

厚生労働省研究費補助金（成育疾患克服等次世代育成基盤研究事業） 分担研究成果報告書

平成 23 年 2 月 28 日現在

胆道閉鎖症における小児慢性特定疾患データベースと日本胆道閉鎖症研究会全国登録データベースとの比較検討研究

分担研究者 仁尾 正記（東北大学・医学系研究科・教授） 研究者番号：70228138

研究協力者 佐々木 英之（東北大学・大学病院・講師） 研究者番号：40438461

研究要旨（和文）：

小児慢性特定疾患治療研究事業（小慢事業）は児童福祉法に基づき、当該疾患の治療方法に関する研究等に資する医療の給付その他の事業を行うことを目的として実施されている。本分担研究では、胆道閉鎖症における登録者数やその治療等の現況を把握するとともに、母子保健行政に資する資料及び当該事業の適性化のための基礎データとして、実施主体及び厚生労働省に対して提供することを目的とする。また、当該データの特性を考慮した上での研究利用に関する検討も行う。

小慢データは、小慢事業に申請するためのデータであり、個々の疾患の新規発症や患者数を反映するものではないが、疾患によっては限りなく新規発症や患者数に近いデータもあることが想定される。胆道閉鎖症は発症患者数が年間約 100 例と比較的少ない。さらに日本胆道閉鎖症研究会で 1989 年から行っている全国登録事業による独自のデータベースが存在する。そこで胆道閉鎖症について小慢データとの照合等によって、当該疾患にかかるデータの精度を評価することとする。同時に、小慢データを研究利用するためには、更にどのようなデータが必要か、あるいはどのような利用方法があるか等を検討することとする。

比較検討が可能な対象としては、小児慢性申請時年齢が 0 歳のケースと初回の全国登録症例があり、それぞれのデータベースから抽出が可能であった。

登録総数としては金銭的インセンティブが働く小児慢性データベースの方が多く、データの集積という観点ではすぐれていると想定される。肝移植を行った症例については小児慢性のデータベースからの抽出ができなかった。予後についてであるが、こちらについても小児慢性のデータベースには自己肝による生存と移植肝による生存が混在し、上述のように肝移植症例を抽出することができない状態であり、自己肝での生存の有無に関する評価は不可であった。

次いで比較評価項目の確認を行った。当初両データベースにあると考えていたデータについては性別、治療経過（葛西手術や肝移植の年齢など）、初診時検査データなどである。結果としては初回登録については性別、出生時体重、初診時の直接型ビリルビン値、術後合併症であった。今後は、現時点で可能な限りのデータベース間での照合作業を継続しつつ、胆道閉鎖症における高精度データベースに求められる要素の検討を行っていく予定である。

1. 研究開始当初の背景

小児慢性特定疾患治療研究事業（小慢事業）は児童福祉法に基づき、慢性疾患にかかっていることにより長期にわたり療養を必要とする児童等の健全な育成を図るために、当該疾患の治療方法に関する研究等に資する医療の給付その他の事業を行うことを目的として実施されている。本研究では、小慢事業の申請の際に提出される医療意見書の電子データを基に、登録者数やその治療等の現況を把握するとともに、母子保健行政に資する資料及び当該事業の適性化のための基礎データとして、実施主体（都道府県、指定都市及び中核市）及び厚生労働省に対して提供することを目的とする。また、当該デ

ータの特性を考慮した上での研究利用に関する検討も行う。

これまで申請者らは、電子データによる登録管理システム（入出力ソフト）の改良を重ねるとともに、国立成育医療センター内に小慢事業の登録データにかかるデータベースを構築してきた。当該データベースには、現在までに延べ約 110 万人分の医療意見書にかかるデータが蓄積、集計されている。小慢事業にはこれまでも最新の知見等に基づき、厚生労働省においてその対象疾患の見直しが実施されてきたが、当該事業の適性化に資する基礎資料として活用性および精度のより高いデータの収集が行政的にも必要とされている。

2. 研究の目的

小慢データは、小慢事業に申請するためのデータであり、個々の疾患の新規発症や患者数を反映するものではないが、疾患によっては限りなく新規発症や患者数に近いデータもあることが想定される。胆道閉鎖症は発症患者数が年間約100例と比較的少ない。さらに日本胆道閉鎖症研究会で1989年から行っている全国登録事業による独自のデータベースが存在する。そこで胆道閉鎖症について小慢データとの照合等によって、当該疾患にかかるデータの精度を評価することを目的とする。同時に、小慢データを研究利用するためには、更にどのようなデータが必要か、あるいはどのような利用方法があるか等を検討することも併せて検討する。

3. 研究の方法

分担研究者が事務局を担当している日本胆道閉鎖症研究会では1989年より胆道閉鎖症の全国登録事業を行っている。よって、今回は成育医療研究センターより小児慢性データベースからのデータを受けて、研究会のデータベースとの照合作業を行うこととした。具体的な研究方法としては

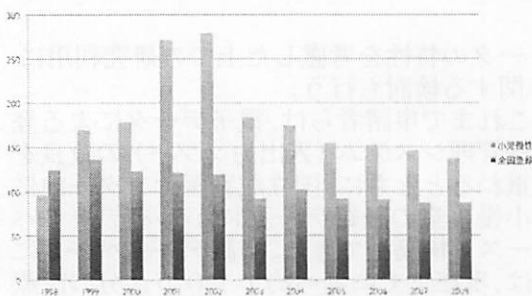
- 1) 比較検討対象の選定
- 2) 比較評価項目の確認
- 3) 比較検討

を行う予定とした。

4. 研究成果

当初比較検討が可能な対象としては、小児慢性申請時年齢が0歳のケースと初回の全国登録症例が考えられていた。これについてはそれぞれのデータベースから抽出が可能であった。

結果をグラフに示すと下図のようになる。



この結果より、登録総数としては金銭的インセンティブが働く小児慢性データベースの方がよりすぐれていると想定される。

次の対象としては肝移植を行った症例について小児慢性データベースと全国登録のデータベースからの抽出が可能ではと考えていたが、こちらについては小児慢性のデータベースからの抽出ができなかった。

最後に全国登録で行っている追跡登録が1歳、5歳、10歳、15歳なので、こちらについて双方のデータベースから抽出を行うことを想定していた。結果としては、それぞれのデータベースから症例の抽出を行うことは可能であった。しかし小児慢性のデータベースには自己肝による生存と移植肝による生存が混在していることが予想されるにも関わらず、上述のように肝移植症例を抽出することができない状態であった。よって年齢のみで抽出した対象での評価は不可であると判断せざるを得なかった。

次いで比較評価項目の確認を行った。当初両データベースにあると考えていたデータについては性別、治療経過（葛西手術や肝移植の年齢など）、初診時検査データなどである。

結果としては初回登録については性別、出生時体重、初診時の直接型ビリルビン値、術後合併症であった。

今後は、現時点で可能な限りのデータベース間での照合作業を継続しつつ、胆道閉鎖症における高精度データベースに求められる要素の検討を行っていく予定である。

5. 主な発表論文等

（研究代表者、研究分担者及び連携研究者には下線）

〔雑誌論文〕（計0件）

〔学会発表〕（計0件）

〔図書〕（計0件）

〔産業財産権〕

○出願状況（計0件）

名称：

発明者：

権利者：

種類：

番号：

出願年月日：

国内外の別：

○取得状況（計◇件）

名称：

発明者：

権利者：

種類：

番号：

取得年月日：

国内外の別：

〔その他〕

ホームページ等