

厚生労働科学研究費補助金（がん対策推進総合研究事業）  
小児がん拠点病院等及び成人診療科との連携による  
長期フォローアップ体制の構築のための研究  
分担研究報告書

「小児がん拠点病院等及び成人診療科との連携による  
長期フォローアップ体制の構築のための研究」

研究分担者

加藤 実穂 国立成育医療研究センター 小児がんデータ管理科 医長

**研究要旨**

小児がん経験者(CCS)の実態を全国レベルで継続的に把握し、必要な情報を発信していくための中心となる長期フォローアップセンター事務局を運用するとともに、令和6年度に引き続き情報交換のインフラとなるオンライン CCS サポートシステム (EDC) の構築・改修を行い、また AWS 関連業務の外注化等によりその情報セキュリティ体制を鏡花した。この EDC を利用して TCCSG (東京小児がん研究グループ) コホート研究の登録実務、およびランゲルハンス細胞組織球症 (LCH) を対象とした長期フォローアップ研究の支援を前班から引き続き行っている。また、研究班で構築した全国規模の情報インフラを用いて収集した JCCG 大規模観察研究のデータを JCCG に提供するとともに、その一次調査の結果から今後開始する前向き長期フォローアップ研究について仮説形成を行い、研究計画書を作成した。令和7年度にはそのブラッシュアップを経て、前向き長期フォローアップ研究(動的な前向きレジストリー構築)を開始する予定である。その事前準備として、患者会の助言をもとに小児がん長期フォローアップ体制構築に関する事前調査を立案し、倫理審査の承認を得た。加えて、患者会主導の小児がん長期フォローアップに関する全国調査の支援を開始した。

本分担研究を通じて、引き続き恒久的かつ支援体制まで見据えた長期フォローアップ体制の確立を目指す。

**A. 研究目的**

国立成育医療研究センターに長期フォローアップセンターを設立して小児がん経験者 (CCS) 関連の情報を集約する体制と、そのための基盤となるオンラインネットワークを構築することを目的とす

る。これによって、本邦にも欧米同様の CCS のサポートシステムを構築し、将来の国際データ比較ならびに国際共同研究、情報収集や政策提言につなげて、患者還元に資することを目指す。

## B. 研究方法

国立成育医療研究センター内に長期フォローアップ関連のデータ収集及び発信のためのデータセンターを設立して業務を実施する。またこれと併行して、外部IT企業と協働し情報セキュリティ体制の強化や業務に関連した手順書等の作成、小児がん長期フォローアップデータベースに蓄積すべき収集項目の検討等を行う。さらにこれらの長期フォローアップ体制の構築に資する研究の支援を行う。

(倫理面への配慮)

長期フォローアップセンターにて情報の収集業務を担当する者には、国立成育医療研究センターにおいて、個人情報の取扱いにかかわる教育（院内・院外の講習会など）への参加を義務づけている。構築するオンラインネットワークについては、可能な限りのセキュリティ対策と本文中で述べるような個人情報管理体制を採用する。またこのシステムを用いて実施する長期フォローアップ関連の研究は、施設倫理委員会による承認を得ている。この他の面についても、国立成育医療研究センターの個人情報取り扱い規定を順守して情報管理を行う。

## C. 研究結果

### 1. TCCSG コホート研究の支援

国立成育医療研究センター小児がんセンター内に、長期フォローアップ関連の情報の収集あるいは発信することを目的として設立した長期フォローアップセンター事務局の業務として、長期フォローアップ体制運用のフィールドのモデルと

なる東京小児がん研究グループ(TCCSG)のコホート研究の支援（研究参加施設および研究参加者の登録実務）を継続して実施している。これには本分担研究で構築したオンラインシステム（EDC）を用いており、2025年3月31日時点で、14件の施設登録から167件（前年度+28件）の研究参加者登録があった。また、同枠組みにおける「2024秋の健康調査票」実施におけるEDC構築支援や入力督促等の事務局業務を行い、計75件の回答を得た。

### 2. LCH 長期フォローアップ研究の支援

同じく長期フォローアップセンター事務局と本分担研究で構築したEDCを用いて、長期フォローアップ体制運用の疾患モデルとなる日本小児がん研究グループ(JCCG)HLH/LCH委員会のランゲルハンス組織球症治療患者を対象とするフォローアップ研究LCH-12-LTFUのデータ管理も継続している。この研究ではCCS自らがオンライン上で臨床研究登録を行い、これに医療者が医学的情報を補足する形で個別データベースを作成する体制を実践していた。しかしながらCCSによる登録において、手続きの煩雑さや入力ミス等のため症例登録が滞り、参加施設やCCSへの情報提供の機会を増やす等の対策が講じられたものの、2025年3月31日時点の研究参加者登録は累計35件（前年度+6件）と明らかな改善はみられなかった。これを解決するために、令和7年度からは従来の臨床研究と同様に医療従事者によるデータ入力体制を導入するため、システムを改修するこ

ととした。

### 3. JCCG 大規模観察研究の支援

令和4年度に、JCCGでは1990年～2017年に本邦で小児がんと診断された症例を対象としたレジストリー構築および横断的研究を実施することとなり、そのための情報収集にも本分担研究の情報インフラが利用されることとなった。このために、令和5年度にデータ収集のための専用のEDCを構築し、JCCG執行部や全国の研究参加施設からそのコンセンサスを得たうえで登録を開始した。これにより、全国124施設669名の小児がん関係者から、計29047件（生存例23949件、死亡例5098件）のデータを収集した。その後、研究事務局とデータクリーニングの内容を取り決め、たうえで一次調査のデータクリーニングを実施し、二次調査の生データ、ePROの生データと併せてJCCGに全データの提供を完了した。

### 4. 情報セキュリティ体制の強化

前述のLCH-12-LTFUのデータ管理において、実名を含む個人情報と臨床情報を物理的に異なるサーバーにて管理している。このような個人情報の管理におけるサーバーの情報セキュリティレベルを強化するために、EDCのプラットフォームであるAWSの関連業務を予定通り外注化した。これと併せて、松本班としての小児がん長期フォローアップにおける同意取得のあり方と情報セキュリティにおける提言に関する論文を出版した（G.1.1参照）。また、これまでは情報セ

キュリティの観点から原則的に国内からのみEDCにアクセスできるよう制限していたが、今後の国際共同研究を実現するために、海外からのデータ入力用に独立したサーバーの構築に着手した。

### 5. 前向き長期フォローアップ研究の開始に向けて

今後は本分担研究で構築した情報インフラを用いて実際に全国規模で恒久的な長期フォローアップ情報を蓄積する研究を開始したいと考えている。前述のJCCG大規模観察研究における一次調査データの結果（G.2.2参照）をもとに、「認知機能検査が必要なCCSをいかに把握するか」というリサーチクエスチョンを掲げ、研究計画書を作成した。令和7年度には、研究班内にて計画書のブラッシュアップを図る。併せて、患者会と共同にてCCSを対象とした小児がん長期フォローアップ体制構築に関する事前調査を立案し、国立成育医療研究センター倫理審査委員会の承認を得た（課題番号：2024-189）。得られた回答をもとにEDCを改修し、令和7年度には上記の前向き観察研究の登録を開始する予定である。

また、患者会主導の小児がん長期フォローアップにおける全国調査の研究計画書作成、倫理審査準備、EDC構築の支援も行った。これについても令和7年度に登録を開始する予定である。

### D. 考察

小児がんは疾患克服後の余命が長く、多岐にわたる晩期合併症のために長期の経過観察を要するという成人がんにはな

い特徴がある。本分担研究では全国規模の情報インフラを構築し、それを用いて系統的かつ継続的に長期フォローアップに関連した臨床情報を収集・管理するための長期フォローアップセンターを継続して整備している。

その次の段階として、データ集積を行い、妥当性を検討している。JCCG 大規模観察研究の一次調査の結果をもとに松本班としての前向き研究のための仮説を形成し、研究計画書を作成した。また登録開始に先立ち、CCS の意見を取り入れるための調査研究を患者会の助言を得て立案し、倫理審査委員会の承認を得ることができた。

今年度の成果物として、小児がん長期フォローアップにおける情報セキュリティについて論文化 (G.1.1 参照) した。また令和 5 年度から継続して提唱してきた、予測モデルを軸として小児がん長期フォローアップを先制医療としてゆく構想について講演し (G.2.1 および 4)、論文化 (G.1.2 参照) を行い、松本班のデータ戦略の紹介、普及に努めた。

今後の課題として、C.2 にて述べた CCS の入力を起点とした登録体制に生じる困難の解決に向けて、スマートフォンアプリケーションの利活用について検討している。患者が自身の臨床情報を管理するために開発された EDC 付属の公式無料アプリケーションである「MyCap (開発元: 米国 Vanderbilt 大学)」の機能改善・新規機能追加が昨今目覚ましく、開発元の米国では臨床研究に実装されるようになった。これを用いれば、CCS による個人情報提出を要さないデザインが可能とな

るため研究運営の実行可能性が高まり、CCS と事務局の直接対話が可能となるほか、自動メール通知により loss to follow-up の予防等につながることを期待される。小児がん長期フォローアップの中心的存在は医療従事者ではなく受益者である CCS であり、CCS の主体性の促進の観点からも、本邦における MyCap の導入の可能性について、今後班内で議論したいと考えている。

その他今後直面する課題として、現在本邦には晩期合併症の重症度を評価するための客観的指標がないことが挙げられる。この課題に未然に取り組むために、2025 年度科学研究費助成事業に「本邦の小児がん晩期合併症を重症度別に把握するための臨床的尺度開発」研究案を申請し、採択された (25K19250、研究代表者: 加藤実穂)。松本班は同研究との共同により、晩期合併症の客観的データを系統的に収集できるようになるほか、のちの国際データ比較が可能となることを期待される。

## E. 結論

小児がんの長期フォローアップの基盤となるインフラを整備し、フィールドモデルや疾患モデル等の支援を通じて有用性や問題点の検証、課題解決のための取り組みを継続して行っている。これにより運用を洗練化し、全国規模で恒久的かつ支援体制まで見据えた長期フォローアップ体制の確立を念頭に、長期フォローアップ松本班として前向き長期フォローアップ研究を開始し、得られたデータをもとに予測モデルを構築したいと考えて

いる。

## F. 健康危険情報

特記事項なし

## G. 研究発表

### 1. 論文発表

- 1) **加藤実穂**, 瀧本哲也, **田代志門**, **松本公一**. 小児がん長期フォローアップにおける同意取得のあり方と情報セキュリティについて (第二報). 日本小児血液・がん学会誌, 2024 年 61 巻 5 号 p.385-391.
- 2) **加藤実穂**, 瀧本哲也. 本邦における小児がん長期フォローアップ体制～先制医療に向けて～. 日本小児血液・がん学会誌, 2024 年 61 巻 1 号 p.21-26.
- 3) **加藤実穂**. 小児がん長期フォローアップに魅せられて. 日本小児血液・がん学会誌, 2024 年 62 巻 2 号 (in press)

### 2. 学会発表

- 1) **Miho Kato**, Tetsuya Takimoto, **Kimikazu Matsumoto**. 16th Congress of Asia continental branch of International Society of Paediatric Oncology. Asian Hub Concept for Long-Term Follow-Up of Childhood Cancer Survivors. 2024 年 6 月 23 日於横浜.
- 2) Shinsuke Kataoka, **Miho Kato**, **Yoko Shioda**, Tatsuo Kuroda, Hajime Hosoi, Takashi Taga, Junichi Hara, Eiso Hiyama, Hiroaki Goto, Souichi Adachi, Atsushi Manabe. 16th Congress of Asia continental branch of International Society of Paediatric Oncology. A-large-

scale cross sectional survey of health and social life for children's cancer survivors in Japan. 2024 年 6 月 24 日於横浜.

- 3) **Miho Kato**, Tetsuya Takimoto, **Kimikazu Matsumoto**, Akihiro Yoneda, Katsuyoshi Koh, Tatsuro Tajiri, Atsushi Manabe. 56th Annual Congress of the International Society of Paediatric Oncology. DATA INFRASTRUCTURE OF CLINICAL RESEARCH ON PAEDIATRIC SOLID TUMOURS AND LONG-TERM FOLLOW-UP FOR CHILDHOOD CANCER SURVIVORS IN JAPAN. 一般ポスター発表. 2024 年 10 月於米国ハワイ.
- 4) **Miho Kato**. Establishing a long-term follow-up system for childhood cancer survivors in Japan. The 66th Annual Meeting of the Japanese Society of Pediatric Hematology/Oncology. The 4th Symposium on Activity Support for Female and Young Doctors Career Development Support for Female and Young Doctors. In Kyoto, Japan. December 13, 2024.
- 5) **Miho Kato**. Establishment of a clinical data collection and management system to create scientific evidence. WHO GICC in Tokyo 2024. In Tokyo, Japan. September 2024
- 6) **加藤実穂**. 令和 6 年度小児脳腫瘍の会 第 16 回お泊り親睦会. 本邦の小児がん長期フォローアップ体制について. 2024 年 10 月 5 日於神奈川.

### 4. その他

**1) Miho Kato, Tetsuya Takimoto.**  
CHILDREN'S ONCOLOGY GROUP  
Long-Term Follow-Up Guidelines for  
Survivors of Childhood, Adolescent, and  
Young Adult Cancers Version 6.0 (October  
2023) "Introduction to Long-Term Follow-  
Up After Cancer Treatment" contributed to  
translate in Japanese.  
(<http://www.survivorshipguidelines.org/>)

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