

令和 6 年 6 月 14 日現在

機関番号：17501

研究種目：基盤研究(C)（一般）

研究期間：2018～2023

課題番号：18K07822

研究課題名（和文）小児固形がん患者に対して包括的な認知機能評価と支援を行い、QOL向上を目指す研究

研究課題名（英文）The comprehensive cognitive function tests and sequential support to survivors of childhood solid tumors to aim the QOL improvement.

研究代表者

末延 聡一（Suenobu, Souichi）

大分大学・医学部・教授

研究者番号：30253785

交付決定額（研究期間全体）：（直接経費） 3,400,000円

研究成果の概要（和文）：本研究は小児がんを経験して治療を終了した小児がんサバイバーに対して包括的に認知機能評価を実施、経時的にフィードバックして治療終了後も多方面から支援を行い、サバイバーのQOL向上を目指した。研究代表者の施設を中心にWISCの学校へのフィードバックを検証した。また小児がんサバイバーにおける学習・就職の支援について、行政や学校、医療従事者に何を求めるのかは疾患や治療、知的を含む合併症の程度で異なるという知見を得た。サバイバー自身や親権者のレジリエンスがどのように変化するかも検討している。今も小児がん認知機能評価事務局は佐藤聡美研究室にあり、研究代表者とともに小児がんサバイバー支援を継続している。

研究成果の学術的意義や社会的意義

小児および青年若年成人（AYA）でがんを発症した経験者（小児がんサバイバー）における生活の質（QOL）と予後に関して、私たちは、小児がんサバイバーにとって必要な学習と就労の支援が、疾患、治療、および合併症の程度によって異なることを見出した。また、認知機能の評価方法の統一、学習支援法についての医療・教育および行政における理解度を高めるための会合を開催してきた。小児がんの治療成績が向上し、今後本邦ではさらに多くの小児がんサバイバーが就学・就労して行く事が見込まれる。そのための基礎研究として本研究結果は意義が高い。

研究成果の概要（英文）：This study aimed to comprehensively assess the cognitive functions of childhood cancer survivors who have completed their treatment. By providing feedback over time and offering multi-faceted support even after the end of treatment, the goal was to improve the survivors' quality of life (QOL). Centered around the lead researcher's institution, the feedback from the WISC to schools was examined. Additionally, it was found that the support required for learning and employment for childhood cancer survivors varied depending on the disease, treatment, and the extent of complications, including intellectual disabilities. The study also considered how the resilience of the survivors themselves and their guardians changes over time. Currently, the office for cognitive function assessment of childhood cancer is still based in Satomi Sato's laboratory, continuing to support childhood cancer survivors in collaboration with the lead researcher.

研究分野：小児腫瘍

キーワード：小児AYA世代がん 神経・認知機能 QOL 教育支援体制 就学支援体制 長期フォローアップ がん教育 固形がん

1. 研究開始当初の背景

(1) 平成 29 年 10 月に示された第 3 期がん対策推進基本計画では小児がん医療体制の充実が注目され、ライフステージに応じた対策が求められた。日本小児がん研究グループ(JCCG)が 2014 年に設立され、各病院と中央診断施設の協力で正確な確定診断や治療が可能となったが、小児がんや経験者における生活の質(QOL)の担保については不十分で、早急な体制作りが急務であることが背景にある。歴史的に白血病や脳腫瘍では QOL に関する既報は散見されるが、脳腫瘍以外の小児固形がん領域では QOL に関する報告は乏しい。原疾患や二次腫瘍、循環器、呼吸器疾患での死亡率が高いという報告はあるものの、疾患ごとに QOL、さらに認知機能を詳細に検討した報告は無い。

(2) 研修代表者は JCCG 設立以前より、全国の臨床医・研究者と小児固形がんの QOL 改善について議論し、認知機能に着目して検討を重ねてきた。この方向性が認められ、初期の JCCG 神経芽腫委員会で長期フォローアップ小委員会委員長を拝命し、本研究開始前から現在も継続して“治癒後の QOL”をいかに提供すべきかを研究者たちと議論し続けている。

2. 研究の目的

(1) 今後はまず、大分大学および長期フォローアップ委員会の施設で実施可能な数施設にて研究を開始・継続し、最終的には多くの JCCG 施設で小児固形がん患児の包括的認知機能検査を実施する事を目的とした。

(2) また、単に総合検査を実施して評価する事がゴールではなく、“治癒後の良好な QOL”を担保するために、得られた検査結果を就学・復学時にフィードバックを行うことが必須で医療従事者と教育現場、また行政という三方向での連携をすることがもう一つの目的である。

3. 研究の方法

(1) 第一点は、評価介入時期に注目した。

適切な評価介入時期として就学前と考えており、就学時の相談会で資料として提示し、教員と家族、場合によっては医師や心理士と相談会を開催して患児の教育支援の一環とする。さらに行政とも双方向性の議論を行う。

(2) 小児固形がんの種類に注目した。

小児固形がんは多くの部位に発症し、一律な介入よりも疾患部位や治療に応じた認知機能の特徴をとらえて評価介入する事が妥当であると考えてウエクスラー式を始めとする評価方法：例えばペグボードという方法で異常パターンを検出する。固形がんの種類が特徴的な認知機能評価を示す可能性も有る。また本研究開始当時は固形腫瘍を中心に評価を行っていく予定だったが、疾患コントロールとして、また現在も治療法が変化する小児がんとして小児白血病も対象

とすることが必要となった。

4．研究成果

(1) 小児 AYA 世代固形がんの QOL や予後について、研究代表者らは小児脳腫瘍の中でも代表的な髄芽腫の治療と予後、また放射線量法の頻度などを再確認した [1]。また固形がんのうち代表的な神経芽腫における二次腫瘍と QOL [2]、診断困難による患児や親権者の苦悩などにも着目した [3]。妊孕性低下が極めてがんサバイバーの心理的負担を増加させるため、そのガイドライン作成に携わった [4]。研究分担者の井上らは小児固形腫瘍の Wilms 腫瘍について臨床研究に参加し、多方面から予後評価を行なった [5]。最終年度には、研究代表者らは小児がんサバイバーにおける学習・就職の支援について、行政や教育現場、そして医療従事者に何を求めるのかは疾患や治療内容、合併症の程度などで異なるという知見を得た [6]。現在研究代表者が執筆中の Post Traumatic Growth に着目した論文では WISC などの評価に応じた学習支援の程度によってがんサバイバー自身、また親権者の QOL がどのように変化するかを検討している。

現在も小児がん認知機能評価の事務局は聖路加国際病院の佐藤聡美研究室にあり、本邦全体の小児がんサバイバーを支援している事が望ましい。

(2) 学習支援の体制作りは研究代表者や研究分担者らが実施した。支援が必要な神経発達症に対する学習支援 [7]、がんの子どもを守る会での講演においての啓蒙活動である。また研究分担者の佐藤聡美を中心とし、小児がん患児およびそのサバイバーを対象とした心理士研修会を定期的に開催する事が可能となった。

(3) 本研究開始時の対象疾患は小児 AYA 世代固形がんであったが、研究を進めるにつれて小児血液腫瘍の領域においてもまだ QOL 支援が不十分である事が痛感されたため、並行して白血病の治療成績や QOL 支援についても研究した。

研究代表者らは日本小児白血病研究会 (JACLS) の急性リンパ性白血病 (ALL) 治療研究の成績を通じて良質な QOL が担保できているかも注目して成果を上げつつある。JACLS の ALL-02 プロトコール治療研究における全体的なリスク [8]、また低リスク群 ALL の予後と副反応 [9]、L-アスパラギナーゼ製剤を使用出来なかった患者の合併症や予後 [10, 11]、骨壊死など重篤な副反応と QOL について [12]、また研究代表者を主著とした副反応、なかでも低身長頻度について [13] などである。

(4) 研究期間が延長した主な要因として、COVID-19 の蔓延があった。そのため研究代表者らは COVID-19 パンデミック状態における小児がん診療状況も調査した [14]。

< 引用文献 >

1. Miyahara, H., et al., Topoisomerase II immunoreactivity (IR) co-localizes with neuronal marker-IR but not glial fibrillary acidic protein-IR in GLI3-positive medulloblastomas: an immunohistochemical analysis of 124 medulloblastomas from the Japan Children's Cancer Group. Brain Tumor Pathol, 2021.

2. Hirano, N., et al., Gastric Carcinoma as Second Malignant Neoplasm in a Survivor From High-risk Neuroblastoma. *J Pediatr Hematol Oncol*, 2020. 42(2): p. 160-162.
3. Hirano, N., et al., Bone marrow metastasis of neuroblastoma mimicking purulent osteomyelitis. *Jpn J Clin Oncol*, 2020.
4. Harada, M., et al., Japan Society of Clinical Oncology Clinical Practice Guidelines 2017 for fertility preservation in childhood, adolescent, and young adult cancer patients: part 1. *Int J Clin Oncol*, 2022.
5. Koshinaga, T., et al., Blastemal predominant type Wilms tumor in Japan: Japan Children's Cancer Group. *Pediatr Int*, 2019. 61(4): p. 351-357.
6. Hirano, N., S. Suenobu, and K. Ihara, Multifaceted support for quality of life in childhood cancer survivors: Questionnaire survey. *Pediatr Int*, 2023. 65(1): p. e15706.
7. 佐藤晋治, トークン経済システムを用いた支援の実際と留意点. 自閉症・子育て総合支援センター実践研究紀要, 2019. 60: p. 1-8.
8. Hasegawa, D., et al., Risk-adjusted therapy for pediatric non-T cell ALL improves outcomes for standard risk patients: results of JACLS ALL-02. *Blood Cancer J*, 2020. 10(2): p. 23.
9. Takahashi, Y., et al., JACLS ALL-02 SR protocol reduced-intensity chemotherapy produces excellent outcomes in patients with low-risk childhood acute lymphoblastic leukemia. *Int J Hematol*, 2022.
10. Usami, I., et al., Discontinuation of L-asparaginase and poor response to prednisolone are associated with poor outcome of ETV6-RUNX1-positive pediatric B-cell precursor acute lymphoblastic leukemia. *Int J Hematol*, 2019. 109(4): p. 477-482.
11. Ishida, H., et al., Impact of asparaginase discontinuation on outcomes of children with acute lymphoblastic leukaemia receiving the Japan Association of Childhood Leukaemia Study ALL-02 protocol. *Br J Haematol*, 2023.
12. Moriya, K., et al., The incidence of symptomatic osteonecrosis is similar between Japanese children and children in Western countries with acute lymphoblastic leukaemia treated with a Berlin-Frankfurt-Münster (BFM) 95-based protocol. *Br J Haematol*, 2022. 196(5): p. 1257-1261.
13. Suenobu, S., et al., Early Recovery of Height Velocity in Prepubertal Children With Acute Lymphoblastic Leukemia Treated by a Short Intensive Phase Without Cranial Radiation Therapy. *Journal of Pediatric Hematology/Oncology*, 2020. 42(4): p. 271-274.
14. 東矢, 俊., et al., COVID19 パンデミック下における小児がん診療の現状 ~九州・沖縄ブロック小児がん連携病院における調査~. *日本小児血液・がん学会雑誌*, 2021. 58(2): p. 132-137.

5. 主な発表論文等

〔雑誌論文〕 計36件（うち査読付論文 36件 / うち国際共著 0件 / うちオープンアクセス 15件）

1. 著者名 Harada Miyuki, Suenobu Souichi, et al.	4. 巻 27
2. 論文標題 Japan Society of Clinical Oncology Clinical Practice Guidelines 2017 for fertility preservation in childhood, adolescent, and young adult cancer patients: part 1	5. 発行年 2022年
3. 雑誌名 International Journal of Clinical Oncology	6. 最初と最後の頁 265 ~ 280
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1007/s10147-021-02081-w	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 Oyake Momoko, Suenobu Souichi, Miyawaki Michiyo, Ohchi Yoshifumi, Ihara Kenji	4. 巻 -
2. 論文標題 Airway Emergencies Due to Anterior Mediastinal T-Lymphoblastic Lymphoma Managed With Planned Extracorporeal Membrane Oxygenation and Endotracheal Stent: A Case Report and Literature Review	5. 発行年 2022年
3. 雑誌名 Cureus	6. 最初と最後の頁 -
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.7759/cureus.21799	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている（また、その予定である）	国際共著 -

1. 著者名 Takahashi Yoshihiro, Suenobu Souichi, et al.	4. 巻 115
2. 論文標題 JACLS ALL-02 SR protocol reduced-intensity chemotherapy produces excellent outcomes in patients with low-risk childhood acute lymphoblastic leukemia	5. 発行年 2022年
3. 雑誌名 International Journal of Hematology	6. 最初と最後の頁 890 ~ 897
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1007/s12185-022-03315-x	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 Tozawa Akiko, Suenobu Souichi, et al.	4. 巻 27
2. 論文標題 Japan Society of Clinical Oncology Clinical Practice Guidelines 2017 for fertility preservation in childhood, adolescent, and young adult cancer patients: part 2	5. 発行年 2022年
3. 雑誌名 International Journal of Clinical Oncology	6. 最初と最後の頁 281 ~ 300
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1007/s10147-021-02076-7	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 Imai Chihaya, Sato Atsushi, Hiwatori Mitsuteru, Shimomura Yasuto, Hori Toshinori, Suenobu Souichi, Imamura Toshihiko, Hara Junichi, Hasegawa Daisuke, Takahashi Hiroyuki, Moriya Kunihiko, Katayama Saori, Tomizawa Daisuke, Moritake Hiroshi, Taga Takashi, Horibe Keizo, Koh Katsuyoshi, Manabe Atsushi, Okamoto Yasuhiro	4. 巻 Online ahead of print
2. 論文標題 Outcomes following induction failure in Japanese children with acute lymphoblastic leukemia	5. 発行年 2023年
3. 雑誌名 International Journal of Hematology	6. 最初と最後の頁 -
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1007/s12185-023-03600-3	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 Ishida Hisashi, Imamura Toshihiko, Tatebe Yasuhisa, Ishihara Takashi, Sakaguchi Kimiyoshi, Suenobu Souichi, Sato Atsushi, Hashii Yoshiko, Deguchi Takao, Takahashi Yoshihiro, Hasegawa Daiichiro, Miyamura Takako, Iguchi Akihiro, Kato Koji, Saito Moriya Akiko, Hara Junichi, Horibe Keizo	4. 巻 Online ahead of print
2. 論文標題 Impact of asparaginase discontinuation on outcomes of children with acute lymphoblastic leukaemia receiving the Japan Association of Childhood Leukaemia Study ALL 02 protocol	5. 発行年 2023年
3. 雑誌名 British Journal of Haematology	6. 最初と最後の頁 -
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1111/bjh.18745	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 Kimura Yuka, Kiyota Kyoko, Koga Hiroshi, Suenobu Souichi, Ihara Kenji	4. 巻 64
2. 論文標題 Renal lesions mimicking acute focal bacterial nephritis in pediatric leukemia	5. 発行年 2021年
3. 雑誌名 Pediatrics International	6. 最初と最後の頁 -
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1111/ped.14838	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 Moriya Kunihiko, Suenobu Souichi, et al, Japan Association of Childhood Leukemia Study Group (JACLS)	4. 巻 196
2. 論文標題 The incidence of symptomatic osteonecrosis is similar between Japanese children and children in Western countries with acute lymphoblastic leukaemia treated with a Berlin Frankfurt Munster (BFM)95 based protocol	5. 発行年 2021年
3. 雑誌名 British Journal of Haematology	6. 最初と最後の頁 1257 ~ 1261
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1111/bjh.17988	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 Oyake Momoko、Itonaga Tomoyo、Hirano Naoki、Suenobu Souichi、Ihara Kenji	4. 巻 63
2. 論文標題 Hydrocortisone improved dexamethasone induced neuropsychological adverse effects	5. 発行年 2021年
3. 雑誌名 Pediatrics International	6. 最初と最後の頁 339 ~ 342
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1111/ped.14413	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 東矢 俊一郎、右田 昌宏、興梠 健作、舩越 康智、末延 聡一、齋藤 祐介、新小田 雄一、比嘉 猛、百名 伸之、唐川 修平、武本 淳吉、古賀 友紀、大賀 正一、岡本 康裕、野村 優子、中山 秀樹、大園 秀一、本田 裕子、興梠 雅彦、西 真範	4. 巻 58
2. 論文標題 COVID19パンデミック下における小児がん診療の現状	5. 発行年 2021年
3. 雑誌名 日本小児血液・がん学会雑誌	6. 最初と最後の頁 132 ~ 137
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.11412/jspho.58.132	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 Hasegawa Daiichiro、Imamura Toshihiko、Yumura-Yagi Keiko、Takahashi Yoshihiro、Usami Ikuya、Suenobu So-ichi、etal.	4. 巻 10
2. 論文標題 Risk-adjusted therapy for pediatric non-T cell ALL improves outcomes for standard risk patients: results of JACLS ALL-02	5. 発行年 2020年
3. 雑誌名 Blood Cancer Journal	6. 最初と最後の頁 23 ~ 23
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1038/s41408-020-0287-4	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 Hirano Naoki、Goto Hironori、Suenobu Souichi、Ihara Kenji	4. 巻 50
2. 論文標題 Bone marrow metastasis of neuroblastoma mimicking purulent osteomyelitis	5. 発行年 2020年
3. 雑誌名 Japanese Journal of Clinical Oncology	6. 最初と最後の頁 1227 ~ 1228
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1093/jjco/hyaa046	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 Hirano Naoki、Nishikawa Kazuo、Hiratsuka Takahiro、Suenobu Souichi、Ihara Kenji	4. 巻 42
2. 論文標題 Gastric Carcinoma as Second Malignant Neoplasm in a Survivor From High-risk Neuroblastoma	5. 発行年 2020年
3. 雑誌名 Journal of Pediatric Hematology/Oncology	6. 最初と最後の頁 160 ~ 162
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1097/mp.0000000000001409	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 Suenobu Souichi、Goto Hironori、Hirano Naoki、Sonoda Tomoko、Izumi Tatsuro、Ihara Kenji	4. 巻 42
2. 論文標題 Early Recovery of Height Velocity in Prepubertal Children With Acute Lymphoblastic Leukemia Treated by a Short Intensive Phase Without Cranial Radiation Therapy	5. 発行年 2020年
3. 雑誌名 Journal of Pediatric Hematology/Oncology	6. 最初と最後の頁 271 ~ 274
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1097/mp.0000000000001695	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 Miyahara Hiroaki、Natsumeda Manabu、Kanemura Yonehiro、Suenobu Souichi、etal.	4. 巻 38
2. 論文標題 Topoisomerase II immunoreactivity (IR) co-localizes with neuronal marker-IR but not glial fibrillary acidic protein-IR in GLI3-positive medulloblastomas: an immunohistochemical analysis of 124 medulloblastomas from the Japan Children's Cancer Group	5. 発行年 2021年
3. 雑誌名 Brain Tumor Pathology	6. 最初と最後の頁 109 ~ 121
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1007/s10014-021-00396-0	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 Sakamoto Atsushi、Ishiguro Akira、Fukuda Akinari、Sakamoto Seisuke、Suenobu So-ichi、Matsumoto Tomoko、Nogami Keiji、Ohga Shouichi、Kasahara Mureo	4. 巻 -
2. 論文標題 Liver transplantation for congenital protein C deficiency with initial poor graft function: a case report with literature review	5. 発行年 2021年
3. 雑誌名 International Journal of Hematology	6. 最初と最後の頁 -
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1007/s12185-021-03103-z	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 TANAKA Kazuhiro, ANAN Masaya, TSUBOUCHI Yuta, IWASAKI Tatsuya, KAWANO Masanori, ITONAGA Ichiro, IKEDA Shinichi, KATAOKA Masashi, SUENOBU Souichi, TSUMURA Hiroshi	4. 巻 57
2. 論文標題 Gait analysis of a patient who underwent complete resection of the patella and quadriceps femoris for soft tissue sarcoma	5. 発行年 2021年
3. 雑誌名 European Journal of Physical and Rehabilitation Medicine	6. 最初と最後の頁 298 ~ 302
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.23736/s1973-9087.21.06395-4	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 Goto Hironori, Hirano Naoki, Kadowaki Hiroko, Suenobu Souichi, Ihara Kenji	4. 巻 61
2. 論文標題 Clinical features of infantile subcutaneous panniculitis like T cell lymphoma	5. 発行年 2019年
3. 雑誌名 Pediatrics International	6. 最初と最後の頁 1261 ~ 1262
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1111/ped.14017	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている (また、その予定である)	国際共著 -

1. 著者名 Ishimaru Sae, Okamoto Yasuhiro, Imai Chihaya, Sakaguchi Hiroto, Taki Tomohiko, Hasegawa Daisuke, Cho Yuko, Kakuda Harumi, Sano Hideki, Manabe Atsushi, Imamura Toshihiko, Kato Motohiro, Arakawa Yuki, Shimonodan Hidemi, Sato Atsushi, Suenobu Souichi, et al.	4. 巻 61
2. 論文標題 Nationwide survey of pediatric hypodiploid acute lymphoblastic leukemia in Japan	5. 発行年 2019年
3. 雑誌名 Pediatrics International	6. 最初と最後の頁 1103 ~ 1108
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1111/ped.14006	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている (また、その予定である)	国際共著 -

1. 著者名 Goto, Hironori, Hirano, Naoki, Inoue, Masanori, Takano, Kuniko, Ogata, Masao, Kishida, Tetsuko, Arakane, Motoki, Daa, Tsutomu, Nishida, Yoshihiro, Suenobu, Souichi et al.	4. 巻 189
2. 論文標題 Immune escape by loss of heterozygosity of HLA genes facilitated the transmission of diffuse large B cell lymphoma from mother to offspring	5. 発行年 2020年
3. 雑誌名 Br J Haematol	6. 最初と最後の頁 -
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1111/bjh.16662	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている (また、その予定である)	国際共著 -

1. 著者名 Koshinaga Tsugumichi, Takimoto Tetsuya, Okita Hajime, Tanaka Yukichi, Inoue Eisuke, Oue Takaharu, Nozaki Miwako, Tsuchiya Kunihiro, Haruta Masayuki, Kaneko Yasuhiko, Fukuzawa Masahiro	4. 巻 61
2. 論文標題 Blastemal predominant type Wilms tumor in Japan: Japan Children's Cancer Group	5. 発行年 2019年
3. 雑誌名 Pediatrics International	6. 最初と最後の頁 351 ~ 357
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1111/ped.13811	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている (また、その予定である)	国際共著 -

1. 著者名 Sunakawa Yu, Inoue Eisuke, Matoba Ryo, Kawakami Hisato, Sato Yoshiharu, Nakajima Takako Eguchi, Muro Kei, Ichikawa Wataru, Fujii Masashi	4. 巻 15
2. 論文標題 DELIVER (JACCRO GC-08) trial: discover novel host-related immune-biomarkers for nivolumab in advanced gastric cancer	5. 発行年 2019年
3. 雑誌名 Future Oncology	6. 最初と最後の頁 2441 ~ 2447
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.2217/fon-2019-0167	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている (また、その予定である)	国際共著 -

1. 著者名 Tsutsumi Shuntaro, Sato Tomoo, Yagishita Naoko, Yamauchi Junji, Araya Natsumi, Hasegawa Daisuke, Nagasaka Misako, Coler-Reilly Ariella L. G., Inoue Eisuke, Takata Ayako, Yamano Yoshihisa	4. 巻 14
2. 論文標題 Real-world clinical course of HTLV-1-associated myelopathy/tropical spastic paraparesis (HAM/TSP) in Japan	5. 発行年 2019年
3. 雑誌名 Orphanet Journal of Rare Diseases	6. 最初と最後の頁 61
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1186/s13023-019-1212-4	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている (また、その予定である)	国際共著 -

1. 著者名 Yamauchi Junji, Sato Tomoo, Yagishita Naoko, Araya Natsumi, Hasegawa Daisuke, Tsutsumi Shuntaro, Nagasaka Misako, Coler-Reilly Ariella, Inoue Eisuke, Takata Ayako, Hasegawa Yasuhiro, Yamano Yoshihisa	4. 巻 91
2. 論文標題 Use of cerebrospinal fluid CXCL10 and neopterin as biomarkers in HTLV-1-associated myelopathy/tropical spastic paraparesis treated with steroids	5. 発行年 2019年
3. 雑誌名 Journal of Neurology, Neurosurgery & Psychiatry	6. 最初と最後の頁 321 ~ 323
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1136/jnnp-2019-321955	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている (また、その予定である)	国際共著 -

1. 著者名 古畑 裕基, 小山 雄三, 草場 敬浩, 門脇 裕子, 平野 直樹, 西田 陽登, 初井 泰朋, 未延 聡一, 駄阿 勉	4. 巻 36
2. 論文標題 化学放射線療法後に腫瘍細胞の成熟化を認めた高度結節性髄芽腫の1例	5. 発行年 2019年
3. 雑誌名 診断病理	6. 最初と最後の頁 324-330
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) なし	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 佐藤晋治	4. 巻 60
2. 論文標題 トークン経済システムを用いた支援の実際と留意点	5. 発行年 2019年
3. 雑誌名 自閉症・子育て総合支援センター実践研究紀要	6. 最初と最後の頁 1-8
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) なし	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 Usami Ikuya, Imamura Toshihiko, Takahashi Yoshihiro, Suenobu Souichi, et al.	4. 巻 109
2. 論文標題 Discontinuation of l-asparaginase and poor response to prednisolone are associated with poor outcome of ETV6-RUNX1-positive pediatric B-cell precursor acute lymphoblastic leukemia	5. 発行年 2019年
3. 雑誌名 International Journal of Hematology	6. 最初と最後の頁 477 ~ 482
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1007/s12185-019-02599-w	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている (また、その予定である)	国際共著 -

1. 著者名 Hirano Naoki, Nishikawa Kazuo, Hiratsuka Takahiro, Suenobu Souichi, Ihara Kenji	4. 巻 Epub ahead of print
2. 論文標題 Gastric Carcinoma as Second Malignant Neoplasm in a Survivor From High-risk Neuroblastoma	5. 発行年 2019年
3. 雑誌名 Journal of Pediatric Hematology/Oncology	6. 最初と最後の頁 1 ~ 1
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1097/MPH.0000000000001409	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている (また、その予定である)	国際共著 -

1. 著者名 Sakata Naoki, Suenobu So-ichi, Okano Munehiro, Ueda Satoshi, Kimura Masatomo, Takemura Tsukasa	4. 巻 10
2. 論文標題 Impact of sirolimus treatment for refractory kaposiform hemangioendothelioma with exacerbation of the disease 10 years after initial diagnosis	5. 発行年 2018年
3. 雑誌名 Rare Tumors	6. 最初と最後の頁 2.03636E+14
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1177/2036361318776185	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている (また、その予定である)	国際共著 -

1. 著者名 Takeguchi Masahiro, Kusumoto Satoshi, Sekiguchi Kazuhito, Suenobu Souichi, Ihara Kenji	4. 巻 12
2. 論文標題 Predicting Long-Term Ventricular Arrhythmia Risk in Children with Acute Lymphoblastic Leukemia Using Normal Values of Ventricular Repolarization Markers Established from Japanese Cohort Study	5. 発行年 2023年
3. 雑誌名 Journal of Clinical Medicine	6. 最初と最後の頁 4723 ~ 4723
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.3390/jcm12144723	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている (また、その予定である)	国際共著 -

1. 著者名 Sato Atsushi, Hatta Yoshihiro, Imai Chihaya, Oshima Koichi, Okamoto Yasuhiro, Deguchi Takao, Hashii Yoshiko, Fukushima Takashi, Hori Toshinori, Kiyokawa Nobutaka, Kato Motohiro, Saito Shoji, Anami Kenichi, Sakamoto Tatsuhiro, Kosaka Yoshiyuki, Suenobu Souichi, et al.	4. 巻 10
2. 論文標題 Nelarabine, intensive L-asparaginase, and protracted intrathecal therapy for newly diagnosed T-cell acute lymphoblastic leukaemia in children and young adults (ALL-T11): a nationwide, multicenter, phase 2 trial including randomisation in the very high-risk group	5. 発行年 2023年
3. 雑誌名 The Lancet Haematology	6. 最初と最後の頁 e419 ~ e432
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1016/S2352-3026(23)00072-8	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている (また、その予定である)	国際共著 -

1. 著者名 Shuto Marie, Hirano Naoki, Oguri Saori, Itonaga Tomoyo, Inoue Masanori, Suenobu Souichi, Ihara Kenji	4. 巻 191
2. 論文標題 Acute myeloid leukemia associated with CHARGE syndrome	5. 発行年 2022年
3. 雑誌名 American Journal of Medical Genetics Part A	6. 最初と最後の頁 878 ~ 881
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1002/ajmg.a.63087	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている (また、その予定である)	国際共著 -

1. 著者名 Hirano Naoki, Suenobu Souichi, Ihara Kenji	4. 巻 65
2. 論文標題 Multifaceted support for quality of life in childhood cancer survivors: Questionnaire survey	5. 発行年 2023年
3. 雑誌名 Pediatrics International	6. 最初と最後の頁 e15706
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1111/ped.15706	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 Suenobu Souichi, Terashima Keita, Akiyama Masaharu, Oguri Tomoyo, Watanabe Asako, Sugeno Masatoshi, Higashimori Mitsuo, So Karen, Nishida Yoshihiro	4. 巻 5
2. 論文標題 Selumetinib in Japanese pediatric patients with neurofibromatosis type 1 and symptomatic, inoperable plexiform neurofibromas: An open-label, phase I study	5. 発行年 2023年
3. 雑誌名 Neuro-Oncology Advances	6. 最初と最後の頁 vdad054
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1093/oaajnl/vdad054	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている (また、その予定である)	国際共著 -

1. 著者名 Shima Haruko, Sato Satomi, Takimoto Tetsuya, Sakai Michiko, Hashida Noriko, Isshiki Kyohei, Shimada Hiroyuki	4. 巻 65
2. 論文標題 Neurocognitive outcomes of children with osteosarcoma treated with methotrexate	5. 発行年 2023年
3. 雑誌名 Pediatrics International	6. 最初と最後の頁 e15487
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1111/ped.15487	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

1. 著者名 Matsumoto Mio, Oyake Momoko, Itonaga Tomoyo, Maeda Miwako, Suenobu Soichi, Sato Daichi, Sasahara Yoji, Mishima Hiroyuki, Yoshiura Koh-Ichiro, Ihara Kenji	4. 巻 69
2. 論文標題 Characteristic phenotypes of ADH5/ALDH2 deficiency during childhood	5. 発行年 2024年
3. 雑誌名 European Journal of Medical Genetics	6. 最初と最後の頁 104939 ~ 104939
掲載論文のDOI (デジタルオブジェクト識別子) 10.1016/j.ejmg.2024.104939	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 -

〔学会発表〕 計23件（うち招待講演 14件 / うち国際学会 1件）

1. 発表者名 佐藤聡美
2. 発表標題 研究と支援の進捗状況報告 (WISC-V)
3. 学会等名 小児がん心理士研修会
4. 発表年 2023年

1. 発表者名 佐藤晋治、佐藤百合子
2. 発表標題 WISC-V よりよい支援を求めて
3. 学会等名 日本学校心理士会大分支部2023年度第一回研修会（招待講演）
4. 発表年 2023年

1. 発表者名 下之段秀美、石原卓、坂口公祥、岡本康裕、末延聡一
2. 発表標題 本邦でのアスパラギナーゼに対するSilent Inactivation発生率 ALL-ASP19
3. 学会等名 日本血液学会学術集会
4. 発表年 2023年

1. 発表者名 後藤洋徳、末延聡一、古賀友紀、山本亮介、長谷川大一郎、宇佐美郁哉ほか
2. 発表標題 小児急性骨髄性白血病におけるH3K27me3の低下は高リスクであり特異的な遺伝子異常を示す
3. 学会等名 日本血液学会学術集会
4. 発表年 2023年

1. 発表者名 若山愛海、西林隼人、小宅桃子、平野直樹、未延聡一、井原健二
2. 発表標題 顔面神経麻痺を初発症状としたT細胞性急性リンパ性白血病の女児例
3. 学会等名 日本小児科学会大分地方会
4. 発表年 2023年

1. 発表者名 Chihaya Imai, Souichi Suenobu et al.
2. 発表標題 Induction Failure in Children with Acute Lymphoblastic Leukemia in Japan. -CCLSG / KYCCSG / JACLS / TCCSG joint study
3. 学会等名 54th Annual SIOP (International Society of Paediatric Oncology) Congress (国際学会)
4. 発表年 2022年

1. 発表者名 未延聡一、飯田浩一、豊福一輝、首藤成彦
2. 発表標題 平成30年8月4日政府訓練 リエゾン活動報告と、その後の 体制構築 -大分県-
3. 学会等名 九州小児周産期リエゾン研究会 (招待講演)
4. 発表年 2019年

1. 発表者名 未延聡一
2. 発表標題 虐待等を受けた患者 への対応について
3. 学会等名 大分大学医学部附属病院講演 (招待講演)
4. 発表年 2019年

1. 発表者名 末延聡一
2. 発表標題 小児がんの晩期合併症と 就学・就業支援について
3. 学会等名 がんの子どもを守る会宮崎支部講演会（招待講演）
4. 発表年 2019年

1. 発表者名 末延聡一
2. 発表標題 学校医・学校保健担当者が知っておくべき がん教育の在り方と 基礎知識
3. 学会等名 第63回九州ブロック学校保健・学校医大会（招待講演）
4. 発表年 2019年

1. 発表者名 末延聡一
2. 発表標題 防げる小児の死亡を「0(ゼロ)」にするために
3. 学会等名 大分県地域保健協議会（招待講演）
4. 発表年 2019年

1. 発表者名 玉井 資、後藤洋徳、平野直樹、末延聡一、井原健二
2. 発表標題 急性骨髄性白血病を発症したOllier病の15歳男児
3. 学会等名 西日本免疫血液腫瘍研究会
4. 発表年 2019年

1. 発表者名 末延聡一
2. 発表標題 小児の代表的な慢性疾病と 集団生活での注意点について
3. 学会等名 小児慢性特定疾病児童等自立支援事業関係者研修会（招待講演）
4. 発表年 2019年

1. 発表者名 末延聡一
2. 発表標題 児童生徒へのがん教育 について -学校保健関係者が知っておくべき事-
3. 学会等名 大分県医師会講演会（招待講演）
4. 発表年 2019年

1. 発表者名 佐藤晋治
2. 発表標題 自主シンポジウム：関係を育てる絵本の読みあい遊びと自立活動2 -力を伸ばすための教育ではなく手持ちの力を使って生きるための教育を問う- . 指定討論：そしてやっぱり、その子にとっての生きる意味は？
3. 学会等名 一般社団法人日本特殊教育学会第57回大会 2019年9月23日（招待講演）
4. 発表年 2019年

1. 発表者名 佐藤晋治
2. 発表標題 ラウンドテーブル：「絵本の読み合い遊び」と自立活動 遊び心を教育の観点に取り入れることの成果と課題 . ファシリテーター：自立活動における遊び心 - 知的障がい特別支援学級での「自分のことを英語で伝え合おう」から考える -
3. 学会等名 一般社団法人日本発達心理学会第31回大会 2020年3月2日（招待講演）
4. 発表年 2020年

1. 発表者名 Hironori Goto, Naoki Hirano, Hiroko Kadowaki, Tsutomu Daa, Souichi Suenobu, Kenji Ihara.
2. 発表標題 Unique clinical features of infantile subcutaneous panniculitis-like T-cell lymphoma: A case report and review of the literature
3. 学会等名 第61回 日本小児血液・がん学会
4. 発表年 2019年

1. 発表者名 平野直樹、後藤洋徳、未延聡一、井原健二
2. 発表標題 小児がん経験者のQOL 改善に向けた医療・教育・行政支援体制の検討
3. 学会等名 第61回 日本小児血液・がん学会
4. 発表年 2019年

1. 発表者名 Akira Shimada, Daiichiro Hasegawa, Toshihiko Imamura, Makoto Kaneda, Keiko Yagi, Yoshihiro Takahashi, Ikuya Usami, Souichi Suenobu, et al.
2. 発表標題 Genetic Alterations in Acute Mixed Leukemia, Result of JACLS-ALL02 study
3. 学会等名 第61回 日本小児血液・がん学会
4. 発表年 2019年

1. 発表者名 未延聡一
2. 発表標題 CPT の すゝめ ~ 病院内の体制と児童相談所との連携 ~
3. 学会等名 救急医療・児童相談所勉強会 (招待講演)
4. 発表年 2020年

1. 発表者名 末延聡一
2. 発表標題 神経芽腫長期フォローアップ委員会報告
3. 学会等名 2019年度 JCCG固形腫瘍分科会 合同研究会議（招待講演）
4. 発表年 2020年

1. 発表者名 末延聡一
2. 発表標題 小児がんの晩期合併症とは
3. 学会等名 エゴノキワークショップ5（招待講演）
4. 発表年 2018年

1. 発表者名 末延聡一
2. 発表標題 診断早期から必要な就学支援 ～健全に社会へと船出するために～
3. 学会等名 小児慢性特定疾病児童等保護者交流会（招待講演）
4. 発表年 2018年

〔図書〕 計3件

1. 著者名 日本小児血液・がん学会編集：分担者 末延聡一他	4. 発行年 2022年
2. 出版社 診断と治療社	5. 総ページ数 612
3. 書名 小児血液・腫瘍学改訂第2版	

1. 著者名 前田尚子、未延聡一、他	4. 発行年 2021年
2. 出版社 クリニコ出版	5. 総ページ数 416
3. 書名 小児がん治療後の長期フォローアップガイド	

1. 著者名 井上永介（システマティックレビュー委員）、日本神経学会、日本神経治療学会、日本神経免疫学会、日本神経感染症学会、日本HTLV-1学会、日本移植学会	4. 発行年 2019年
2. 出版社 南江堂	5. 総ページ数 214
3. 書名 HTLV-1関連脊髄症（HAM）診療ガイドライン2019	

〔産業財産権〕

〔その他〕

<p>大分大学研究シーズ集 小児がんを克服するための研究 https://www.ico.oita-u.ac.jp/seeds/seeds.php?no=137 大分大学医学部 小児科学講座 https://www.oita-ped.jp/index.html 大分大学医学部 小児科学教室 医局員紹介 https://www.oita-ped.jp/about/member/suenobu-s.html 大分大学医学部 小児科学講座 https://www.oita-ped.jp/</p>
--

6. 研究組織			
	氏名 (ローマ字氏名) (研究者番号)	所属研究機関・部局・職 (機関番号)	備考
研究分担者	佐藤 聡美 (Sato Satomi) (50597804)	聖路加国際大学・専門職大学院公衆衛生学研究科（公衆衛生大学院）・准教授 (32633)	

6. 研究組織（つづき）

	氏名 (ローマ字氏名) (研究者番号)	所属研究機関・部局・職 (機関番号)	備考
研究分担者	瀧本 哲也 (Takimoto Tetsuya) (40393178)	国立研究開発法人国立成育医療研究センター・研究所小児がん疫学臨床研究センター・室長 (82612)	
研究分担者	高野 政子 (Takano Masako) (30316195)	福岡国際医療福祉大学・看護学部・教授 (37130)	
研究分担者	井上 永介 (Inoue Eisuke) (50528338)	昭和大学・その他部局等・教授 (32622)	
研究分担者	佐藤 晋治 (Sato Shinji) (90323237)	大分大学・大学院教育学研究科・教授 (17501)	
研究分担者	浦山 ケビン (Urayama Kevin) (60726850)	国立研究開発法人国立成育医療研究センター・社会医学研究部・シニアフェロー (82612)	

7. 科研費を使用して開催した国際研究集会

〔国際研究集会〕 計0件

8. 本研究に関連して実施した国際共同研究の実施状況

共同研究相手国	相手方研究機関