

研究計画書

研究課題名 本邦筋ジストロフィー病棟における診療と死因に関する変遷：1999～2016年の筋ジストロフィー病棟データベースによる分析

研究責任者 齊藤利雄（神経内科医長）

研究分担者

1. 背景と目的・意義

筋ジストロフィーの医療は、1980年代の人工呼吸療法の普及や、1990年代の心不全薬物療法の進歩等により発展を遂げた。多くの患者が前世紀より長い人生を送るようになる一方で、超進行期における新たな合併症が増加し、臨床病態や死因の構造が変化している。1964年の筋萎縮症対策要綱に基づいて全国の27国立病院・療養所*に設置された筋萎縮症病棟では、国による筋ジストロフィーの医療ケアに関する研究班を核として、1999年から2016年までの間、入院患者に関する情報をデータベースに登録し集計及び解析を行ってきた^{1,2)}。特定の個人を識別できないよう匿名化された筋ジストロフィー病棟データベースを用いて、本邦筋ジストロフィー病棟における診療と死因に関する変遷を分析する。本研究は、本邦筋ジストロフィー医療の診療実態とその変遷を把握する情報源として重要な意義を有する。

2. 対象と方法

1) 研究対象

1999年から2016年まで毎年10月1日に登録され、特定の個人を識別できないように匿名化された本邦筋ジストロフィー病棟データベースを対象とする。このデータベースには、以下の情報が含まれている；登録された患者の生年月日、性別、診断およびその根拠、入院年月日、人工呼吸療法の有無とその種類および導入年齢、酸素投与の有無、気管切開の有無、栄養投与の経路、体重、登録時における患者の生死、死亡患者については死亡年月日と死因と剖検の有無。患者の生年月日と年齢が登録されているが、入院先病院名が情報から削除され対応表がないため、上記情報から特定の個人を識別することはできない。

2) 研究期間

本研究の承認日から2020年5月31日までとする。

3) 研究の実施方法と評価項目

上記データベースの各項目を病型毎に集計し、調査期間における変遷を分析する。とくに、呼吸療法の有無とその種類、栄養投与の経路、死亡年齢および死因について、調査期間における変遷および病型毎の差異を分析する。

3. 期待される研究成果と医学上の貢献の予測

過去 18 年間における筋ジストロフィーの臨床病態や治療，死因の構造変化を明らかにでき、本邦における筋ジストロフィーの診療実態を明らかにして、今後の診療向上に役立てる。

4. この研究の重要性および必要不可欠な理由

国際的に類を見ない本邦の筋ジストロフィー医療体制における診療状況を明らかにできる。

5. 倫理的配慮，準拠すべき倫理指針等，インフォームド・コンセントを得るための手続き

この研究は，世界医師会ヘルシンキ宣言，「人を対象とする医学系研究に関する倫理指針」（平成 29 年文部科学省・厚生労働省告示第 1 号，以下「医学系研究倫理指針」という）を遵守して実施する。

この研究は「自施設が保有し，特定の個人を識別することができないように匿名化された既存情報のみを用いる研究」であり，「医学系研究倫理指針」第 12 の 1(2)イ(ア)①に該当するので，その定めに従いインフォームド・コンセントを受ける手続等を行わない。

6. この研究によって生ずる個人への不利益及び危険性，個人情報の保護

この研究は，自施設が保有し，特定の個人を識別することができないように匿名化された既存情報のみを用いる研究であり，研究対象者に身体的な負担や不利益や危険は生じず，また個人情報やプライバシーの漏洩も生じない。データベースの情報から特定の個人を識別することができないため，データベースの情報は要配慮個人情報に当たらない。

7. この研究で利用する情報の保管方法および今後の利用

この研究で利用するデータベースは，研究責任者および研究分担者により当院内に可能な限り長期間保管される。また，筋ジストロフィー医療の向上に資することを目的とする研究に利用することがある。

8. 研究機関の長への報告内容及び方法

この研究の進捗および成果は，「独立行政法人国立病院機構刀根山病院倫理委員会規程」および「独立行政法人国立病院機構刀根山病院における倫理審査に係る標準業務手順書」に従って，病院長へ報告する。

9. 研究内容および研究成果の公表

この研究は，特定の個人を識別することができないように匿名化された既存情報のみを用いる研究であり，研究の内容に関する情報公開および公開データベースへの登録は行わない。

この研究の集計と分析が終了し次第，結果を公表する。この研究の成果は学術的な場お

よび医療を含む公衆衛生の向上に役立つ場でのみ公表される。

10. 研究対象者等及びその関係者からの相談等への対応

この研究は、特定の個人を識別することができないように匿名化された既存情報のみを用いる研究であるため、利用する筋ジストロフィー病棟データベースに登録された患者ないしその関係者からの相談等には対応しない。

11. 研究費用

この研究にかかる費用の一部は、以下の分担研究費から支出する。

- ・ 日本医療研究開発機構 難治性疾患実用化研究事業「エビデンス創出を目指した筋強直性ジストロフィー臨床研究」

12. 知的財産権

この研究で得られた研究の成果により生じた知的財産権は、研究者ないし国立病院機構に帰属する。

13. 利益相反

この研究に関与する研究者の全員について、この研究に関して報告すべき利益相反はない。

14. 補償の有無

この研究では既存資料である医療情報およびアンケート調査のみを取り扱い、研究対象に不利益や危険を生じないので、補償は行なわない。

15. 文献

- 1) 齊藤 利雄, 冨田羅 勝義, 川井 充. 国内筋ジストロフィー専門入院施設における Duchenne 型筋ジストロフィーの病状と死因の経年変化 (1999 年~2012 年). *臨床神経* 2014;54:783-790.
- 2) Saito T, Kawai M, Kimura E, et al. Study of Duchenne muscular dystrophy long-term survivors aged 40 years and older living in specialized institutions in Japan. *Neuromuscul Disord* 2017;27:107-114.

* 国立病院機構

旭川医療センター 八雲病院 青森病院 あきた病院 仙台西多賀病院 東埼玉病院 下志津病院 箱根病院 新潟病院 医王病院 長良医療センター 鈴鹿病院 兵庫中央病院 奈良医療センター 宇多野病院 刀根山病院 松江医療センター 広島西医療センター 徳島病院 大牟田病院 長崎川棚医療センター 熊本再春荘病院 西別府病院 宮崎東病院 南九州病院 沖縄病院
国立精神・神経医療研究センター