

編集委員会企画 変わりつつある日本小児整形外科学会とこれから

## JPOA レジストリーのこれから

マルチセンタースタディ委員会 委員長

北野利夫

構想から4年を経て、2020年1月1日から日本小児整形外科疾患登録(JPOA レジストリー)の運用を開始することができました。本レジストリー構築に至った経緯、開発コンセプト、登録方法、運用の実際についての概要を紹介します。

=====

### JPOA レジストリーの必要性と基本デザイン

=====

#### 小児整形外科疾患と全国レベルの疾患レジストリー

服部 義先生を中心とする JPOA マルチセンタースタディ (MCS) 委員会により実施された 2011 年 4 月から 2 年間に初診した発育性股関節形成不全 (DDH, 脱臼) 例の全国調査<sup>1)</sup>により診断遅延例が高率に存在することが明らかとなった。朝貝芳美委員長の日本小児股関節研究会 乳児股関節健診ありかた検討委員会(後の JPOA 健診委員会)が中心となり、現行の DDH 検診体制に警鐘を鳴らし、行政をも巻き込んだ DDH 検診システム再構築の潮流を形成したことにより<sup>2)</sup>、現在その成果が現れつつある。しかし、このような全国調査は繰り返し行えるものではなく、疾患発症状況のタイムラグのない情報収集および発信には全国レベルのレジストリー研究が必要であるとの認識を強く知らしめることとなった。

小児整形外科領域においては、対象疾患が希少疾患が多いことから、RCT からは十分に信頼性のある研究結果を得ることが容易ではない。優れた医療を提供するためには疾患数、季節性、地域性などの疫学情報を国内外に発信し、予防や早期診断、早期治療に速やかに対応することが要求される。学会主導の全国的なレジストリー研究は希少疾患を含む小児整形外科疾患に対する診断、治療、治療結果に関する情報を遅滞なく得るに有効な手段であるだけでなく、得られた成果を中長期的な対応も含めて、行政機関への提言として発信することを可能にする。

#### JPOA レジストリーの基本デザインとシステム構築

小児整形外科特有の問題点と上記の事例等を踏まえ、1)小児整形外科関連疾患の疫学データの年次報告と経年的疾患発症動向の遅滞ない発信、2)診断・治療に関する多様性を有する小児整形外科関連疾患の診断、治療、治療結果に関する詳細な情報の医師間での共有、この2つを本レジストリーの主たる目的とした。この目的を達成するために、レジストリーデザインの作成とシステム構築には、以下の条件を満たす必要があった。

- 悉皆性<sup>しっかいせい</sup>の確保

多くのレジストリー研究において問題となっているように、低登録率のレジストリーでは収集データからの解析に偏る。したがって、高い登録率を達成し維持しなくてはならない。このため、登録対象疾患が

悉く登録されるようなレジストリーデザインを作成し、システムを構築する必要がある。

- 容易な疾患登録作業

悉皆性を担保するために重要な要素は登録作業の容易さである。簡便にやさしく登録できることが、登録者の負担を減らし、レジストリーへの参加に対するハードルを低下させ、登録率の向上に効果する。

- レジストリーデザイン

既述の目的を達成し、登録者の負担を減らし、登録率を高め、偏りのないデータ収集を図るレジストリーシステムを作成するには、1)疫学データの収集と、2)詳細な診断・治療・結果に関するデータ収集、に分けた2階建のレジストリーフレームをデザインするのが適切と判断した。すなわち、疫学データ収集のための必須疾患登録(A登録)と、診断・治療・結果の詳細なデータを収集する選択的疾患登録(B登録)という2段階に分けた疾患登録方式を採用することにより、登録の悉皆性を確保しつつ必要不可欠なデータを収集するという2つの目的の達成が可能となると考えた。

- EDC システムの選定(REDCap)

負担が少なく容易に登録作業を行い、かつ効率的にデータの収集と解析を行うには、紙ベースでのデータ収集は不利であることから、Electric Data Capture(EDC)が疾患登録の主流となっている。しかし、システム構築・維持費用が高額であること、高度なセキュリティ対策が要求されることがその導入の障害となっていた。今回、アカデミア向けのEDCであり高度なセキュリティシステムを持つREDCapを大阪市立大学REDCapからの学外提供REDCap\_SaaSとして導入することにより、これらの問題点を解決することが可能となった。

- 登録対象疾患

2020年1月1日以降に新たに対象疾患と診断された患者さんの、個人を特定できない情報をREDCapによるEDCを用いて収集する。必須疾患登録(A登録)対象疾患として、DDH(完全脱臼)、大腿骨頭すべり症、先天性内反足、ペルテス病、筋性斜頸、先天性下腿骨偽関節、先天性垂直距骨の7疾患から始める。A登録対象疾患は、学会員の希望を参考に、今後追加する予定である。選択的疾患登録(B登録)としては、DDH(完全脱臼)を対象疾患として開始し、登録率の動向を見ながら、順次追加してゆく計画である。

=====  
JPOA レジストリー登録の実際  
=====

以下に登録方法の概略を述べます。

詳細はJPOA ホームページの会員ページから『JPOA レジストリー登録マニュアル』をダウンロードしてください。

### 倫理審査手続きについて

JPOA レジストリーに登録していただく前準備として、所属医療機関における倫理審査を受け、承認を得る必要があります。所属医療機関内に倫理委員会が組織されていない場合はJPOA 倫理委員会の承認を基に疾患登録研究に参加することができますが、医療機関長の許可承認を受けてください。

倫理審査の承認または医療機関長の許可承認の後、本レジストリーへの参加が可能になります。

実施計画書(疾患登録の詳細)をはじめ、倫理審査受審に必要な書類および医療機関長による臨床研究実施許可通知書はJPOA のホームページ(会員ページ)からダウンロードできます。

## JPOA レジストリー登録方法(登録フロー, 付録 1)

### ● A 登録

A 登録には REDCap の Survey 機能のみを使用するので、REDCap にログインする必要がありません。運用開始時点での対象疾患は、DDH(完全脱臼)、大腿骨頭すべり症、先天性内反足、ペルテス病、筋性斜頸、先天性下腿骨偽関節症、先天性垂直距骨の7疾患です。2020年1月1日以降に新たに上記疾患と診断した場合には、JPOA ホームページ会員ページ内の『A 登録(必須)』から入力ページ(付録 2)に進んで指示に従い必要項目を入力してください。お使いの PC、タブレット、スマートホンのブラウザに以下の URL を入力していただいても入力ページが開きます。

<https://www.redcap.jp/redcap/surveys/?s=349JCXT8DM>

A 登録入力画面のコピーを本編末に付録しています(付録 2)が、B 登録入力画面を含めて JPOA ホームページ(会員ページ)からもダウンロードできます。

A 登録対象疾患のなかで DDH(完全脱臼)を登録された場合、登録ページの最後に現れる「追加調査へのご協力 可否」の質問に対して、「Yes」を選択すると「DDH 追加調査 連絡先入力画面」が現れますので、追加調査の連絡先についての情報を入力してください。

### ● B 登録 DDH 追加調査

B 登録には REDCap アカウントを取得して、REDCap にログインする必要があります。レジストリー事務局から REDCap アカウントに関するメールが届きますので、案内に従って REDCap アカウントを取得後に REDCap にログインし、Record ID の番号を選択し、追加調査項目を入力してください。

初回登録終了後 4 か月から 6 か月の間に、再度ログインし、確認・修正・追記し、初期登録完了[Complete]にしていただきます。(事務局から初回登録を完了[Complete]していただくよう依頼メールが届きます)

### ● B 登録 DDH 追跡調査(初期登録後 1 年毎に追跡調査の内容を入力)

レジストリー事務局から 1 年毎に追跡調査登録依頼のメールが届きますので、REDCap にログイン後、Record ID の番号を選択し、追跡調査項目を登録してください。

### データの公開とデータ利用について

#### ● データの公開

A 登録の収集データからの疫学情報は年次情報として、毎年発表し、B 登録の収集データは、登録数等の基礎データのみを A 登録データと同様に毎年公開します。

#### ● 会員によるデータ利用

JPOA 会員が JPOA レジストリー収集データの利用を希望する場合は、JPOA に対してデータ使用を申請し、当該委員会(現時点では MCS 委員会)がその申請に関する審査を行い、データ使用の可否を判断します。データ使用が認められた会員はそのデータを解析し、公表規定に従い、学会、論文上にて発表することが可能となります。

## JPOA レジストリーのこれから

2020 年 4 月に登録開始予定である日本整形外科学会疾患登録(JOANR)や関連学会の疾患登録<sup>3)</sup>との関係、すなわち小児期の整形外科各専門領域(脊椎外科、手外科、足の外科等)との連携・役割分担を今後検討する必要があります。手術症例を登録する JOANR と二重に登録する必要が生じる可能性があることか

ら、JPOA 会員の先生方には大変なお手数をお掛けすることになるかと思いますが、JPOA レジストリーは、主に希少疾患、非手術的(保存的)治療が選択肢に含まれる小児整形外科領域の疾患を対象としていますので、当面はJPOA 独自の疾患登録を続けて行く予定です。

最後に、本レジストリー構築に際してご意見・ご助言をいただきましたJPOA 学会員の先生方に感謝申し上げます。本レジストリー研究からの成果を予防・診断・治療にフィードバックさせるには、学会員の先生方のご協力が不可欠ですので、今後とも本事業にご理解の上ご支援を賜りますようお願い申し上げます。

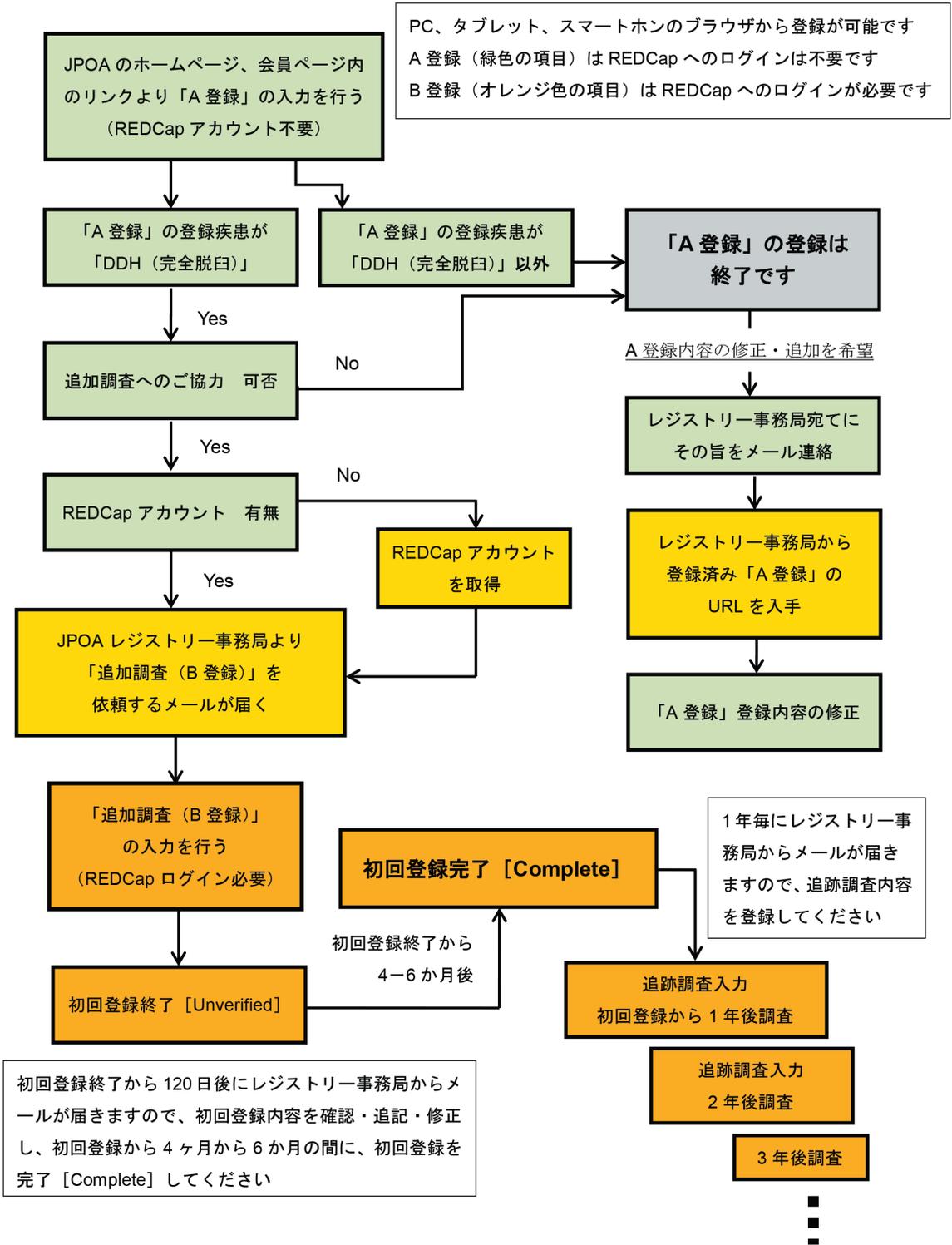
JPOA レジストリーの構想から構築、運用開始に携わった、MCS 委員会委員(新旧委員を含む、敬称略) 一戸貞文、稲葉 裕、大谷卓也、尾崎敏文、金子浩史、小林大介、小林直実、西須 孝、関 敦仁、滝川一晴、服部 義、樋口周久、星野裕信、村上玲子、和田晃房

#### 参考文献

- 1) 服部 義ほか：発育性股関節形成不全(脱臼)の全国多施設調査の結果報告。日小整会誌 26(2)：343-351, 2017.
- 2) 朝貝芳美：発育性股関節形成不全の発生予防と乳児股関節健診の再構築。日整会誌 90(4)：237-244, 2016.
- 3) 松本守雄：整形外科症例レジストリーの展望。Bone Joint Nerve 8(3)：295-298, 2018.

付録1：JPOA レジストリー登録フロー

付録2：A 登録(必須)/Essential 入力画面



付録1 JPOA レジストリー登録フロー

フォントサイズの変更 / Resize font: 

## A登録 (必須) / Essential

以下のフォームに沿って、情報の記入をお願いします

### 必須疾患 (A) 登録

**登録疾患**  
\* 必須入力 / must provide value

DDH (完全脱臼)  
 大腿骨頭すべり症  
 先天性内反足  
 ペルテス病  
 筋性斜頸  
 先天性下腿骨偽関節  
 先天性垂直距骨

reset

### 被験者基本情報

**性別**  
\* 必須入力 / must provide value

男児  女児

reset

**生年月 (年)**  
\* 必須入力 / must provide value

▼

**生年月 (月)**  
\* 必須入力 / must provide value

▼

### 発症時情報

**左右両側の別**  
\* 必須入力 / must provide value

右側  左側  両側

reset

発症年月（年）

\* 必須入力 / must provide value

発症年月（月）

\* 必須入力 / must provide value

発症した時点での在住場所（都道府県）

\* 必須入力 / must provide value

## 診断時情報

診断年月（年）

\* 必須入力 / must provide value

診断年月（月）

\* 必須入力 / must provide value

診断を受けた都道府県

\* 必須入力 / must provide value

## 紹介元、紹介先医療機関の情報

紹介元医療機関の有無

\* 必須入力 / must provide value

 あり  なし

reset

紹介元の診療科

\* 必須入力 / must provide value

 整形外科  小児科  産科  内科  その他

reset

紹介元医療機関の所在都道府県

\* 必須入力 / must provide value

## 登録者および施設情報

日本小児整形外科学会 会員番号 (6桁半角数字)

\* 必須入力 / must provide value

会員番号をお忘れの方は学会事務局にお問い合わせください

登録者 医療機関の所在都道府県

\* 必須入力 / must provide value

登録者 医療機関 部署

\* 必須入力 / must provide value

登録者 (医師氏名)

\* 必須入力 / must provide value

登録者 連絡先電話番号

\* 必須入力 / must provide value

登録者 メールアドレス

\* 必須入力 / must provide value

## 追加調査 (選択的疾患登録) へのご協力お願い

ご登録有難う御座います。  
今回ご登録頂きました疾患は、追加調査 (B登録) 対象疾患です。  
以下についてもご意向をお聞かせ下さい。

## DDH (完全脱臼) について

追加調査へのご協力 可否

\* 必須入力 / must provide value

Yes  No

reset