母体の臍帯から間葉系幹細胞を採取して保存する研究を実施している。既に6名の検体から間葉系幹細胞を採取し、今後、横隔膜再生研究等に使用するとともに、JCDHSGの他施設にも研究協力を要請する予定である。

D. 考察

1) 新生児先天性横隔膜ヘルニア研究グループ(JCDHSG)分科会

本研究班は、希少難治性疾患であるCDHの診療実態調査から始まり、症例登録制度を通じて新たなエビデンス創出をおこなって

きた。その根底には、研究分担者や研究協力者の「なぜわからない」「しりたい」という知的好奇心と科学的探究心があった。今年度は、既に始まっていた国際共同研究に加えて、心機能分科会、長期予後分科会、DPC-linkage の3つの分科会が加わり、4つのプロジェクトが始まっている。国際共同研究は本研究班の国際的認知度の上昇に寄与するだろう。心機能分科会は予後を予測する簡便な心機能指標の探索と最先端の超音波機器を用いた予後を予測する新指標の同定に寄与するだろう。長期予後分科会は、見過ごされがちな患児の長期的な合併症の実態を解明し、患児のQOL向上のための新たな方策の構築に寄与するだろう。DPC-Linkage は政策研究克服事業である本研究班が、成育疾患研究克服研究事業であるAMED 小林班との連携に寄与するだろう。これらの研究が難治性疾患の社会的認知度の向上や医療政策の改善、政策研究事業の連携に貢献するものと考えている。

また、近年の倫理的配慮への対応も必要であった。「人を対象とする生命科学・医学的研究に関する倫理指針」が制定され、従来の多施設共同研究が倫理審査を簡略化できる「多機関共同研究」へと移行することが可能となった。今後、本研究班においても、「多施設共同研究」を「多機関共同研究」へと移行させる事で、各施設担当者の倫理審査にかかる負担を軽減し、様々な研究分野の進捗を加速する事と思われる。

2) 症例登録制度の確立とエビデンス創出

症例登録制度を確立して10年以上が経過したが、よりニッチな領域におけるエビデンスの創出が可能となった。また、診療ガイドラインを改訂する際のシステマティッ

クレビュー手法も年々改変されており、報告に資するものとなっている。今年度JCDHSG から報告された英文は5編（さらに1編受理）あり、いずれも新たなエビデンスの創出に寄与するものであった。今後もより高いエビデンスレベルを目指した臨床研究を行っていききたい。

3) 患者・家族会支援

CDH-PFA が立ち上がり2年が経過した。昨年のアンケート調査を通じてCDH-PFA の認知度がまだ低い事が明らかとなった。社会的認知度の向上や患者・家族のQOL向上のために、JCDHSG もCDH-PFA に継続的支援を行う必要がある。お互いの組織の進むべき方向性を干渉するものではないが、JCDHSG は産声をあげたばかりのCDH-PFA の良きパートナーとして陰に日向にその発展を支援していききたい。

4) バイオバンク設立

親施設である九州大学でバイオバンク制度を設立し、基礎研究に着手した。引き続き、JCDHSG における多施設共同研究や、成育疾患関連バイオバンクとの連携を模索する必要がある。今後、複数のプロジェクトを立案する必要があると考えている。

E. 結論

令和4年度の新生児先天性横隔膜ヘルニア研究グループの活動概要について、4つのプロジェクトを中心に述べた。昨年度、CDH 診療ガイドラインの改訂が終了したため、本年度はJCDHSG 内に新たな分科会を設立し、臨床研究や政策医療研究の裾を拡げた。患者・家族会支援では、社会的認知度の向上に関して継続的支援が必要である。次節では、成人領域との新たな連携も重要

課題となるため、長期予後の実態解明も必要となるだろう。引き続き、基礎研究を推進する事で疾患原因の究明や新規治療法開発にも貢献したい。

F. 研究発表

1. 論文発表

- 1) Yoneda K, Amari S, Mikami M, et al. Development of mortality prediction models for infants with isolated, left-sided congenital diaphragmatic hernia. *Pediatr Pulmonol* (2023) Jan 58(1): doi: 10.1002/ppul.26172.
- 2) Yamoto M, Nagata K, Terui K, et al. Long-term outcome of congenital diaphragmatic hernia: Report of a multicenter study in Japan. *Children (Basel)* (2022) Jun 8; 9(6):856. doi:10.3390/children9060856
- 3) Kono J, Nagata K, Terui K, et al. The efficacy of the postnatal nasogastric tube position as a prognostic marker of left-sided isolated congenital diaphragmatic hernia. *Pediatr Surg Int.* (2022) Dec;38(12):1873-1880. Doi: 10.1007/s00383-022-05226-8. Epub 2022 Sep 23.
- 4) Masahata K, Yamoto M, Umeda S, et al. Prenatal predictors of mortality in fetuses with congenital diaphragmatic hernia: a systemic review and meta-analysis. *Pediatr Surg Int.* (2022) Dec;38(12):1745-1757. Doi: 10.1007/s00383-022-05232-w. Epub 2022 Sep 14
- 5) Terui K, Nagata K, Yamoto M, Hayakawa M, Okuyama H, Amari S,

Yokoi A, Furukawa T, Masumoto K, Okazaki T, Inamura N, Toyoshima K, Koike Y, Okawada M, Sato Y, Usui N. A predictive scoring system for small diaphragmatic defects in infants with congenital diaphragmatic hernia. *Pediatr Surg Int.* 2022 Nov 28;39(1):4. doi: 10.1007/s00383-022-05287-9.

2. 学会発表

- 1) Terui K, et al. The predictive scoring system of small diaphragmatic defect in infants with congenital diaphragmatic hernia. International CDH symposium 2022, 27-29th Apr, Glasgow, hybrid開催
- 2) Nagata K, et al. Standardizing decision-making in CDH care: The Japanese experience. International CDH symposium 2022, 27-29th Apr, Glasgow, hybrid開催
- 3) Kondo T, et al. Does the sac correlate to the prognosis of congenital diaphragmatic hernia? International CDH symposium 2022, 27-29th Apr, Glasgow, hybrid開催
- 4) 照井慶太, 他. 新生児先天性横隔膜ヘルニア診療ガイドライン第2版(2021)の概要. 第59回日本小児外科学会学術集会, 5月19-21日, 東京, 2022年
- 5) 永田公二, 他. 先天性横隔膜ヘルニアにおける多施設共同行淳治療プロトコール導入の意義. 第59回日本小児外科学会学術集会, 5月19-21日, 東京, 2022年
- 6) 正嶋和典, 他. 先天性横隔膜ヘルニアに対する重症度予後予測指標の検討: システムティックレビュー. 第59

回日本小児外科学会学術集会, 5月
19-21日, 東京, 2022年

- 7) 河野 淳, 他. 先天性横隔膜ヘルニア
における出生直後の胃管の位置によ
る予後予測の有用性に関する検討. 第
59回日本小児外科学会学術集会, 5月
19-21日, 東京, 2022年
- 8) 永田公二, 他. 出生前診断された先天
性横隔膜ヘルニアの重症度別治療成
績と胎児治療の適応. 第19回日本胎児
治療学会学術集会, 12月2-3日, 大阪,
2022年

G. 知的財産の出願・登録状況

なし

区 分	氏 名	所 属 等 (所属・部局 部門)	職 名
研 究 代 表 者	白井 規朗	地方独立行政法人大阪府立病院機構大阪母子医療センター 小児外科	副院長
研 究 分 担 者	永田 公二	九州大学病院小児外科	講師
	奥山 宏臣	大阪大学大学院医学系研究科 小児成育外科	教授
	早川 昌弘	名古屋大学・医学部附属病院 総合周産期母子医療センター新生児部門	病院教授
	板倉 敦夫	順天堂大学医学部 産婦人科	教授
	照井 慶太	千葉大学大学院医学研究院 小児外科学	准教授
	甘利昭一郎	国立研究開発法人国立成育医療研究センター 周産期・母性診療センター 新生児科	医師
	佐藤 泰憲	慶應義塾大学医学部衛生学公衆衛生学	准教授
研 究 協 力 者	増本 幸二	筑波大学医学医療系 小児外科	教授
	神保 教広	筑波大学医学医療系 小児外科	講師
	矢崎 悠太	順天堂大学医学部 小児外科	助教
	岡崎 任晴	順天堂大学医学部浦安病院 小児外科	教授
	山本 祐華	順天堂大学医学部 産婦人科	准教授
	奥主健太郎	千葉大学大学院医学研究院 小児科	助教
	左合 治彦	国立研究開発法人国立成育医療研究センター 周産期・母性診療センター	センター長
	金森 豊	国立研究開発法人国立成育医療研究センター 小児外科系専門診療部外科	診療部長
	丸山 秀彦	国立研究開発法人国立成育医療研究センター周産期・母性診療センター 新生児科	医長
	米田 康太	国立研究開発法人国立成育医療研究センター周産期・母性診療センター 新生児科	医師
	諫山 哲哉	国立研究開発法人国立成育医療研究センター周産期・母性診療センター 新生児科	診療部長
	小林 徹	国立研究開発法人国立成育医療研究センター 臨床研究センターデータサイエンス部門	部門長
	桐野 浩輔	国立研究開発法人国立成育医療研究センター 臨床研究センターデータサイエンス部門	データサイエンス専門職
	豊島 勝昭	地方独立行政法人神奈川県立病院機構神奈川県立こども医療センター 新生児科	部長
	勝又 薫	地方独立行政法人神奈川県立病院機構神奈川県立こども医療センター 新生児科	医長
	斎藤 朋子	地方独立行政法人神奈川県立病院機構神奈川県立こども医療センター 新生児科	医長
	青木 宏論	地方独立行政法人神奈川県立病院機構神奈川県立こども医療センター 新生児科	研究員
	川瀧 元良	地方独立行政法人神奈川県立病院機構神奈川県立こども医療センター 新生児科	非常勤医師
	矢本 真也	静岡県立こども病院 小児外科	医長
	浅沼 賀洋	静岡県立こども病院 新生児科	医長
	児玉 洋平	静岡県立こども病院 新生児科	副医長
	伊藤 美春	名古屋大学大学院医学研究科小児科学	特任助教
	佐藤 義朗	名古屋大学医学部附属病院 総合周産期母子医療センター新生児部門	講師(7月1日より 病院准教授)
	三浦 良介	名古屋大学医学部附属病院 総合周産期母子医療センター新生児部門	病院助教(7月1日より 助教)
	谷口 顕信	名古屋大学医学部附属病院 総合周産期母子医療センター新生児部門	病院助教
	鈴木 俊彦	名古屋大学医学部附属病院 総合周産期母子医療センター新生児部門	医員
	金 聖和	京都府立医科大学 小児外科	助教
	稲村 昇	近畿大学医学部 小児科学教室	准教授
	小池 勇樹	三重大学病院 小児外科	講師
	横井 暁子	兵庫県立こども病院 小児外科	部長
	清水 義之	地方独立行政法人大阪府立病院機構大阪母子医療センター 集中治療科	副部長
	望月 成隆	地方独立行政法人大阪府立病院機構大阪母子医療センター 新生児科	副部長
	今西 洋介	地方独立行政法人大阪府立病院機構大阪母子医療センター 新生児科	医長
	石井陽一郎	地方独立行政法人大阪府立病院機構大阪母子医療センター 小児循環器科	副部長
	梅田 聡	地方独立行政法人大阪府立病院機構大阪母子医療センター 小児外科	医長
	白石 真之	大阪大学理学研究科研究協力係	図書職員
	遠藤 誠之	大阪大学大学院医学系研究科 生命育成看護科学講座	教授
	味村 和哉	大阪大学大学院医学系研究科 産婦人科	助教
	川西 陽子	大阪大学大学院医学系研究科 産婦人科	助教

藤井 誠	大阪大学大学院医学系研究科保健学専攻	准教授
田附 裕子	大阪大学大学院医学系研究科 小児成育外科	准教授
正嶋 和典	大阪大学大学院医学系研究科 小児成育外科	助教
荒堀 仁美	大阪大学大学院医学系研究科 小児科（新生児）	助教
石井 良	大阪大学大学院医学系研究科 小児科学	助教
永田 弾	九州大学大学院医学研究院 成長発達医学分野（小児循環器）	講師
井上晋介	九州大学大学院医学研究院 成長発達医学分野（新生児）	助教講師
河野 淳	九州大学病院救命救急センター	助教
近藤 琢也	九州大学大学院医学研究院 共同研究部門	助教

令和3年度厚生労働科学研究費補助金

【難治性疾患等克服研究事業（難治性疾患克服研究事業）】

「呼吸器系先天異常疾患の診療体制構築とデータベースおよび診療ガイドラインに基づいた医療水準向上に関する研究」

令和4年度 第1回 先天性横隔膜ヘルニア研究グループ web会議 議事録（案）

日 程：令和4年7月6日 18:00～20:00（2時間）（最大延長 2.5時間）

CiscoWebExミーティング番号：2516 441 3871

ミーティングパスワード：Jz7P9vPpbR3

参加者：金、白石、矢崎、梅田、石井（陽）、山本、小林、神保、清水、永田（弾）、丸山、奥山、荒堀、甘利、三浦、正畠、藤井、佐藤（泰）、左合、米田、井上、永田（公）、田附、照井、豊島、伊藤、臼井、桐野、稲村、今西、石井（良）、味村、佐藤（義）、矢本、谷口、河野、勝又、近藤、鈴木、岡崎

【議題】

司会 永田公二

18:00 ー開始予定ー

I. 開会のご挨拶（5分）

臼井規朗先生

・臼井先生より開会の御挨拶を頂いた。

II. 名簿・前回議事録の確認（資料）（5分）

永田公二

・前回議事録に関してはご意見なく、承認された。

III. CDH 診療ガイドライン改定終了（5分）

照井慶太先生

・修正 Delphi 法で web 会議を活用してガイドライン改訂を行った。ガイドライン作成に関わっていただいた先生方に深謝申し上げます。

・ガイドラインの各 CQ について論文化を検討中。長期予後について矢本先生が論文化した。CQ11 は論文化を検討。CQ12 は味村先生が投稿準備中。他にも正畠先生、照井先生が日本小児外科学会でガイドラインについて発表した。CQ13 は最終確認中。ガイドライン改訂版の英文化は、伊藤先生が手挙げされた。

・5年毎に改訂していくとすれば、2024年には準備を始めるか検討。FETOの適応は議論がある。日本ではFETOを26例に施行して50%くらいの生存率。FETOの適応、時期、抜去時期（施設）、デバイスの問題、先進医療へ持っていくか？検討が必要。

IV. 患者会設立支援・アンケート調査結果（5分）

近藤琢也先生

・患者アンケート調査を行った。患者さんの声としては疾患情報や治療情報が欲しいという声が多かった。認知度が低いという事がわかった。患者さんへパンフレットをお配りしている施設も半数程度あった。パンフレットを希望される方は永田または寺川代表へご連絡頂く。

V. 現在進行中の JCDHSG の研究（資料 2）（10分）

永田公二

- ・米田先生の予後予測論文は Pediatric Pulmonology へ提出中で Major review で帰ってきた。
- ・丸山先生は ED tube の論文を検討中。岡崎先生、矢本先生は不在。今西先生は LBW の論文を Neonatology への投稿を検討中。
- ・正畠先生（気胸）、田附先生（胸郭変形）、永田（治療標準化）、近藤先生（sac）は追加なし。河野先生は PSI JSPS Issue で受理されている。石井先生（心疾患）は照井先生からデータをもらう。
- ・欠損孔予測は CDH International Symposium で発表。胎児 MRI は未定。
- ・解析テーマについては今後も手挙げ式で随時募集中。

VI. CRF 改訂・データ削除・新規データ追加 (10 分) 照井慶太先生

・ REDCap データ登録は 1124 例のデータが集積されている。随時データクリーニングを実施していく。年間 70-80 例の CDH 症例が登録されている。入力項目変更がある。必須入力項目と入力不要項目がある。心機能評価の入力項目については心機能分科会で検討して頂く。

VII. 国際共同研究進捗と倫理審査 (10 分) 永田公二

・米国との国際共同研究を開始して米国のデータも頂いたが、DUA 契約が切れていた。以前は、1対1の施設対応で倫理審査と DUA 契約を通していたが、今後は多機関共同研究で九大を親施設として倫理審査を通す予定。論文を書く際には自施設で倫理審査を行う施設もある。今後、永田から多機関共同研究の案内を皆様へメールで連絡する。

VIII. 循環器分科会報告 (10 分) 稲村 昇先生

小児循環器科医、新生児科医を中心に心機能に特化した臨床研究を計画している。簡便でどこでも出来る研究（四腔断面で両心房・心室の評価）と Speckle tracking 法や 3D エコー法などのハイスpekクな研究を考えている。将来的には検査を標準化して REDCap 登録の更新を視野に入れている。測定のコマンドは現行のコマンドで行う予定である。稲村先生にエコー動画を送って解析して頂く事も考えている。

IX. 長期予後分科会報告 (10 分) 永田公二

長期予後に関しては、発達障害、ASD、ADHD などの検査自体に様々な検査があり、統一されていない。臨床心理士のマンパワー不足もある。まずは標準検査項目（1.5 歳、3 歳、6 歳）の入力から導き出されるデータの検討を行う。

X. CDH Database と DPC linkage 研究 (10 分) 小林 徹先生

小林先生に AMED 小林班の概要（基盤的な周産期関連リンケージデータベース構築）について、説明して頂いた。DPC データと CDH 研究データをリンクする予定で成育、大阪母子、千葉からデータを収集し、九大も追加予定。DPC データ、医科レセプト、CDH データを連結する。暫定的結果として、DB 連結は可能、2015 年 4 月以降の縦断的追跡が可能。DPC の方が縦断的追跡が可能な可能性がある。データの一貫性について、誕生日、体重などはほぼ一致していた。医療内容の詳細

については薬剤使用状況に関してはDPCがやや正確。在宅医療については確認中。医療費について、1例あたり約600万円くらいかかっている可能性がある。FETOに関しては重症度を補正する必要があるが、FETOの費用対効果として、増分費用効果比(ICER)を算出する事で治療効果を医療費の差として検出する事が出来る可能性もある。簡単ではないため専門家に入って頂く必要がある。

まとめると、本研究は、1)医療ビッグデータを研究利用可能、2)遠隔期におけるレアアウトカムの把握に有用、3)医療経済評価という政策研究の「武器」が増える可能性がある。今後、遠隔期データや患者レポートアウトカム、施設間移動の際のデータ抽出などに利用できる可能性がある。将来的には、周産期データベースと連結して、母体情報との連結やCDH重症度や合併症との相関を加味した医療費を検証していくための有用なデータになる可能性がある。

XI. 現在進行中の研究計画のプレゼンテーション(議論含む:10分×7)

□ED tubeに関する研究について 丸山秀彦先生

→論文は6/5にコメントを貰い、修正されている。

□肺動脈径とCDHの予後 岡崎任晴先生

→データは揃った。論文にして投稿予定。

□早産児におけるCDHの短期予後 今西洋介先生

□心形態評価 矢本真也先生

→「長期予後」についてChildrenに投稿し受理された。心形態評価については、今後検討する。

□Japan Protocol 永田公二

→日小外でprotocol前後の治療・予後について比較した。この結果はprotocol論文という形で報告する。今後のAMED研究は標準化前に同じ治療をした施設と後に治療を変更した施設があるので、生物統計家の先生を交えて解析デザインを詰めて前向き研究として出すと良いのではないかとのご意見を頂いた。

□長期合併症 田附裕子先生

→6歳時のデータが揃ってきている。漏斗胸や胸郭非対称は主観的なデータであるため、項目の標準化をしていかなければならない。胸腔鏡とopenで重症度を揃えて出してはどうか?とのご意見を頂いた。

□心疾患合併CDHに関する検討 石井 良先生

→これから症例を収集していく予定。

XII. 開会のご挨拶(5分) 臼井規朗先生

→本研究グループは益々の発展が期待され、多くの論文が出るだろうとの激励を頂いた。奥山先生から6月3日(土)の日本小児外科学会について会告があった。海外からの招待演者、患者会の寺川先生の講演も予定されており、本研究グループへの協力要請があった。

20:30— 終了(文責:近藤、永田)

令和3年度厚生労働科学研究費補助金

【難治性疾患等克服研究事業（難治性疾患克服研究事業）】

「呼吸器系先天異常疾患の診療体制構築とデータベースおよび診療ガイドライン
に基づいた医療水準向上に関する研究」

令和4年度 第2回 先天性横隔膜ヘルニア研究グループ web会議

日 程：令和5年2月10日 19:00～21:00(2時間) (最大延長2.5時間)

CiscoWebEx ミーティング番号（アクセスコード番号）：2516 421 3668

ミーティングパスワード：wWsPgpk8N63

参加者：臼井、奥山、照井、早川、山本、伊藤、甘利、矢本、稲村、鈴木、白石、豊島、
神保、青木、岡崎、井上、永田（弾）、今西、小林、清水、田附、梅田、丸谷、丸山、和
田、矢崎、勝又、佐藤、永田、近藤

【議題】

司会 永田公二

19:00 ー開始予定ー

- | | |
|-------------------------------------|--------|
| I. 開会のご挨拶 (5分) | 臼井規朗先生 |
| II. 前回議事録の確認・来年度メンバー(資料) (10分) | 永田公二 |
| 退会メンバー・新規メンバーからのご挨拶、Authorship | |
| III. JCDHSG データ整理、REDCap データ登録(10分) | 照井慶太先生 |
| IV. 今年度受理された論文紹介 (5分) | 近藤琢也 |
| V. 分科会報告 (20分) | 永田公二 |
| 国際共同研究(永田)、循環器分科会(稲村先生)、長期予後(豊島先生) | |
| VI. 本邦におけるFETOの適応参加施設 (15分) | 和田誠司先生 |
| VII. 現在投稿中の JCDHSG 研究 | 永田公二 |
| 現在進行中の研究計画のプレゼンテーション (議論含む：5分×7) | |
| □ED tubeに関する研究について | 丸山秀彦先生 |
| □肺動脈径とCDHの予後 | 岡崎任晴先生 |
| □早産児におけるCDHの短期予後 | 今西洋介先生 |
| □心形態評価 | 矢本真也先生 |
| □Japan Protocol | 永田公二 |
| □長期合併症 | 田附裕子先生 |
| □心疾患合併CDHに関する検討 | 石井良先生 |
| VIII. 新規研究計画 (10分) | 永田公二 |
| □呼吸器(伊藤先生) □手術時期(矢本先生) | |
| IX. 患者会支援 (5分) | 永田公二 |
| X. 閉会のご挨拶 (5分) | 臼井規朗先生 |

21:00ー 終了予定

(計120分) 最大延長21:30まで

以下議事録

【議題】

司会 永田公二

I. 開会のご挨拶 (5分)

臼井先生より開会のご挨拶をいただき、第2回班会議が開会した。

II. 前回議事録の確認・来年度メンバー

(資料: 「0. 令和4年度 第1回 JCDH 研究グループ web 会議議事録」 「2-1. 【R4年→R5度 JCDHSG メンバー】」)

永田先生より次年度の研究班構成員の変更のご報告があった。

次期研究代表者の照井先生よりご挨拶。

早川先生、山本先生、甘利先生、白石先生よりご挨拶。後に伊藤先生、佐藤先生よりご挨拶があった。施設代表者の変更についても報告された。

○Authorship に関して (別途資料あり)

研究班名は、英名 “Japanese CDH Study Group”、和名「日本先天性横隔膜ヘルニア研究グループ」で統一することが確認された。各研究内容に応じて、筆頭著者と共著者の人数に関して、報告あり (別途資料有) 国際共同は Matt、Ashley、CDHSG 1名の計3名を追加する。

○共著者のルールに関して

・論文作成時期により代表者が交代の可能性があり、論文作成者の意思による共著者追加を全てのもので認めてもいいのではないかと

→あくまでも基本はこのルールで、原則に外れるが論文作成への contribution を考慮して追加する場合は、個別で審議することで対応する。

・共著者の人数制限がある雑誌は少ないのでは?

→雑誌により共著者人数制限があることもあり、このルールで行う。

○投稿前の高覧のルールに関して

校閲は共著者だけでよいのではないかとする意見もあるが、様々な意見を出してもらえるとメリットもあり。

→資料内の条件で問題なし

○多機関共同研究について永田先生より報告

(資料: 2-2. JCDHSG の多機関共同研究について)

多機関共同研究 (分科会) を立ち上げる際に必要な倫理審査の手続きに関して報告がされた。分科会立ち上げの際には、分科会の親施設が資料の流れに従って手続きを進める必要がある。

III. JCDHSG データ整理、REDCap データ登録

(資料: 20230210 班会議資料 REDCap)

照井先生よりご報告があった。

2021年分まで終了し、1124例使用できる。2021年の集計報告、年間で87例であった。施設ごとのデータを要する際には照井先生に依頼することで提供可能。

初期登録はシンプルに、分科会施設が詳細データを収集することが、負担軽減の案と考えている。

IV. 今年度受理された論文紹介

(資料：3. JCDHSG の業績 (2022))

永田先生より、今年度受理された4論文の報告、紹介がなされた。照井先生より、論文追加を指摘され、計5論文が2022年に accept された。

V. 分科会報告

○国際共同研究

阪大と九大で一つずつ担当。阪大の正畠先生の論文は既にできているため共著者、投稿誌については個別に議論する。

Sacの研究は、日小外学会で報告した後にJSPS Japan Issueへの投稿を考慮している。Tim Jancelewicz先生がsacの研究に参加され、出生前診断されたCDHのsacに関して検討をされている。

○循環器分科会

稲村先生よりご報告。多機関共同研究で倫理委員会の承認済。手続きを進める。2月中にキックオフミーティング、早ければ4月から研究開始。4腔断面を撮影して送付。内容を稲村先生・豊島先生で解析して、各施設にお返しする予定。Outcomeを生死のみにしても200例程度必要になる。豊島先生より補足。動画が撮影できれば良いので、4腔提出はどの施設でもできる。3D撮影に関しては技術が必要。

○長期予後

豊島先生よりご報告。前向き研究の方向性を検討するための研究と位置づけている。フォロー率40%以上の施設、2010~2016の症例で検討。DQ70未満の遅滞症例のみでは数が少なくなる。DQ85で切って検討予定。

○DPC linkage

来年度以降に進捗を伺う。

VI. 本邦におけるFETOの適応参加施設

和田先生より胎児治療学会の報告内容からFETOに関する報告がなされた。FETOの適応、日本で施行したFETO26例のまとめ、今後の課題について議論した。日本で成育以外でFETOをするとすれば、症例数的に3-4施設だろう。現在は、適応症例(o/eLHR25%以下)であれば成育でFETO可能。保健は未収載。収載するためには、まず先進医療にする必要あり。費用は麻酔・入院費。手技料なし。一部研究費から費用を賄っている。FETOに期待して治療を行った家族は、期待も大きい。出生後治療におけるECMOの使用について、FETOとセットで考えていく必要があるとの意見あり。FETOで肺が大きくなる症例とならない症例の違いに関しては、現時点では不明。o/eLHR15%未満の症例の予後は厳しい。適応症例が少ない現状と、測定者・測定施設間のo/eLHRの評価差は大きい。機器による差も大きい。FETOの症例における、RNA計測で予測できるとした報告もあり、そもそも発生が違うのではないか。将来的にFETO適応の判断に使えるかもしれ

ない。成育医療センターから施設やメンバーについてお声掛けいただき、後日、FETOに関するミーティングを別途行うこととなった。

VII. 現在投稿中の JCDHSG 研究

現在進行中の研究計画のプレゼンテーション

□ED tube に関する研究について 丸山秀彦先生

JPS 投稿中。Revise 作成中。

□肺動脈径と CDH の予後 岡崎任晴先生

Neonatology→Reject。 J Perinatology 投稿中。

□早産児における CDH の短期予後 今西洋介先生

早産の検討。Arch. Dis. Child. →Reject 他の論文へ投稿中。

□心形態評価 矢本真也先生

周産期新生児学会に発表。追加データ含めて検討した。

今回の発表後に論文化予定。

□Japan Protocol 永田公二

記述論文で作成。PI に向けて準備。

□長期合併症 田附裕子先生

胸郭変形の中では、漏斗胸が最多で、側弯が続く。手術症例は 8 例と少ない。

□心疾患合併 CDH に関する検討 石井 良先生

来年度以降に進捗を伺う。

VII. 新規研究計画

□呼吸器（伊藤先生）

HF0 の検討。2017-2021 247 例。背景は有意差なし。人工呼吸期間や NO 使用期間などで有意差あり。Best OI に関しては HF0 と CMV では MAP が同じではないので検討が必要。

HF0-CMV スイッチの症例に関してもどのような状況でスイッチがおこったかはわからないため、これらについては理論武装が必要。今後、項目の調整や調整因子の検討については、大藤先生に相談する予定。

□胸腔鏡手術と再発の関連性（矢本先生）

欠損孔サイズなどの通常検討する項目では有意差は確認している。再発形式も盛り込みたいと考えており、必要に応じて追加データを収集したい。

VIII. 患者会支援（5分） 永田公二

寺川先生より合併症ハンドブックの校閲依頼が来ている。来年度は、日本小児外科学会に寺川先生ご参加予定。患者会雑誌「こもれび」への寄稿依頼が来る際にはご協力をお願いした。

X. 閉会のご挨拶

臼井先生より閉会のご挨拶があり、閉会となった。

（文責：近藤、永田）

先天性横隔膜ヘルニア研究グループ 第1回心機能研究会議議事録

2022年1月5日18時～

1. 心機能研究に関するこれまでの経過解説 稲村 昇
JCDHSGにおける心機能評価の経緯と今後の心機能研究に関する概要を解説した。
2. CDHの心機能評価 石井 良
CDHの心機能と予後について文献的考察をもとに概説した。
3. CDHの右室機能評価 豊島勝彦
検者間の格差がないような簡便な指標設定とスペックルトラッキングの有用性、スト
レイン測定の有用性について自験例をもとに解説した。
4. 今後研究班で必要な研究に関する提言
今後、研究班の中でどのような研究が可能か議論した。
5. その他

(文責 稲村)

先天性横隔膜ヘルニア研究グループ 第2回心機能研究会議議事録

2022年3月31日18時～

出席者 稲村 豊島 石井 永田(弾) 早川 伊藤 甘利 勝又 永田(公)

審議内容

1. 米国 CDHSG の左右室サイズ、左右心室機能の評価方法について
1, 正常 | 2, 異常 | 3, 不明といった評価ではなく基準値が必要
これまで報告されている左右室サイズについて文献検索を行って使用できるものがある
れば使用する
左右室サイズについて使用できる既存の研究が無ければ正常値を作成する
2. 現状での左右心臓機能の評価方法について報告があった
左右心臓機能は現状ではスペックルトラッキング法、組織ドプラ法などがあるが真新しい
ものは少ない
3次元ドプラ法により心室容積に関しては新しい方法である
3. 研究の進め方について
エコー機種が同じ施設で行う方が良い
検者間格差を少なくする工夫が必要 計測方法の講習
画像を転送し解析者を絞る
臨床に役立つ研究が必要

肺低形成と心室のサイズ
 手術のタイミングと心臓機能
 術後の心機能がどのように完全しているのか
 血管拡張薬の前後の心臓機能

研究の内容については意見をまとめることはできなかったが、心臓機能の研究はスペックル
 トラッキング法、組織ドプラ法、3次元ドプラ法が良いのではないかと
 次回の会議までに以下の事をメールでやり取りし解決する

1. これまで報告されている左右室サイズについて文献検索
2. 臨床に役立つ研究デザイン

メールでの検討を繰り返し、次回開催日を決定する。

(文責 稲村)

先天性横隔膜ヘルニア研究グループ 第3回心臓機能研究会議議事録

2022年6月23日18時～

出席者 稲村 豊島 石井 永田(弾) 早川 伊藤 甘利 勝又 永田(公)

審議内容

1. 照井先生、永田(公)先生から研究の目的について説明があった。
 現在CDHで解明されていない点(肺胞、肺血管、心臓機能)への多施設での共同研究が望まれている。
2. 豊島先生からCDH心臓機能評価に関するアンケート報告があった。
 新生児科医が心エコー検査を行っている施設が最も多く、どの施設でも計測しているのはLVDD(Mモード)とRとPDAの血流方向であった。ストレインなどやるには機種ベンダー間の違いが問題になりそう。
 3Dエコーでの評価が可能な施設は、神奈川、九大、名大の3施設であった。
3. 稲村からRed CAPを使用する研究方法について紹介があった。
 4CVの形状計測であるが、大きな反対意見は無かった。
4. 研究の進め方について
 稲村提案の形状計測と豊島先生提案の3D計測の2つを中心に考える。
 稲村案は全施設、豊島案は神奈川、九大、名大から始める
 各案の研究計画書を作り、多機関共同研究で進める。
5. その他
 検者間格差を少なくする工夫が必要 計測方法の講習
 現状のRed CAPで不要な項目の削除臨床に役立つ研究が必要

次回 8 月開催までに研究計画書を仕上げる。

文責 稲村

先天性横隔膜ヘルニア研究グループ 第 4 回心機能研究会議議事録

2022 年 7 月 6 日 18 時～

1. 現在 CDH で解明されていない点（肺胞、肺血管、心機能）への多施設での共同研究が望まれている。
臨床に役立つ研究デザイン
2. 現状での左右心臓機能の評価方法について報告があった
左右心臓機能は現状ではスペックルトラッキング法、組織ドプラ法などがあるが真新しいものは少ない
3 次元ドプラ法により心室容積に関しては新しい方法である
心機能評価の論文は単施設が多く、主要評価項目も生命予後に関するものがほとんど
3. CDH の心エコーの現状調査
新生児科医が心エコー検査を行っている施設が最も多く、どの施設でも計測しているのは LVDD(M モード)と R と PDA の血流方向であった。ストレインなどやるには機種ベンダー間の違いが問題になりそう。
3D エコーでの評価が可能な施設は、神奈川、九大、名大の 3 施設であった。
4. 研究の進め方について
最新の心機能評価
エコー機種が同じ施設で行う方が良い
豊島先生提案の 3D 計測を測定可能な施設で行う
臨床に役立つ研究
稲村案（4 CV を中心とした左右心房・心室の形態）と CQ との比較

各案の研究計画書を作り、多機関共同研究で進める。
検者間格差を少なくする工夫が必要 計測方法の講習
画像を転送し解析者を絞
5. Red Cap の入力項目の再検討

文責 稲村

区分	<input checked="" type="checkbox"/> 臨床研究 (<input type="checkbox"/> 遺伝子解析等)-4
	<input type="checkbox"/> 治験 (遺伝子) <input type="checkbox"/> その他

西暦 2023年 1月 17日

審査結果通知書

研究責任者 丸谷 怜 殿

近畿大学医学部倫理委員会
大阪府大阪狭山市大野東377-2

倫理委員会委員長 光富 徹哉
[押印省略]

審査依頼のあった件についての審査結果を下記のとおり通知いたします。

記

受付番号	R04-210
研究課題名	新生児横隔膜ヘルニアの循環管理に役立つ心performanceに関する多機関共同研究
審査事項 (審査資料)	<input checked="" type="checkbox"/> 臨床研究の実施の適否 (新規審査申請書 (様式1)) <input type="checkbox"/> 臨床研究に関する変更 (変更申請書 (様式4)) <input type="checkbox"/> 継続審査 (実施状況 (進捗) 報告書 (様式5)) <input type="checkbox"/> 安全性情報 (安全性情報等に関する報告書 (様式7)) <input type="checkbox"/> 重篤な有害事象等 <input type="checkbox"/> 重篤な有害事象に関する報告書 (様式8) <input type="checkbox"/> 予期できない重篤な有害事象報告 (様式9) <input type="checkbox"/> 臨床研究実施計画書からの逸脱 <input type="checkbox"/> 緊急の危険を回避するための臨床研究実施計画書からの逸脱に関する報告書 (様式10) <input type="checkbox"/> 研究計画書からの重大な逸脱 (緊急の危険回避の場合を除く)に関する報告書 (様式11) <input type="checkbox"/> その他 ()
審査区分	<input type="checkbox"/> 委員会審査 (審査日: 西暦 年 月 日) <input checked="" type="checkbox"/> 迅速審査 (一括審査) <input type="checkbox"/> 届出 (研究代表機関による一括審査済み)
審査結果	<input checked="" type="checkbox"/> 承認 <input type="checkbox"/> 変更の勧告 <input type="checkbox"/> 不承認 <input type="checkbox"/> 届出を受理 <input type="checkbox"/> 既承認事項の取消 (臨床研究等の中止又は中断を含む)
「承認」以外の 場合の理由等	
備考	

西暦 2023年 1月 18日

研究責任者 丸谷 怜 殿

依頼のあった臨床研究に関する審査事項について、上記のとおり決定しましたので実施を許可いたします。

近畿大学医学部長

松村 到



区分	■臨床研究（□遺伝子解析含む） ⁴
	□治験（遺伝子） □その他

西暦 2023年 1月 17日

倫理審査委員会委員出欠リスト

氏名	職業、資格及び所属	委員区分	出欠	男女	備考
光富 徹哉	近畿大学病院 Kindai Hospital Global Research Alliance Center (KHGRAC) センター長 特任 教授	A ④	○	男	委員長
西尾 和人	近畿大学医学部ゲノム生物学 教授	A ④	×	男	副委員長
梶 博史	近畿大学医学部再生機能医学 教授	A ④	×	男	委員
奥村 二郎	近畿大学医学部環境医学・行動科学 教授	A ④	×	男	委員
菰池 佳史	近畿大学医学部外科学（乳腺分泌外科部門） 教授	A ④	×	男	委員
中川 和彦	近畿大学医学部内科学（腫瘍内科部門） 教授	A ④	×	男	委員
吉村 一宏	近畿大学医学部泌尿器科学 教授	A ④	×	男	委員
土屋 孝次	近畿大学法学部 教授	B D ②③	×	男	委員
林 真貴子	近畿大学法学部 教授	B D ②③	×	女	委員
加藤 容子	近畿大学農学部 教授	A D ②③	×	女	委員
西郷 和真	近畿大学病院（遺伝子診療部） 准教授	A ④	×	男	委員
川井 太加子	桃山学院大学社会学部 教授	C D ①②③	×	女	委員
福岡 正博	和泉市立総合医療センター 名誉総長	A D ②③	×	男	委員

注）委員区分については以下の（A）～（D）および（①）～（④）の区分により英語と番号で記載する。

- （A）医学・医療の専門家等、自然科学の有識者
- （B）倫理学・法律学の専門家等、人文・社会学の有識者
- （C）研究対象者の観点も含めて一般の立場から意見を述べることができる者
- （D）倫理審査委員会の設置者の所属機関に所属しない者が複数含まれていること
- ※上記A～Dは人を対象とする生命科学・医学系研究に関する倫理指針に基づく
- （①）非専門委員
- （②）実施医療機関と利害関係を有しない委員（①に定める委員を除く）
- （③）臨床研究審査委員会の設置者と利害関係を有しない委員（①に定める委員を除く）
- （④）①～③以外の委員
- ※上記①～④はGCP省令に基づく

出欠については以下の区分により記号で記載する。

- （出席し、かつ当該臨床研究に関与しない委員）
- －（出席したが、当該臨床研究に関与するため審議及び採決に不参加の委員）
- ×

本倫理委員会は、倫理委員会の標準業務手順書及び「人を対象とする生命科学・医学系研究に関する倫理指針」（令和3年3月23日 文部科学省・厚生労働・経済産業省）に従って組織され、活動していることを確認し、保証いたします。

【R04-210】「新生児横隔膜ヘルニアの循環管理に役立つ心performanceに関する多機関共同研究」

別紙：一括審査対象の共同研究機関一覧

No.	研究機関	研究責任者
1	九州大学	永田 公二
2	慶應義塾大学	佐藤 泰憲
3	国立成育医療研究センター	甘利 昭一郎
4	神奈川県立こども医療センター	豊島 勝昭
5	千葉大学医学部附属病院	奥主 健太郎
6	大阪大学	石井 良
7	大阪母子医療センター	石井 陽一郎
8	名古屋大学医学部附属病院	早川 昌弘

(2023年1月17日現在)

以上

令和2年度厚生労働科学研究費補助金
【難治性疾患等克服研究事業（難治性疾患克服研究事業）】
「呼吸器系先天異常疾患の診療体制構築とデータベースおよび診療ガイドライン
に基づいた医療水準向上に関する研究」
令和2年度 第1回 先天性横隔膜ヘルニア研究グループ分科会(長期予後)web会議

日 程 : 令和3年1月12日 18:00~19:00 (水) (最大延長 19:30 まで)

参加予定者: 甘利昭一郎、豊島勝昭、伊藤美春、早川昌弘、今西洋介、荒堀仁美、井上普介、
永田公二

【議題】	司会 永田公二
18:00-	
I. 開会の挨拶 (3分)	永田公二
II. 長期予後に関する JCDHSG の現状とレビュー (10分)	永田公二
III. 各施設の現状と問題点 (5分×6施設)	成育: 甘利先生 神奈川こども: 豊島先生 名古屋: 伊藤先生 阪大: 荒堀先生 大阪母子: 今西先生 九州大学: 井上先生
IV. 今後のフォローアップ計画・他施設共同研究計画(10分)	永田公二
V. 担当者手挙げ (5分)	永田公二
VI. 閉会の御挨拶(2分)	名古屋: 早川昌弘先生

19:00- 終了予定
(計60分) 最大延長 19:30 まで

【議事録】

18:00-

I. 開会の挨拶 (3分)	永田公二
II. 長期予後に関する JCDHSG の現状とレビュー (10分)	永田公二

CDH診療ガイドラインのCQ10には複数の診療科におけるフォローアップがすすめられているものの、JCDHSGでは6施設しかなく統一されたものはない。世界的にもfollow-upプロトコールがある施設は全体のは約20%程度にとどまる。小学校に入学する時期にECMOを使用した症例の神経学的予後をみた報告が多い。日本においても小学校入学時期に決められた検査で他施設共同研究をおこなう方針にしていきたい。現在の各施設の年齢、発達検査法についてまとめてみた。

III. 各施設の現状と問題点 (5分×6施設)	
--------------------------	--

名古屋：早川先生、伊藤先生

フォローアップは小児科と小児外科と一緒にやっている。3名でフォローしている。

1.5, 3, 6歳はフォローアップ研究会で決められたものなので皆合意できると思う。神経学的所見や身体的発達をフォローしたい。研究のフォローアップとともに診療の質をきちんと担保することは重要。心臓や腎臓は小学校から生活管理表があるが、肺はない。呼吸器のフォローアップにおける注意書きが作られれば非常に良い。発達障害のある子を事前に pick up して療育につなげるような体制が出来れば良い。

九大：井上先生

発達検査枠、臨床心理士のマンパワーにより、現状は枠がいっぱいの状態。他診療科や疾患グループで共通認識を構築して抜けがないように検査をしていく必要がある。療育施設へ行く患者さんには療育施設で発達検査をするように言っているがきっちりと時期や検査を決めて行うのであれば九大で検査する事は可能。

成育：甘利先生

あまり他の施設大差はないが新生児科は3歳までで終わる事が多い。3歳以降は外科がフォローする事が多かったが最近では前向きでデータを追いかけて始めた。結果説明をするために後日入院してもらっているのも他の受診日と併診にしているが、来院回数が増える事を煩わしく思う家族もいる。M-CHAT は実施可能。AQ, ADI-R, Vineland-II, PARSTR, ADHD-RS は可能だが2枠。Conners は保険算定出来ない。ADOS-2 は医師ならできる。

千葉大学：照井先生

千葉大学病院は、近隣に発達センターがあるため発達評価ができない。プロトコルを決めてする事は出来ていない。

府立母子：臼井先生

小児外科の患者さんは臼井先生がフォローしている。未熟児の発達プロトコルに小児外科（CDH、食道閉鎖、鎖肛）と循環器疾患を入れている。10M, 1.5歳, 3歳, 6歳が入る。6歳がK式になっている。治療に直結しない機能的検査はしていない。複数の診療科と一緒に診察する外来診療は難しい。

阪大：荒堀先生

フォローアップ医師は3名でフォローアッププロトコルはない。1.5歳まではフォローしているが、REDCDapが始まってからは長めにフォローしている。発達検査は2歳前後にM-CHAT、3歳でK式、以後は気になる子だけフォローしていた。半年から1年前に検査枠を確保している。循環器、呼吸器は各々の診療科でフォローしている。

神奈川こども：豊島先生

基本的には2013年頃から早産児と同じフォローアップをしている。発達検査は1.5, 3歳でK式, 6歳, 9歳でWISCを行っている。フォロー数は年間8人くらいで3人に1人は基礎疾患がある。心理士さんの負担にはなっていない。外科疾患の発達検査のフォローアップモデルとしてCDHを考えている。基礎疾患をみつけてそのフォローが必要。遅滞はあまりなくて境界領域をみつけるのが重要。小学校の高学年でトレッドミルで負荷検査をしているがCLDと比較して良い印象をもっている。学習支援を考慮して7-8歳で

ADHD、読み書きスクリーニングをして学習支援につなげている。Vineland は割と時間がかかるので大変だが、Barley の一環に入る可能性がある。療育では田中ビネーをする事が多い。フォローアップは検査後に支援する事が重要だと思うが、あまり項目を増やす事は良くないと思っている。臨床心理士さんへのフィードバックをしてチームとして機能するようにしたり、研究費で非常勤の方を雇用したりしている。新たな取り組みはしたいと考えている。家族への発達検査のフィードバックは、臨床心理士さんのコメントを用いたり、グレーゾーンの取り扱いをどうするか、名古屋では発達フォローを担当する部署がある。小児医療をしている人には学校までで社会的サービスが終わるため、その後の受け皿を社会的にも考えていく必要がある。

IV. 今後のフォローアップ計画・担当者手挙げ（5分）

1.5歳、3歳でK式、6歳でWISCが一般的かと思われた。施設の体制やチーム体制の構築が必要であり、今後も何回かテーマを決めて話合う必要がある。長期フォローの際の注意事項を作成できれば患者さんにとって有効かなと思うので、そのためのデータ整備が必要だと思う。新生児の先生がリードして頂ければと思うが、今のところCDHのフォローは永田が担当する。1年くらいかけて徐々にどのようなフォローアップを行い、体制を整備していくかを考えていく。

19:30— 終了

(分責: 永田)

令和2年度厚生労働科学研究費補助金
【難治性疾患等克服研究事業（難治性疾患克服研究事業）】
「呼吸器系先天異常疾患の診療体制構築とデータベースおよび診療ガイドライン
に基づいた医療水準向上に関する研究」
令和2年度 第2回 先天性横隔膜ヘルニア研究グループ分科会(長期予後)web会議

日 程 : 令和4年11月10日 19:00~20:00 (水) (最大延長 20:30 まで)
参加予定者: 青木宏諭、荒堀仁美、甘利昭一郎、伊藤美春、井上普介、今西洋介、臼井規朗、
奥山宏臣、近藤琢也、柴田優花、照井慶太、豊島勝昭、永田公二、早川昌弘

【議題】	司会 永田公二
19:00—	
I. 開会の挨拶 (3分)	永田公二
II. 前回議事録の確認 (3分)	永田公二
III. コンセプトシートについて	神奈川こども：豊島勝昭先生
IV. REDCap からみたフォローアップの現状	神奈川こども：豊島勝昭先生
V. 今後の方向性について	永田公二
VI. 閉会の御挨拶 (2分)	早川昌弘先生
20:00— 終了予定	
(計 60 分) 最大延長 20:30 まで	

【議事録】

出席者

豊島、早川、奥山、臼井、照井、伊藤、勝又、井上、柴田、荒堀、齋藤、永田、近藤

○前回会議の議事録の確認が行われた。

○フォローアップの現状報告

豊島先生より Redcap データの解析に関して、3歳時の発達検査 205名のデータ提示あり。

DQカットオフ 85: 出生体重、Apgar 1/5、入院期間、経管栄養、酸素、肺血管拡張薬で有意差あり

DQカットオフ 70: 右、入院期間、経管栄養、聴覚異常に有意差あり

項目別: 右、肝挙上なし、羊水過多なし、Terui 分類の重症で有意に低下

院内/院外出生、胃の位置では有意差なし

追加の項目として、SGA の割合、重症度との挿管、背景疾患などの追加が必要。

重症度に関しては、項目調整必要。

Best OI、Apgar score を含む Terui 分類(出生後重症度評価)で差が出ている点は、出生前の重症度予測因子とは別の因子が発達に影響する可能性があり、非常に興味深い。

Permissive hypercapnea の影響は？→CO₂ の値も考慮してはどうか。

神奈川単施設のデータでみても、必ずしも重症例の発達が悪いわけではない。

本研究は Terui 分類の論文の長期予後という発表としてもよいかもしれない。

重症度に関連しないという点からは、低酸素脳症、気管軟化などの影響を考慮する必要があるかもしれない。6歳時で発達が改善する例もあり、6歳時の発達検査で検討できるとよい。WISCで検討できる点でも世界的に通用しやすい。

ADHD スコアも調べたいが、項目が増えると欠損も増えるので、ある程度のところで見切りをつけ、今回は3歳時点のDQで検討。

○コンセプトシート

豊島先生よりコンセプトシートに関して説明。

Terui 分類に引き続く論文という体裁で作成している。

3歳時のフォローアップ率が低すぎると論文作成時に指摘されるため施設を絞り50%程度→さらに期間を2010-2016に絞り64%となった。64%は、既報の論文と比較しても遜色はない。

Geneticな問題が関係すると発達検査の意義が少なくなるため、isolatedで検討する予定。Non-isolatedは3歳までの予後が悪く、生存例では重症例が淘汰されてしまい、症例数不足の影響が強く出ため有意差がなくなる可能性がある。

複合アウトカムでの検討を予定していたが、意味があるか？発達遅滞に加え、死亡、視覚障害、聴覚障害、脳性麻痺の5項目を入れている。既報では発達検査、QOLスコアでの評価が多いが、複合アウトカムでの報告はないが、複合アウトカムを採用する必要があるか検討が必要。DQカットオフ値は85や70の論文がある。

先行研究で、関連が指摘されている項目での調整が必要。

①検討対象の症例に関して

- ・シンプルに検討するなら left-isolated を対象とする。

- ・6歳の発達検査結果がある症例ではどうか。

→社会経済的背景の情報が抜けていると英文誌へ投稿する際には指摘される可能性あり。その点を考慮して、あえて3歳までにして検討することも選択肢ではある。

- ・重症例のほうが、発達が悪くなる先入観なしで検討対象を選択する。

- ・発達に影響する変数の調整が必要（CLDの有無など新生児領域でリスクとされる因子）

- ・DQのカットオフ地は？→85とできるのが良い。

- ・教科書的には発達遅滞とならない染色体・遺伝子異常は除外するか？

→次回会議までに実際の症例数を見て検討。

②Outcomeの設定、検討の方法に関して

- ・早産・低出生体重児の論文では複合アウトカムにしている論文も多く、複合アウトカムのほうが結果は出やすい（有意差がつきやすい）。

- ・照井先生の検討では、死亡に加え長期入院を複合アウトカムとして検討して結果を出した。しかし、今回の発達の検討では、死亡は発達遅滞よりも重い（より重度の）結果であり、今回検討からは除外するべきではないか？臨床的にも家族への説明においても、「生存例の検討」という提示をする事は重要であろう。

- ・発達に関わる因子は、生命予後に関わる因子は違うことを示してもよいと思われる。

- ・海外と日本の治療成績、結果は異なることも示したい。（救命率も高い、発達もよいと出せるかも）。NO使用率、HF O使用率の関連も検討対象に含める。

- ・発達遅滞となるリスクモデルを作成し、その因子を検討することもできる。

→その場合、すべての症例を込み（右、遺伝子異常、合併症、重篤な合併症）で検討して、発達遅滞のリスク因子を探索する。

③想定される結果に関して

- ・フォローアップデータ提示からは、生命予後・重症度予測に用いられる項目が発達の予測にはならない可能性がある。
- ・基礎疾患を背景に持つ症例の方が、軽症 CDH という結果がありえる。未知の遺伝子異常による発達障害などもあり得る。
- ・新生児領域で発達に関連するといわれている項目（SGA、CLDの有無など）を考慮する必要がある。カナダの Richard Keizer の報告でも、CDH の重症度と QOL が関連しないとする Systematic Review の報告があった。
- ・おそらく日本の治療成績が良いという結果は出る事が予想されるため、背景で提示してもよいのではないかとという意見もあった。

④遺伝子検査に関して

- ・神奈川は BIRTHDAY(成育疾患克服等総合研究事業、慶応主導)で検査している。
- ・成育医療センターは自施設で CDH の遺伝子解析を行っている。
- ・大阪大学は症例を選んで IRUD (未診断疾患イニシアチブ) に提出することがある。
- ・いずれにしても、既知/未知の遺伝子異常指摘があることも多く、今後 CDH 研究班で行っていくかどうかなどは課題の一つ。
- ・網羅的遺伝子解析の導入や遺伝診療科の介入などを含め、発達予後と絡めて検討できるとなおよい。
- ・遺伝子検査の結果を知り、手術・治療を希望しないという家族も現れる可能性あり。
- ・遺伝カウンセリングとの協力必要で兄弟発症の症例を検討対象にしても良いだろうが倫理的配慮は必要で、今後の課題と考える。

○今後の方向性

- ・発達に関する risk model を作成する研究をメインとして、日本で治療を行った結果から CDH の長期予後を報告する研究を検討する事も出来る。
- ・現在のデータからデータクリーニングを進め、対象の限定、アウトカムの設定 (概ね DQ85 で二値化と決定)、変数の調整を後日メールで審議する。
- ・コンセプトシートに本日の内容を反映・更新し、次回会議に提出する。
- ・次回会議は年度内に開催予定とする。

(文責：近藤、永田)

倫理審査結果報告書

国立成育医療研究センター
理事長 殿

国立成育医療研究センター
倫理審査委員会 委員長

受付番号	2021-136
研究課題名	既存レジストリおよび医療データベースの統合による先天性横隔膜ヘルニア患者における臨床疫学・政策研究
研究責任者 (所属・氏名)	病院 臨床研究センター データサイエンス部門・小林 徹
審査事項	<input type="checkbox"/> 研究等の実施の適否 <input checked="" type="checkbox"/> 研究等継続の適否 <input type="checkbox"/> 重篤な有害事象 <input checked="" type="checkbox"/> 研究に関する変更 <input type="checkbox"/> 倫理的妥当性・科学的合理性を損なう事実報告 <input type="checkbox"/> 研究の実施の適正性・研究結果の信頼を損なう事実報告 <input type="checkbox"/> その他
審査区分	<input checked="" type="checkbox"/> 一般 <input type="checkbox"/> 迅速 <input type="checkbox"/> その他
審査日	西暦 2022年07月01日
審査結果*	<input checked="" type="checkbox"/> 承認 <input type="checkbox"/> 条件付承認 <input type="checkbox"/> 継続審査 <input type="checkbox"/> 非該当 <input type="checkbox"/> 不承認 <input type="checkbox"/> 研究継続 <input type="checkbox"/> 条件付研究継続 <input type="checkbox"/> 研究中止
指摘事項および理由・条件等*	回答書の提出の要否 [<input checked="" type="checkbox"/> 要 <input type="checkbox"/> 否]
備考	

* 「条件付承認」の場合、回答書（様式8）の提出「要」となった場合は、必ず対応すること。

西暦 2022年07月01日

倫理審査結果通知書

小林 徹 殿

貴殿から申請のあった審査事項について下記のとおり決定したので通知します。

国立成育医療研究センター 理事長

判定	<input checked="" type="checkbox"/> 承認 <input type="checkbox"/> 条件付承認 <input type="checkbox"/> 継続審査 <input type="checkbox"/> 非該当 <input type="checkbox"/> 不承認 <input type="checkbox"/> 研究継続 <input type="checkbox"/> 条件付研究継続 <input type="checkbox"/> 研究中止
備考	

Agreement ID: AGT008311

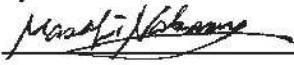

Data Transfer and Use Agreement (“Agreement”)	
Provider: National University Corporation Kyushu University	Recipient: The University of Texas Health Science Center at Houston
Provider Scientist Name: Koji Nagata Email: nagatakoji2@gmail.com	Recipient Scientist Name: Matthew T. Harting, M.D. Email: Matthew.T.Harting@uth.tmc.edu
Agreement Term Start Date: Date of last signature below End Date: Five (5) Years after the Start Date	Project Title: De-identified Database of Information on Congenital Diaphragmatic Hernia Attachment 2 Type: De-identified Data about Human Subjects
Terms and Conditions	
<ol style="list-style-type: none"> 1) Provider shall provide the data set described in Attachment 1 (the “Data”) to Recipient for the research purpose set forth in Attachment 1 (the “Project”). Provider shall retain ownership of any rights it may have in the Data, and Recipient shall not obtain any rights in the Data other than as set forth herein. 2) If applicable, reimbursement of any costs associated with the preparation, compilation, and transfer of the Data to the Recipient will be addressed in Attachment 1. 3) Recipient shall not use the Data except as authorized under this Agreement. The Data will be used solely to conduct the Project and solely by Recipient Scientist and Recipient’s faculty, employees, fellows, students, and agents (“Recipient Personnel”) and Collaborator Personnel (as defined in Attachment 3) that have a need to use, or provide a service in respect of, the Data in connection with the Project and whose obligations of use are consistent with the terms of this Agreement (collectively, “Authorized Persons”). 4) Except as authorized under this Agreement or otherwise required by law, Recipient agrees to retain control over the Data and shall not disclose, release, sell, rent, lease, loan, or otherwise grant access to the Data to any third party, except Authorized Persons, without the prior written consent of Provider. Recipient agrees to establish appropriate administrative, technical, and physical safeguards to prevent unauthorized use of or access to the Data and comply with any other special requirements relating to safeguarding of the Data as may be set forth in Attachment 2. 5) Recipient agrees to use the Data in compliance with all applicable laws, rules, and regulations, as well as all professional standards applicable to such Project and similar research. 6) Recipient is encouraged to make publicly available the results of the Project. Before Recipient submits a paper or abstract for publication or otherwise intends to publicly disclose information about the results of the Project, Provider will have thirty (30) days from receipt to review proposed manuscripts and ten (10) days from receipt to review proposed abstracts to ensure that the Data is appropriately protected. Provider may request in writing that the proposed publication or other disclosure be delayed for up to thirty (30) additional days as necessary to protect proprietary information. 	

Agreement ID: AGT008311

- 7) Recipient agrees to recognize the contribution of the Provider as the source of the Data in all written, visual, or oral public disclosures concerning Recipient's research using the Data, as appropriate in accordance with scholarly standards and any specific format that has been indicated in Attachment 1.
- 8) Unless terminated earlier in accordance with this section or extended via a modification in accordance with Section 13, this Agreement shall expire as of the End Date set forth above. Either party may terminate this Agreement with thirty (30) days written notice to the other party's Authorized Official as set forth below. Upon expiration or early termination of this Agreement, Recipient shall follow the disposition instructions provided in Attachment 1, provided however, that Recipient may retain one (1) copy of the Data to the extent necessary to comply with the records retention requirements under any law, and for the purposes of research integrity and verification to meet legal requirements.
- 9) Except as provided below or prohibited by law, any Data delivered pursuant to this Agreement is understood to be provided "AS IS." PROVIDER MAKES NO REPRESENTATIONS AND EXTENDS NO WARRANTIES OF ANY KIND, EITHER EXPRESSED OR IMPLIED. THERE ARE NO EXPRESS OR IMPLIED WARRANTIES OF MERCHANTABILITY OR FITNESS FOR A PARTICULAR PURPOSE, OR THAT THE USE OF THE DATA WILL NOT INFRINGE ANY PATENT, COPYRIGHT, TRADEMARK, OR OTHER PROPRIETARY RIGHTS. Notwithstanding, Provider, to the best of its knowledge and belief, has the right and authority to provide the Data to Recipient for use in the Project.
- 10) Except to the extent prohibited by law, Recipient assumes all liability for damages which may arise from its use, storage, disclosure, or disposal of the Data. The Provider will not be liable to the Recipient for any loss, claim, or demand made by Recipient, or made against Recipient by any third party, due to or arising from the use of the Data by Recipient, except to the extent permitted by law when caused by the gross negligence or willful misconduct of Provider. Except otherwise provided herein, no indemnification for any loss, claim, damage, or liability is intended or provided by either party under this Agreement.
- 11) Neither party shall use the other party's name, trademarks, or other logos in any publicity, advertising, or news release without the prior written approval of an authorized representative of that party. The parties agree that each party may disclose factual information regarding the existence and purpose of the relationship that is the subject of this Agreement for other purposes without written permission from the other party provided that any such statement shall accurately and appropriately describe the relationship of the parties and shall not in any manner imply endorsement by the other party whose name is being used.
- 12) Unless otherwise specified, this Agreement and the below listed Attachments embody the entire understanding between Provider and Recipient regarding the transfer of the Data to Recipient for the Project:
 - I. Attachment 1: Project Specific Information
 - II. Attachment 2: Data-specific Terms and Conditions
 - III. Attachment 3: Identification of Permitted Collaborators (if any)
- 13) The parties agree and understand that the data transferred under the previous agreement titled as FDP Data Transfer and Use Agreement dated on September 5, 2018 (hereinafter referred to as the "Previous Agreement") shall be treated as the Data defined under this Agreement, and the terms and conditions provided in this Agreement shall apply to the data transferred under the Previous Agreement.
- 14) No modification or waiver of this Agreement shall be valid unless in writing and executed by duly- authorized representatives of both parties.

Agreement ID: AGT008311

15) The undersigned Authorized Officials of Provider and Recipient expressly represent and affirm that the contents of any statements made herein are truthful and accurate and that they are duly authorized to sign this Agreement on behalf of their institution.

<p>By an Authorized Official of Provider:</p> <p> _____ <u>2022/8/12</u> Date</p> <p>Name: Masafumi Nakamura, MD., Ph.D Title: University Hospital Director <u>Contact Information for Formal Notices:</u> Name: Administration Department (University Hospital) Address: <u>3-1-1 Maidashi, Higashi-ku, Fukuoka</u> <u>812-8582, JAPAN</u></p> <p>Email: <u>byssien@jimu.kyushu-u.ac.jp</u> Phone: (092) 642-6031</p>	<p>By an Authorized Official of Recipient:</p> <p> _____ <u>8/16/2022</u> Date</p> <p><small>Digitally signed by Valerie Christine Bomben Date: 2022.08.16 21:58:31 +0500</small></p> <p>Name: Valerie Bomben Title: Director, Sponsored Contracts <u>Contact Information for Formal Notices:</u> Name: <u>Sponsored Projects Administration</u> Address: <u>7000 Fannin St.</u> <u>Houston, Texas 77030</u></p> <p>Email: <u>Preaward@uth.tmc.edu</u> Phone: (713) 500-3939</p>
---	--

Attachment 1
Data Transfer and Use Agreement
Project Specific Information

1. Description of Data:

De-identified database of information on Congenital Diaphragmatic Hernia.

2. Description of Project:

Contribution to the database of information on Congenital Diaphragmatic Hernia; a multi-institutional registry.

Evaluation of the data to determine patient outcomes and best practices.

3. Provider Support and Data Transmission:

Provider shall transmit the Data to Recipient: (select one) electronically or by mail to:

Name:	Matthew T. Harting, M.D.
Address:	N/A
Email:	Matthew.T.Harting@uth.tmc.edu
Phone:	(713) 500-7398

February 2019

Data Transfer and Use Agreement

AGT008311

Agreement ID:

Upon execution of this Agreement, Provider shall send any specific instructions necessary to complete the transfer of the Data to the contact person listed above, if not already included below in this section of Attachment 1.

- * Format of Data - Access database, data entry
- * Provision of Data dictionary
- * Availability of Provider to assist Recipient in understanding the Data structure (e.g. variables, code lists, etc.)
- * If/how Data will be revised and resent if errors are found by the Recipient - usually e-mail requesting clarification

4. Reimbursement of Costs:

None

As governed by a separate written agreement between the parties
Reimbursement Agreement Reference # (if required):

As set forth herein:

5. Disposition Requirements upon the termination or expiration of this Agreement:

Upon termination of this Agreement for any reason, including, but not limited to Recipient's decision to cease use of the Data, Recipient will continue to maintain Provider's Data in accordance with the all of the applicable laws.

Agreement ID: AGT008311

Attachment 2 Data Transfer and Use Agreement Data-specific Terms and Conditions: De-identified Data about Human Subjects
--

Additional Terms and Conditions:

1. The Data will not include personally identifiable information as defined in NIST Special Publication 800-122. If the Data being provided is coded, the Provider will not release, and the Recipient will not request, the key to the code.
2. If Provider is a Covered Entity, the Data will be de-identified data, as defined by the Health Insurance Portability and Accountability Act of 1996 ("HIPAA").
3. Recipient will not use the Data, either alone or in concert with any other information, to make any effort to identify or contact individuals who are or may be the sources of the Data without specific written approval from Provider and appropriate Institutional Review Board (IRB) approval, if required pursuant to 45 CFR 46. Should Recipient inadvertently receive identifiable information or otherwise identify a subject, Recipient shall promptly notify Provider and follow Provider's reasonable written instructions, which may include return or destruction of the identifiable information.
4. By signing this Agreement, Recipient provides assurance that relevant institutional policies and applicable federal, state, or local laws and regulations (if any) have been followed, including the completion of any IRB or ethics review or approval that may be required.
5. Recipient shall promptly report to Provider any use or disclosure of the Data not provided for by this Agreement of which it becomes aware.
6. Provider represents and warrants that it has obtained all permissions and necessary permissions, from each participating center, to transfer any de-identified data to Recipient.

Attachment 3
Data Transfer and Use Agreement
Identification of Permitted Collaborators (if any)

For all purposes of this Agreement, the definition of “Collaborator Personnel” checked below will pertain:

“Collaborator Personnel” means: None. No collaborators are permitted on the Project.

-OR-

“Collaborator Personnel” means as set forth below and agreed upon between the parties:

“Collaborator Personnel” means: faculty, employees, fellows, or students of an academic institution, which institution (i) has agreed to collaborate in the Project, (ii) has faculty, employees, fellows, or students who have a need to use or provide a service in respect of the Data in connection with its collaboration in the Project, and (iii) has been made aware of the terms of this Agreement and agreed to comply, and to cause its personnel to comply, with such terms.

REDCap による CDH 症例登録の進捗状況

2023/2/10 令和 4 年度 第 2 回班会議資料

1. 全登録症例数 (2023/1/31 現在)

年	n	デザイン		
2006	50	後方視	12 施設 283 例 2019/3/2 データ変換+追加入力	
2007	51			
2008	61			
2009	59			
2010	62			
2011	71		15 施設 754 例 2023/1 データ確定	
2012	81			
2013	67			
2014	84			
2015	74			
2016	69			
2017	86	前方視・Protocol 統一		
2018	71			
2019	76			
2020	75			
2021	87	入力項目改訂		
2022				入力中
総計	1,124			

2. 施設毎登録数 (2021 年)

施設	登録数
国立成育医療研究センター	17
名古屋大学	16
九州大学	11
大阪母子医療センター	10
神奈川県立こども医療センター	6
大阪大学	5
順天堂大学	5
千葉大学	5
兵庫県立こども病院	5

静岡県立こども病院	4
京都府立医大	2
筑波大学	1
三重大学	0
順天堂大学医学部附属浦安病院	0
近畿大学	0
総計	87

3. 登録数（2022 年）

施設	登録数
大阪大学	7
千葉大学	5
順天堂大学医学部附属浦安病院	2
京都府立医大	1
総計	16

（2023/1/31 現在） 入力締切 2023/3/3

4. 施設毎データ

- ✓ 施設毎データが必要な場合、随時お申し付けください。

文責：照井慶太