

小児がん発生数の把握；
小児慢性特定疾患申請数と関連学会登録数の相関性に関する検証

研究分担者 黒田 達夫（慶應義塾大学 小児外科学 教授）

研究要旨

小児の主要な固形悪性腫瘍について、小児慢性特定疾患の新規申請数と小児がん関連学会の新規発症小児がん登録数とを 2008 年～2010 年のデータベースより抽出し、地域性、年次推移なども含めて解析した。

学会登録症例数と小児慢性申請数は総数では比較的良く相関していた。多くのがん種では小児がん学会オンライン登録の登録数が小児慢性申請数を上回ったが、多領域で治療されるがん腫などでは小児慢性申請数が学会登録を上回った。地域別にみると大都市を擁する都道府県では両者大きく乖離し、学会の登録数が顕著に小児慢性申請数を上回った。この傾向は 2010 年に特に顕著であった。小児慢性特定疾患の申請情報は、病理学的な診断の裏付けが希薄であることなどの問題はあるものの、学会登録が捕捉しきれない多領域の症例を捕捉して、全体としては小児がん発症を比較的高い相関性で反映しており、医療政策的な目安としてある程度の有用性が認められるものと思われる。今後、複数年のデータを恒常的に解析してゆくことは有用と考えられ、小児がん登録情報センター、小児がん長期フォローアップセンターなどの構想と合わせて検討する必要があるものと思われる。

A. 研究目的

小児がんは成人がんと比較すると発症頻度は遥かに低く、本邦でもっとも捕捉率が高いとされている日本小児血液・がん学会の悉皆的オンライン登録でも年間で約 2,000 例の新規発症症例が登録されるのみである。同学会の会員のいる基幹的病院における治療例に関しては高い捕捉率で登録されているものと思われるが、小児がんの臨床像は極めて多彩で、一般病院の多様な診療科で治療されている症例がどの程度、悉皆的に登録されているかについては、現在、正確な検証は不可能である。

昨年の本研究において、諸外国における人口当たりの小児がん発生率から本邦の小児がん発症数を推計して比較した結果、この登録が本邦の新規発症の約 8 割を捕捉しているというデータが示された。これより計算すると、

本邦における新規の小児がん発症数は全体で毎年 2,500 例程度と推計される。一方で近年の治療技術の進歩により、小児がんの約 7 割で長期生存が可能とされる。発症数にこの数字を乗ずると、わが国全体では毎年 1,500～1,800 例の小児がん治療経験者が累積してゆくことになる。これは医療政策的に無視しがたい数字になり、小児がんを稀少疾患とする認識を改める必要がある。

従来、わが国では人口ベースの小児がん発生数は確立されていない。昨年の東日本大震災に伴う原発事故に関連して、小児はがん発生のハイリスクとする指摘がなされているが、今後、原発周辺地域における小児がん発生が増加するか否か、比較すべき信頼度の高いデータは得られていなかった。さらに現状では、個人情報保護に関する煩雑な手続きが小児が

ん発症の登録率向上の大きな障害になっている。2008年より開始された日本小児がん学会の小児がん発生全数把握オンライン登録システムはこうした事態の打開を目指したものであった。しかしながら上記の様に、捕捉率は8割程度を推移しており、人口ベースの小児がん登録と、新規発症の実態把握のためにはさらに検討が必要な状態である。

小児慢性疾患申請のデータが小児がん発生のかかなりの部分を捕捉している可能性については以前より指摘されており、昨年度までの本研究班において、小児がん関連の各学会の小児がん登録数と小児慢性疾患申請数に予想外の相関性が見られることが明らかにされた。

そこで本研究では、昨年の作業を継続して、2010年までの新たなデータの追加された小児がん学会全数把握登録の結果を中心に、学会登録と小児慢性疾患申請データを複数年にわたって比較し、相関性、年次推移の傾向の相違などについて検討を行った。これにより、小児がん発生数や罹患数の把握に関する小児慢性疾患申請のデータの活用法を模索することを目的とした。

B. 研究方法

1) 学会主導の小児がん登録の中から、公表されている中で最新の2010年の登録データとして日本小児血液・がん学会の全数把握オンライン登録データベース(2011年9月30日版)ならびに日本小児外科学会の悪性腫瘍委員会登録データベース(2012年2月版)から、小児の主要固形悪性腫瘍について、登録症例数、地域別登録数などを検索した。特に日本小児血液・がん学会の登録データは、昨年度の報告書策定時点以降にも登録症例が追加されたため、公表されている最新の登録数を採用している。

2) 小児慢性特定疾患申請の悪性新生物のデータベースを対象とし、学会登録データに対応する2008年～2010年の代表的な小児固

形悪性腫瘍を群別化して、主な疾患群ごとの新規申請症例を抽出した。(2012年11月時点のデータを使用)

3) 学会登録の登録データと、小児慢性特定疾患のデータについて、地域的な分布も含めて比較・検討を行なった。また、登録数の年次推移の傾向についても、相違を比較・検討した。

C. 研究結果

1) 神経芽腫群腫瘍 (添付表1)

昨年の傾向と同様に、小児慢性特定疾患制度への神経芽腫群腫瘍の新規申請は2010年に全国で114件見られたのに対して、日本小児血液・がん学会の新規発症オンライン登録数は137件とこれを上回った。日本小児外科学会の登録では102件に留まった。これらの登録数は2009年の数字に近かった。地域別の申請数を見ると、2010年の数字は小児慢性の申請数と日本小児血液・がん学会登録が大きく食い違っていた。総数では後者の登録数が約20%程度多いのに対して、小児がんの治療の大きな施設が集中する都道府県の症例数は後者で2-6倍に上った。

2) 腎腫瘍群 (添付表2)

Wilms腫瘍、腎細胞癌などを含む腎腫瘍では、総数は小児慢性の登録数も、日本小児血液・がん学会登録数も各々48件と49件で極めて近い数字であった。小児外科学会の登録数は37件と大きくこれを下回った/地域別にみると、東京以外の主要府県で、登録数は大きく食い違っており、これら主要府県では学会登録が小児慢性の登録数を上回った。

3) 肝腫瘍群 (添付表3)

肝芽腫、肝細胞癌を中心とする肝腫瘍では小児慢性の新規申請数は47件であったのに対して、日本小児外科学会の登録数は39件、日本小児血液・がん学会のオンライン登録数

は70件と、三者が大きく食い違った。愛知県以外の主要都道府県では、小児慢性申請数と学会のオンライン登録数が大きく異なり、特に東京では小児慢性申請の1件に対して学会登録は11件があった。

4) 横紋筋肉腫 (添付表4)

横紋筋肉腫に関しては、日本小児血液・がん学会登録では軟部組織の腫瘍として他の腫瘍と一括されて集計されている。このうち概ね半数が横紋筋育種であることが過去の解析より分かっている。小児慢性の申請数が63件に対して、日本小児外科学会の登録数は32件に過ぎない。一方、日本小児血液・がん学会のオンライン登録数は95件で、上気のように横紋筋肉腫は45-50例ほどと考えられる。他の腫瘍とは異なり、小児慢性の申請数が学会登録より明らかに多くなっていた。地域的には愛知県、大阪府、広島県などでは学会登録の半数を横紋筋肉腫としても小児慢性の申請数を大きく上回る結果となった。

5) 胚細胞腫瘍群 (添付表5)

奇形腫を中心とした胚細胞腫瘍の群では、昨年と同様の傾向を示して、小児慢性の申請数90件に対して日本小児がん学会のオンライン登録数は88件、日本小児外科学会の登録数は142件あり、小児慢性特定疾患申請数が顕著に低い数字であった。地域別にみると、大規模な小児総合医療施設を複数抱える東京、大阪、福岡などの都道府県で学会登録が小児慢性申請数を大幅に上回った。

6) 年次推移

本年度まで3年間にわたり関連学会の登録数ならびに小児慢性特定疾患申請数の年次推移をみた範囲では、登録総数の動きが各がん種でほぼ平行であった。また、3年間で概ね近い登録数があり、極端な増減は見られなかった。胚細胞腫瘍のみはばらばらで、検討されたがん種の中で唯一、小児がん学会オンラ

イン登録数が小児外科学会登録数を下回った。地域別の数字をみると、2010年はこれまでになく小児慢性と学会登録の数字の解離が目立った。東京、大阪などの小児がんの拠点的な都市を擁する自治体では、日本小児血液・がん学会登録が小児慢性申請数を大きく上回る傾向が顕著であった。

D. 考察

本研究では平成22年度より、小児固形悪性腫瘍について、小児慢性特定疾患の申請データと関連学会の登録の相関の検証を継続して来た。小児がんは白血病に代表される血液腫瘍と、固形腫瘍に大別される。このうち固形腫瘍の治療には小児内科(小児腫瘍科)のみならず、外科系診療科の関与が必須であり、さらに放射線科、小児病理診断など多くの専門性の高い領域の専門医の関与をも必要とする総合治療である。従って、小児固形腫瘍を多く治療する施設は、大都市の大学病院や、自治体や国立の管掌する小児病院が中心となる。一方で、固形腫瘍は原発臓器や臨床像が多様で、小児外科系診療科の中でも小児外科のみならず脳外科、整形外科、耳鼻科、眼科など多くの診療科で治療される。現在、小児固形悪性腫瘍に関する最も大きな学術団体である日本小児血液・がん学会の会員構成は小児腫瘍科医、小児外科医が中心で、それ以外の小児外科系の会員は非常に限定的である。この点、学会登録には、捕捉率に疾患による偏りが生じる可能性が考えられる。色々な小児がん登録データの相関性や相違点を検証する上で、これらの背景を理解し、結果の解釈に勘案する必要がある。

今年度は関連学会の登録から最新のデータが公表された2010年の新規発症症例につき検討を行った。Pilot study的に研究を開始した平成22年度の研究結果として、小児慢性特定疾患の申請数と、関連各学会での登録数が予想以上に良く相関していることが結論され

た。その後、日本小児血液・がん学会のオンライン登録システムの改良と浸透により、同登録は毎年 2,000 例の新規発症症例が安定して登録される様になった。これでも新規発症症例の捕捉率は 80%程度と推計はされているが、今年度の登録数をみると、検討された 5 つのがん種の中で 2 つはオンライン登録数が小児慢性の申請数を大きく上回っている。腎腫瘍はほぼ同数である一方、横紋筋肉腫と胚細胞腫瘍では小児慢性の申請数が学会の登録数を上回っていた。横紋筋肉腫は原発部位が極めて多様で、原発部位に寄って耳鼻科、整形外科、小児外科、小児泌尿器科など様々な診療科で治療を受ける。当然、学会の構成会員の診療科以外で治療される例も多く、これが学会登録よりも小児慢性の申請数が高い数字を示した原因ではないかと思われる。また、胚細胞腫瘍は、病理学的に良性なものから悪性のものまで幅広いスペクトラムがあり、医療費助成では一括して申請するが、学会の小児がん登録では悪性度が低いものは登録されない可能性が考えられる。

3 年間の研究期間の最終年度である今年度、改めて 3 年間の学会関連登録と小児慢性申請数の相関状況の年次変化についても検討された。小児慢性の申請数と日本小児血液・がん学会オンライン登録の登録数は、総症例数は各がん種においてそれほど大きく異なることはなかったが、2010 年のデータでは地域別の登録数がまるで食い違う傾向が顕著であった。地域別の登録数は 2008～2009 年のデータでも両者の間で相違していたが、2010 年にはこの解離が加速した感があった。また、大きな傾向として、東京、大阪などの大都市を擁する自治体では、学会登録数が小児慢性の申請数を遥かに上回っていた。こうした大都市型の自治体の管轄内には、固形腫瘍の多様な治療が一施設内で可能な小児総合医療施設を複数存在する。また、こうした施設で治療された症例は学会側へは高い確立で登録されるものと思われる。周辺の医療圏に居住し、その

自治体へ医療費助成の申請を提出しながら、治療は大都市の小児総合医療施設で受けている症例が増加していると考えれば、この結果は理解し易い様に思われる。換言すればこうしたデータは、小児がん治療の集約化が進んでいることを反映している可能性が考えられる。同時に、これらの症例の生活域、医療域の広域性をも示唆するものと考えられる。小児がんは、初発がんの治療後遠隔期の二次がんなどの有害事象が次第に明らかになりつつあり、長期、広域で医療費を助成する小児慢性の制度の見直しを考える上でも、広域で成人化後のフォローアップをもカバー出来る制度の構築は有用である。

医療費助成の申請の観点から考えると、乳児医療制度や自立支援医療制度による助成を求めた症例が、小児慢性への申請症例から漏れている可能性は考えられる。これに関しては、本課題では検討の基盤にすべき情報がなく、今後の宿題と思われる。さらに昨年からの課題になっている、各データベースで同一の症例を見ているか否かに関しては、今年度も、収集可能なデータの範囲では検証が出来なかった。学会登録における診療科領域の偏りなどと合わせて、こうした問題の検討も今後の宿題と思われる。

E. 結論

以上、本年度の検討結果をまとめる。昨年度に引き続いて小児がん関連学会主導の小児がん登録と、小児慢性特定疾患申請の比較で以下の様な点が示唆された。

- (1) 小児慢性の申請数は全国総数としては学会登録の数字に近い数字を示した。
- (2) 概ね日本小児血液・がん学会オンライン登録に比較して、小児慢性申請数が下回るがん種が多かったが、横紋筋肉腫の様に多領域の診療科で治療する腫瘍や胚細胞腫のように病理学的悪性度に幅のある腫瘍では小児慢性申請数が学会の登録を

上回った。

- (3) 地域別登録数をみると、特に2010年の登録では大規模な小児総合医療施設を複数擁する都道府県で、学会登録が小児慢性申請数を著明に上回り、小児がんの治療病院と申請の提出された地域が分かれていることが示唆された。
- (4) 小児慢性特定疾患の申請情報は、病理学的な診断の裏付けが希薄であることなどの問題はあるものの、学会登録が捕捉しきれない多領域の症例を捕捉して、全体としては小児がん発症を比較的高い相関性で反映しており、医療政策的な目安としてある程度の有用性が認められるものと思われた。
- (5) 今後、より完全なデータベースに基づいて、複数年のデータを恒常的に検討してゆくことは有用と考えられ、小児がん登録情報センター、小児がん長期フォローアップセンターなどの構想と合わせて検討する必要があるものと思われる。

F. 研究発表

なし

G. 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

添付資料 1. 神経芽細胞腫(2010年)

	小児慢性特定 疾患申請	日本小児がん学会 オンライン登録	日本小児外科学会 委員会登録
全国	114 件	137 件	102 件
さいたま	2 件	12 件	関東 23 件
東京	4 件	18 件	6 件
愛知	5 件	11 件	東海・北陸 20 件
大阪	2 件	12 件	近畿 23 件
広島	0 件	6 件	中国・四国 2 件
福岡	0 件	6 件	九州 7 件

添付資料 2. 腎腫瘍(2010年)

	小児慢性特定 疾患申請	日本小児がん学会 オンライン登録	日本小児外科学会 委員会登録
全国	48 件	49 件	37 件
さいたま	1 件	2 件	
東京	3 件	2 件	
愛知	1 件	2 件	
大阪	0 件	3 件	
広島	0 件	0 件	
福岡	0 件	4 件	

添付資料 3. 肝腫瘍(2010年)

	小児慢性特定 疾患申請	日本小児がん学会 オンライン登録	日本小児外科学会 委員会登録
全国	47 件	70 件	39 件
さいたま	0 件	4 件	
東京	1 件	11 件	
愛知	4 件	6 件	
大阪	0 件	3 件	
広島	0 件	2 件	
福岡	0 件	5 件	

添付資料 4. 横紋筋肉腫(2010年)

	小児慢性特定 疾患申請	日本小児がん学会 オンライン登録 軟部腫瘍	日本小児外科学会 委員会登録
全国	63 件	95 件	32 件
さいたま	0 件	4 件	
東京	2 件	6 件	
愛知	1 件	7 件	
大阪	2 件	8 件	
広島	0 件	6 件	
福岡	3 件	4 件	

添付資料 5. 胚細胞腫瘍(2010年)

	小児慢性特定 疾患申請	日本小児がん学会 オンライン登録	日本小児外科学会 委員会登録
全国	90 件	88 件	142 件
さいたま	3 件	6 件	関東・甲信越 56 件
東京	1 件	5 件	
愛知	4 件	4 件	東海・北陸 8 件
大阪	4 件	12 件	近畿 25 件
広島	0 件	0 件	中国・四国 6 件
福岡	0 件	7 件	九州 20 件