

(研究報告書)

2022-A-15 希少がん医療におけるエビデンスの創出と活用に関する研究

川井 章

中央病院 骨軟部腫瘍・リハビリテーション科

研究の分野名

後期開発・標準治療開発分野

研究の概要

希少がんの治療成績向上のためには、エビデンスに基づく最適な診療が全ての希少がんに対して行われるようにすること（診療状況の改善）、新規治療開発を促進すること（治療開発）など、いくつかの課題を並行して解決してゆく必要がある。しかし、実際には、患者数の少ない希少がんにおいては第3相試験などに基づく高いエビデンスの確立自体が困難なことも事実である。そのような状況の中で、本研究においては、まず希少がんにおいてこれまで明らかにされていない新たなエビデンス（疫学、診療実態、臨床研究上の課題等）を構築するための方法を検討し、実際にエビデンスを作りだすことを目指す。さらに、これらのエビデンスの上に立って希少がんの診療を適切に実施することができる医療者の育成に関する研究を行うとともに、希少がんにおいてこそ重要な意義を有する可能性のあるゲノム解析を希少がん（肉腫/骨軟部腫瘍）の新たなエビデンスの創出に繋げるための研究を行う。最後に、希少がん医療の向上のために必要と考えられるこれらさまざまな取り組みをどのように進めてゆくことが必要か、中・長期的な目標、実現可能な希少がん医療のあるべき姿など、多角的な視点から長期的視野に立った希少がん行動計画を作成することを目指す。

具体的には、以下の7課題に関する研究を行う。

1. がん登録等を活用した我が国における希少がんの疫学・診療実態に関する研究
2. 希少がん情報提供・診療支援のデータから見た希少がん患者への情報提供手段に関する研究
3. JCOGにおける希少がん研究の分析に関する研究
4. 国際共同研究による希少がんに関するエビデンス創出に関する研究
5. 希少がん診療に携わる医療者の育成に関する研究
6. ゲノム解析を希少がんの新たなエビデンス・ネットワーク構築に繋げるための研究
7. 希少がん行動計画 2030 の作成

研究経費

8,008 千円

研究班の組織

研究者名	所属研究機関名・職名	分担研究課題名
川井 章 (研究代表者)	国立がん研究センター中央病院・ 骨軟部腫瘍リハビリテーション 科・科長	全体統括

平野秀和	国立がん研究センター中央病院・消化管内科・医員	がん登録等を活用した我が国における希少がんの疫学・診療実態に関する研究
岩田慎太郎	国立がん研究センター中央病院・骨軟部腫瘍リハビリテーション科・医長	がん登録等を活用した我が国における希少がんの疫学・診療実態に関する研究
森實千種	国立がん研究センター中央病院・肝胆膵内科・医長	がん登録等を活用した我が国における希少がんの疫学・診療実態に関する研究
山崎直也	国立がん研究センター中央病院皮膚腫瘍科・科長	がん登録等を活用した我が国における希少がんの疫学・診療実態に関する研究
成田善孝	国立がん研究センター中央病院脳脊髄腫瘍科・科長	がん登録等を活用した我が国における希少がんの疫学・診療実態に関する研究
吉本世一	国立がん研究センター中央病院・頭頸部外科・科長	がん登録等を活用した我が国における希少がんの疫学・診療実態に関する研究
力武諒子	国立がん研究センター がん対策研究所医療政策部 希少がん支援室・研究員	がん登録等を活用した我が国における希少がんの疫学・診療実態に関する研究
鈴木茂伸	国立がん研究センター中央病院・眼腫瘍科・科長	がん登録等を活用した我が国における希少がんの疫学・診療実態に関する研究
東尚弘	国立がん研究センターがん対策研究所がん登録センター・センター長	がん登録等を活用した我が国における希少がんの疫学・診療実態に関する研究
吉田朗彦	国立がん研究センター中央病院・病理診断科・医員	がん登録等を活用した我が国における希少がんの疫学・診療実態に関する研究
後藤悌	国立がん研究センター中央病院・呼吸器内科・医長	希少がん情報提供・診療支援のデータから見た希少がん患者への情報提供手段に関する研究
棟方理	国立がん研究センター中央病院・血液腫瘍科・医長	希少がん情報提供・診療支援のデータから見た希少がん患者への情報提供手段に関する研究

加藤陽子	国立がん研究センター希少がんセンター・看護師	希少がん情報提供・診療支援のデータから見た希少がん患者への情報提供手段に関する研究
小林英介	国立がん研究センター中央病院・骨軟部腫瘍リハビリテーション科・医長	希少がん診療に携わる医療者の育成に関する研究
平田真	国立がん研究センター 中央病院・遺伝子診療部門・医長	ゲノム解析を希少がんの新たなエビデンス・ネットワーク構築に繋げるための研究
水澤純基	国立がん研究センター研究支援センター生物統計部 生物統計室・室長	JCOG における希少がん研究の分析に関する研究
佐野裕亮	国立がん研究センター臨床研究支援部門 研究企画推進部 多施設研究支援室・レジデント	JCOG における希少がん研究の分析に関する研究
小倉浩一	国立がん研究センター中央病院・骨軟部腫瘍リハビリテーション科・医員	国際共同研究による希少がんに関するエビデンス創出に関する研究
内藤陽一	国立がん研究センター東病院 総合内科・科長	国際共同研究による希少がんに関するエビデンス創出に関する研究

研究の目的と到達目標及び実績要点

全期間

(目的と到達目標)

本研究は、次の7課題に関する研究を行う。

1. がん登録等を活用した我が国における希少がんの疫学・診療実態に関する研究
具体的な個々の希少がん（脳腫瘍、眼腫瘍、頭頸部腫瘍、肝胆膵腫瘍、GIST、肉腫、皮膚腫瘍）について全国がん登録その他を活用して、我が国における疫学・診療実態を明らかにすること
2. 希少がん情報提供・診療支援のデータから見た希少がん患者への情報提供手段に関する研究
希少がんに関する情報提供、診療支援の活動から得られたデータを解析し、希少がん患者が真に必要なとしている医療情報ニーズや適切な提供方法を明らかにする
3. JCOG における希少がん研究の分析に関する研究
希少がん領域の過去の臨床試験のデザインや患者登録状況、参加医療機関数及び医療機関毎の登録数などの定量的分析結果を提示すると共に、患者数の多いがん領域の臨床試験との違いを明らかにする。また、分析結果に基づき希少がん臨床試験実施上の課題を提示する
4. 国際共同研究による希少がんに関するエビデンス創出に関する研究

【GIST】

- ①GIST 診療に関するアジアコンセンサスガイドラインの改訂版を作成する。

②イマチニブ投与中の進行 GIST に対する腫瘍減量手術の臨床的有用性を評価する国際多施設共同後方視的研究を実施する。

③国際連携にむけた国内 GIST レジストリー研究の基盤整備を行う。

【肉腫】

『肉腫国際共同研究コンソーシアム（仮名）』を、実際の共同研究の実施を通して、より成熟したものとする。定期的なテレカンファレンスを通して、エビデンスレベルの高い研究を研究終了時まで実施する。

5. 希少がん診療に携わる医療者の育成に関する研究

①医学部生に対して、希少がんに関する認知度調査を行うとともに、教育的デバイスや SNS を用いた希少がんの啓蒙活動を行う。

②がん専門病院における希少がんの臨床教育制度の実態調査を行い、その課題を明らかにする。

③希少がんを診療することが少ない臨床の現場における適切な紹介行動を支援するための方策を検討する。

6. ゲノム解析を希少がんの新たなエビデンス・ネットワーク構築に繋げるための研究

JSGC を母体として、日本の肉腫/骨軟部腫瘍ゲノムデータベース（全ゲノム、全エクソン、遺伝子パネル、RNA シークエンス、臨床情報の統合）を構築する。

7. 希少がん行動計画 2030 の作成

希少がん医療の向上のために必要と考えられるさまざまな取り組みをどのように進めていくことが必要か、中・長期的な目標、実現可能な希少がん医療のあるべき姿はどのようなものか、多角的な視点から、長期的な視野に立った提言書『希少がん行動計画 2030』を纏めることを目標とする。

当該年次

（到達目標）

1. がん登録等を活用した我が国における希少がんの疫学・診療実態に関する研究

【脳腫瘍】

全国がん登録データを用いて脳腫瘍・脊髄腫瘍の正確な発生頻度を明らかにする。

【眼腫瘍】

全国がん登録データを用いて眼腫瘍の登録数および内容を分析する。

【頭頸部腫瘍】

頭頸部肉腫の我が国の罹患率や年齢分布について論文発表する。予後、施設分布や治療内容等の解析を行う。

【肝胆膵腫瘍】

他の臓器グループと連携して、予後情報まで付帯した希少がんの診療実態に関する情報を全国がん登録事務局に申請し、論文を作成する。

【GIST】

GIST に関連する全国がん登録情報を解析する。

STAR ReGISTry の追跡調査を継続。腫瘍破裂症例の臨床病理組織学的特徴や wild type GIST の遺伝子異常プロファイリング情報を解析する。

【肉腫】

ガイドライン等を元に専門家パネル委員会で QI を完成させる。

【皮膚腫瘍】

5 種の皮膚腫瘍の 2018 年以降の全国がん登録データ及び 2016 年からの悪性黒色種、有棘細胞がん、基底細胞がんのデータ分析を行う。

2. 「ホットライン」等のデータを解析し、希少がん患者の医療情報ニーズを明らかにする。

3. 本研究における「希少がん領域」の定義を検討し、過去の JCOG 試験を「希少がん領域の臨床試験」に該当するもの・そうでないものへ分別する。

4. 【GIST】

①アジアコンセンサスガイドラインの改訂：各国エキスパートメンバーと CQ・推奨文に関するコンセンサスを形成する。

②国際連携にむけた国内 GIST レジストリー研究の基盤整備を行う。

【肉腫】

進行中の研究の論文発表とともに、新規研究を募集する。

5. 希少がんの医療従事者の教育制度に関して、アンケート調査を進める。

6. JSGC 肉腫/骨軟部腫瘍ゲノムデータベースのデータ構造、項目等を決定する。データベース利用に関する規約を作成する。
7. 『希少がん行動計画 2030』策定委員会を組織し、編集方針、執筆者などを検討する。

(年次評価時点の実績要点)

1. がん登録等を活用した我が国における希少がんの疫学・診療実態に関する研究

【脳腫瘍】

全国がん登録が 2016 年より開始され、原発性脳脊髄腫瘍については、良性腫瘍を含むすべての腫瘍が登録されることとなった。2016～2019 年の頭蓋内脳腫瘍の全罹患数は平均 29,492 人で、人口 10 万人あたりの粗罹患率は 23.30 であった。ICD-O-3 に基づく悪性脳腫瘍は 22.7%で、悪性脳腫瘍・良性脳腫瘍の粗罹患率は 5.29 人・18.01 人であった。2000 年の米国人口に合わせた年齢調整罹患率は米国で 24.25 だが、日本人は 17.15 で、日本人の脳腫瘍発生頻度は米国の 70.7%であることが判明した。

1 年当たりの罹患患者数の平均は、髄膜腫が 10,537 人(35.7%)、下垂体腫瘍が 4,802 人(16.3%)、神経上皮性腫瘍が 4,537 人(15.4%) (膠芽腫は 2,071 人)、神経鞘腫が 2,730 人(9.3%)、悪性リンパ腫が 1,166 人(4.0%)であった。非手術症例など組織不明が 14.2%存在した。

14 歳以下の小児脳腫瘍は年平均 724 人の発生で、神経上皮性腫瘍が 368 人(50.9%)、胚細胞腫瘍が 78 人(10.7%)、頭蓋咽頭腫が 44 人(6.1%)であった。

【頭頸部腫瘍】

全国がん登録と院内がん登録、頭頸部全国悪性腫瘍登録（臓器がん登録）を用いて頭頸部肉腫の我が国の罹患率や年齢分布、部位・組織分布を明らかにし、学会発表を行った。院内がん登録では全国がん登録では得られない施設分布や予後、進行度について明らかにした。頭頸部外科学会認定施設と非認定施設で比較したところ、7 割以上の症例が認定施設で治療が行われていること、より進行度が高い症例が治療されていること、予後も認定施設の方が良好であることが明らかとなった。院内がん登録は全国がん登録の 7～8 割程度の登録数のため、全国がん登録での予後データ解析も今後行う。また、院内がん登録を用いて、肉腫に限らず頭頸部腫瘍の希少がんについての解析も継続して実施中である。

【肝胆膵腫瘍】

予後情報まで付帯した全国がん登録の情報収集にむけ、全国がん登録情報提供の申出の変更申請を提出、10 月 17 日に審議委員会にて質問事項への回答を行った。

【GIST】

①.GIST に関連する全国がん登録情報解析

2017 年の全国がん登録情報を用いて、日本における GIST 患者の発生数について検討した。GIST の発生数は全国で 1,275 人であった。本研究によって日本の GIST の年間罹患率が人口 10 万人当たり 1.0 人であることが初めて明らかとなった。発生臓器別では、胃(63%)、小腸(27%)、直腸(4%)、結腸(4%)、食道(1%)、結腸(1%)、その他(4%)の順に多かった。疫学情報に加えて、臨床病理学的特徴や診療実態についても解析を実施中である。

②. STAR ReGISTry の関連研究

薬物療法の進歩に伴い予後が向上したと想定される再発高リスク GIST を有する患者群の予後と治療成績を明確化する目的で STAR ReGISTry の追跡調査を継続中である。また、腫瘍破裂 GIST における臨床・病理組織学的特徴、wild type GIST の遺伝子異常プロファイリングの各検討についても解析が終了し、現在論文投稿に向けて準備を進めている。

【肉腫】

軟部肉腫診療における QI 設定に向けて、軟部肉腫診療に従事している整形外科医、画像診断医、腫瘍内科医、放射線治療医の 4 名の委員からなる QI 候補作成部会を設立した。本邦および海外の軟部肉腫診療に関するガイドラインや過去の文献、さらには各委員の意見を元として、軟部肉腫診療 QI 候補を策定し、診療・外科治療・化学療法・放射線療法の 4 つのカテゴリーから合計 11 の QI 候補が提案された。またこの委員とは別に、整形外科医、病理診断医、画像診断医、腫瘍内科医、小児科医、放射線治療医の各専門家から成る専門家パネルを構成した。本パネルの構成員は、地域や施設の種類、経験年数などを考慮したうえで、できるだけ網羅的に選出し、また神経芽腫や GIST など、肉腫以外の希少がんの専門家も含めることとした。本年度中にパネル委員による QI 候補の評価を行う予定である。

【皮膚腫瘍】

2016 年、2017 年の全国がん登録から乳房外パジェット病(EMPD)、メルケル細胞がん(MCC)、血管肉腫(AS)、皮膚付属器がん(AC)、隆起性皮膚線維肉腫(DFSP)に加え、悪性黒色腫、有棘細胞がん(SCC)、基底細胞がん(BCC)のデータを抽出したところ、SCC と BCC は希少がんとするには発生数が多いことが明らかとなったため、解析の対象から除外した。また、悪性黒色腫(MM)は他の皮膚がんに比べ学会の統計委員会によるデータや院内がん登録データがそろっていたが、全国がん登録による年間発生数はそれらを上回ることが明らかとなった。年間発生数の順は

MM>EMPD>AC>AS>DFSP>MCC であり、全国の年間発生数が 1,000 例を超えるのは MM のみであった。皮膚がんの多くは高齢者のがんであり、AS, AC, MCC は発生のピークが 80 歳以上、EMPD も 80 歳に非常に近かった。一方 MM は 60 歳代にピークがあり、DFSP は 30 歳代と際だって若かった。今年度中に 2018 年データを加えさらに解析を進めたいと考えている。

2. 2 希少がん情報提供・診療支援のデータから見た希少がん患者への情報提供手段に関する研究

Covid-19 パンデミックによって 2020 年 4 月に中止されるまで計 60 回 (2017 年 1 月～2020 年 4 月) 希少がんセンター待合室で開催された専門家によるセミナー「希少がん Meet the Expert」に関して、事前質問 (758 名分) およびセミナー終了後アンケート (2,235 名分) を解析し、希少がんに関する情報ニーズを明らかにすることを試み、現在論文作成準備中である。

また、患者会支援団体との連携・協働によって、2022 年 9 月から開始した web による「オンライン希少がん Meet the Expert」は 3 回開催し、11 月末までに 425 名の視聴を得ている。

3. 3 JCOG における希少がん研究の分析に関する研究

がんを対象とした臨床試験の患者登録ペースに起因する要因について検討している先行研究について文献調査を行った。希少がん特異的に調査している文献はなかったが、米国臨床試験ネットワーク (National Clinical Trials Network (NCTN)) の試験を対象とした文献 (Korn et al., J Clin Oncol. 2010, Bennette CS, et al., J Natl Cancer Inst. 2016) が本研究の先行研究に該当した。これらの文献で上げられていた登録に与える要因を参考に JCOG 試験について検討を行うべく、プロトコルを大部分作成した。次年度は作成したプロトコルを元に具体的にデータの抽出と定量的分析を行う。

4. 4 国際共同研究による希少がんに関するエビデンス創出に関する研究

【GIST】

① GIST 診療に関するアジアコンセンサスガイドラインの改訂版作成

診断・治療分野別に clinical questions について各国の研究者とメールベースで協議を進めている。今後取り扱うべき clinical question を固定し、回答案を作成することを検討している。

②. イマチニブ投与中の進行 GIST に対する腫瘍減量手術の臨床的有用性を評価する国際多施設共同後方視的研究

計 17 施設 (日本 9 施設、中国 6 施設、韓国 1 施設、台湾 2 施設) へ声がけし、レトロスペクティブな情報収集を実施中である。現時点で計 7 施設の CRF 提出を受け、76 症例分のデータを集積した。

③. 国際連携にむけた国内 GIST レジストリー研究の基盤整備

国内における薬物療法の適応となる GIST 患者を対象に治療方法および転帰を含む診療実態に関する動向を長期的に評価する国内における前向き観察研究の基盤整備は完了しており、②の研究状況と併せて多施設化を検討している。

【肉腫】

海外の研究者とともに構築している『肉腫国際共同研究コンソーシアム』の枠組みを用いて、国立がん研究センターからは骨肉腫肺転移例の予後予測モデル開発、軟部肉腫の予後予測モデルの開発と海外データを用いた external validation、骨盤腫瘍手術における合併症予測モデルの開発といった複数の研究を実施中であり、特に前二者についてはすべての解析が終了し、論文作成準備中である。また、海外施設から研究提案も軟部肉腫に対する補助化学療法の有用性、転移性骨腫瘍の診療実態に関する研究等複数あり、特に前者については、European Journal of Cancer 誌にその成果が掲載された。

5. 5 希少がん診療に携わる医療者の育成に関する研究

1 年次は希少がんに関する現状を把握するために医学部生および医師への認知度調査を行うための方法論の確立およびアンケート内容の精査とその実施を行った。具体的には希少がんそのものが認知されていない限り、学生教育に反映されることもなく、希少がんの疾患の存在そのものを知らずに医師になるもしくは専門医として診察していることも十分に考えられる。このために医学生及び医師に広く認知され、ストック型の医学的な知見の共有システムを持っているアンター株式会社と協力して、希少がんに関するアンケートを作成し、医学部生および医師に対してアンケート調査を行った

6. 6ゲノム解析を希少がんの新たなエビデンス・ネットワーク構築に繋げるための研究

JSGC 班会議を 2022 年 6 月 1 日に実施し、研究プロジェクトの進捗状況等について議論を行った。データベース構築のため、これまでのゲノム解析データを集計した。全エクソンシーケンス解析については 107 症例 225 検体（非腫瘍組織 107 検体、腫瘍組織 118 検体）、24 細胞株 24 検体、RNA シーケンス解析については 342 症例（非腫瘍組織 2 検体、腫瘍組織 358 検体）24 細胞株 24 検体、全ゲノムシーケンス解析については 160 症例 356 検体（非腫瘍組織 160 検体、腫瘍組織 196 検体）分のデータを確認した。

公開データベースのデータ項目として、臨床情報（性別、発症時年齢、登録時組織型、予後情報等）およびゲノム情報（SNV, indel, SV, CNV, fusion, 遺伝子発現等）の項目を策定した。データベース利用についての規約としては、非制限公開、制限公開、制限共有の各レベルで管理されるデータを検討中である。

7. 7希少がん行動計画 2030 の作成

『希少がん行動計画 2030』策定委員会メンバーを選考し、行動計画の内容、執筆工程などに関する検討を開始した。

研究成果と考察

当該次時評価時点

1. がん登録等を活用した我が国における希少がんの疫学・診療実態に関する研究

【脳腫瘍】

2016 年の全国がん登録の解析によって、わが国における脳腫瘍の頻度が初めて明らかとなったが 2016～2019 年の 4 年分のデータを追加解析しても、2016 年のデータとほぼ同様の結果が得られた。全国がん登録では、生死についてもデータ入手が可能であり、Kaplan-Meier 法により解析が可能であることが明らかとなった。まだフォローアップ期間が 5 年に達していないが、今後、脳腫瘍の組織別の生存割合なども明らかとなることが期待される。

【頭頸部腫瘍】

全国がん登録と院内がん登録、頭頸部全国悪性腫瘍登録（臓器がん登録）を用いて、わが国における頭頸部肉腫の現況を初めて明らかにした。それぞれのデータの特性を活かし、欠点を補うような解析を行った。全国がん登録はわが国全てのがん患者が登録されていて、全数把握に適しているため、年齢分布や罹患率を求めた。院内がん登録では施設単位での登録であるため施設間比較に適しており、Stage や予後情報等の情報も多く、施設別の進行度や予後の比較を行った。頭頸部悪性腫瘍全国登録では、当該診療科の医師が入力しているため、治療順や術式などの治療の詳細が登録されており、治療内容の詳細や部位分布の把握が可能であった。いずれのデータ源でも、部位や組織の分布は同様であった。今後もこの特性を活かし、頭頸部領域の希少がんの現況を明らかにしていくことを計画している。

【肝胆膵腫瘍】

各希少サブタイプの頻度情報までのデータ集計については前の 3 年間の研究期間中に実施済みで、この集計結果の学会発表（2022 年臨床腫瘍学会）ならびに Peer review 英文誌への公表を行った（J Gastroenterol. 2022;57(11):890–901）。

【GIST】

GIST の日本における疫学情報および診療実態を明らかにするために、全国がん登録の情報を解析した。GIST を含めた希少がんは、施設ベースの検討では実態把握が困難であることから、全国がん登録情報は、希少がんの疫学情報・基本的な診療情報を明らかにするための有用な情報源になることが示された。今後、さらに臨床病理学的特徴や治療情報の解析を進め、GIST の診療実態を明らかにしていく予定である。

また、複数の STAR ReGISTry の関連研究を実施中である。再発高リスク GIST を有する患者群の予後と治療成績を明確化する検討を継続している。さらに、腫瘍破裂 GIST における臨床・病理組織学的特徴を検討し腫瘍破裂が予後に与える影響を検討するとともに、希少フラクションである wild type GIST の遺伝子プロファイリングを実施した。これらの検討については論文投稿に向けて準備を進めている。

【肉腫】

軟部肉腫診療 QI 候補の策定に際し、QI 候補作成部会の各委員からはその設定基準の難しさが指摘された。すなわち、希少がんである軟部肉腫において、重要な課題についてはすでに本邦においては高い実施率が予想される一方で、いくつかの課題は信頼に足るエビデンスが少なく、QI として適切かどうか委員内でも意見が分かれるところとなった。今回の QI 候補に対し、今後専門家パネルによる評価が行われるが、さらに様々な背景を持つパネル委員間で意見が分かれることが予想される。そのため、方法論も含め QI に関する専門家の今後の議論への参加や助言は必須と考えている。

【皮膚腫瘍】

皮膚がんの発生頻度には明らかな人種差があり、日本では皮膚がんは希少がんとして扱われる。乳房外パジェット病、メルケル細胞がん、血管肉腫、皮膚付属器がん、隆起性皮膚線維肉腫という、国際的にみても非常に稀な腫瘍に加えて、今年度は、悪性黒色腫、有棘細胞がん、基底細胞がんのデータを解析した。この3種の代表的皮膚がんについての年間発生数データから、希少がんの定義にあてはまるものは悪性黒色腫のみであった。日本の皮膚がん患者数は最近20年間で4倍ほどに増えており、増加の中心は高齢者の露光部にできやすい基底細胞がん、有棘細胞がんであることからこの2種類の皮膚がんは、もはや希少がんの定義から外れるほど患者数が増加しているものと認識する必要がある。悪性黒色腫の患者数は、学会の調査委員会のデータや院内がん登録データよりも多く、年間2,500名を超えていた。皮膚がんの多くは高齢者の腫瘍であるが、悪性黒色腫は発症年齢のピークが60歳代と若く、また隆起性皮膚線維肉腫のピークは30歳代とAYA世代腫瘍としての認識が必要ということも明らかとなった。各希少皮膚がんの疫学データは治療法開発の基盤となる情報であり鋭意論文作成を進めている。

2. 希少がん情報提供・診療支援のデータから見た希少がん患者への情報提供手段に関する研究

希少がんの情報ニーズを探る方法として、2017年1月から2020年4月まで計60回現地開催した「希少がん Meet the Expert」を申し込むきっかけとなった事前質問の解析を試みた。また、今後は、オンラインによる情報提供・情報収集がより重要になってくると考えられるが、引き続き、各種希少がんに対する有益な情報を効果的に発信してゆく手段について検討を進めてゆく予定である。

3. JCOGにおける希少がん研究の分析に関する研究

希少がんに限定した臨床試験の患者登録に関する報告は過去にない。ただし、疾患要因による検討は異なる結果が報告されている。例えば乳がんに関しては、登録不良とする報告（J Geriatr Oncol 11 (3) (2020) 455–462）と良好とする報告（J. Clin. Oncol. 38 (6) (2015) 575–582）がある。Bennetteによる報告（J Natl Cancer Inst. 2016;108(2)）では、多変量ロジスティック解析の結果、希少固形がんや血液がんはメジャー癌（前立腺、乳、肺、結腸）と比較して登録が良好であると報告している。現状、希少がんについて一貫した報告はなされておらず、国内の多施設共同臨床試験グループのJCOGにおいても報告はないため、本研究における検討は希少がんの臨床試験計画のための新たな知見となることが期待される。

4. 国際共同研究による希少がんに関するエビデンス創出に関する研究

【GIST】

GIST診療に関するアジアコンセンサスガイドラインの改訂版作成

診断・治療分野別に clinical questions について各国の研究者とメールベースで協議を進めている。今後取り扱うべき clinical question を固定し、回答案を作成することを検討している。

イマチニブ投与中の進行 GIST に対する腫瘍減量手術の臨床的有用性を評価する国際多施設共同後方視的研究

計17施設（日本9施設、中国6施設、韓国1施設、台湾2施設）へ声がけし、レトロスペクティブな情報収集を実施中である。現時点で計7施設のCRF提出があり、76症例分のデータを集積した。

国際連携にむけた国内 GIST レジストリー研究の基盤整備

国内における薬物療法の適応となる GIST 患者を対象に治療方法および転帰を含む診療実態に関する動向を長期的に評価する国内における前向き観察研究の基盤整備は完了しており、②の研究状況と併せて多施設化を検討している。

【肉腫】

今年度は、実際の研究の実施、論文化を通してよりコンソーシアムがより成熟したものとなった。引き続きコンソーシアム参加施設からの新規研究提案を積極的に行い、研究ネットワークの活性化を図りたい。最終的には同コンソーシアムにおいてエビデンスレベルの高い研究を研究終了時までには実施することが目標である。

5. 希少がん診療に携わる医療者の育成に関する研究

1 年次の課題は、医学部生に対して希少がんに関する認知度調査を行うとともに、教育的デバイスや SNS を用いた希少がんの啓蒙活動を行うことであった。現在、認知度調査のためのアンケート調査を実施中であり、その解析結果を基に、2 年次にはどのようにして希少がんの存在を医学部生や専門医前の医師に啓蒙していくかに関しても検討を進めていく方針である。

6. ゲノム解析を希少がんの新たなエビデンス・ネットワーク構築に繋げるための研究

骨軟部腫瘍のゲノム解析データについては、引き続き別プロジェクトにて収集を継続中であり、全ゲノム解析で 475 症例 950 検体（非腫瘍組織 475 検体、腫瘍組織 475 検体、組織型 16 種）、RNA シークエンス解析で 424 症例 424 検体（腫瘍組織 424 検体、組織型 16 種）分のデータを解析中（AMED 革新がん[領域 1-11 希少がん領域]）である。この他、AMED 革新がん[領域 1-7]においても、希少がんの登録が進められている。これらのデータは最終的に AMED の提供する CANNDs で管理される予定であるが、2 次利用として本プロジェクトで策定を進めているデータベースでの公開も検討する。

7. 『希少がん行動計画 2030』策定委員会を組織し、内容、作成工程などの検討を開始した。厚労科研で主として動いている希少がんネットワーク形成の進捗状況も見ながら、作成を進めてゆく予定である。

倫理面への配慮

(1) 遵守すべき研究に関する指針等

- ☐ 再生医療等の安全性の確保等に関する法律
☐ 臨床研究法
☐ 医薬品の臨床試験の実施に関する基準（GCP）
☒ 人を対象とする生命科学・医学系研究に関する指針
☐ 遺伝子治療臨床研究に関する指針
☐ 動物実験等の実施に関する基本指針
☐ その他の指針等（指針等の名称：

(2) 本研究開発期間中に予定される臨床研究の有無

- ☐ 有
☒ 無

本研究に関連する、本研究期間中の主な発表論文等

当該年次

(学術誌論文)

- ・国立がん研究センター研究開発費による成果であることが記載されているもの
記載なし
 - ・国立がん研究センター研究開発費による成果であることが記載はないが、関連するもの
1. Establishment and characterization of NCC-GCTB5-C1: a novel cell line of giant cell tumor of bone. Akiyama T, Yoshimatsu Y, Noguchi R, Sin Y, Tsuchiya R, Ono T, Fukushima S, Toda Y, Kojima N, Yoshida A, Ohtori S, Kawai A, Kondo T. Human Cell. 2022;35(5):1621-9.2022.
 2. Establishment and characterization of NCC-MRT1-C1: a novel cell line of malignant rhabdoid tumor. Akiyama T, Yoshimatsu Y, Noguchi R, Sin Y, Tsuchiya R, Ono T, Sato C, Kojima N, Yoshida A, Kawai A, Ohtori S, Kondo T. Human Cell. 35(6):2002-10.2022.
 3. Establishment and characterization of NCC-PS1-C1: a novel cell line of pleomorphic sarcoma from a patient after neoadjuvant radiotherapy. Akiyama T, Yoshimatsu Y, Noguchi R, Sin Y, Tsuchiya R, Ono T, Sugaya J, Kobayashi E, Yoshida A, Ohtori S, Kawai A, Kondo T. Human Cell. 35(6):2011-9.2022.
 4. Family cancer history and smoking habit associated with sarcoma in a Japanese population study. Araki Y, Yamamoto N, Tanzawa Y, Higashi T, Kuchiba A, Hayashi K, Takeuchi A, Miwa S, Igarashi K, Endo M, Kobayashi E, Tsuchiya H, Kawai A. Scientific Reports. 12(1):17129.2022.

5. Free Flap Reconstruction of Oncologic Gluteal Defects. Arikawa M, Akazawa S, Kagaya Y, Kawai A, Miyamoto S. *Annals of Plastic Surgery*. 88(4):420-4.2022.
6. Preoperative Denosumab Therapy Against Giant Cell Tumor of Bone is Associated with an Increased Risk of Local Recurrence After Curettage Surgery. Asano N, Saito M, Kobayashi E, Morii T, Kikuta K, Watanabe I, Anazawa U, Takeuchi K, Suzuki Y, Susa M, Nishimoto K, Ishii R, Miyazaki N, Mrioka H, Kawai A, Horiuchi K, Nakayama R. *Annals of Surgical Oncology*. 29(6):3992-4000.2022.
7. Gastrointestinal stromal tumours: ESMO-EURACAN-GENTURIS Clinical Practice Guidelines for diagnosis, treatment and follow-up. Casali PG, Blay JY, Abecassis N, Bajpai J, Bauer S, Biagini R, Bielack S, Bonvalot S, Boukovinas I, Bovee J, Boye K, Brodowicz T, Buonadonna A, De Álava E, Dei Tos AP, Del Muro XG, Dufresne A, Eriksson M, Fedenko A, Ferraresi V, Ferrari A, Frezza AM, Gasperoni S, Gelderblom H, Gouin F, Grignani G, Haas R, Hassan AB, Hindi N, Hohenberger P, Joensuu H, Jones RL, Jungels C, Jutte P, Kasper B, Kawai A, Kopeckova K, Krákorová DA, Le Cesne A, Le Grange F, Legius E, Leithner A, Lopez-Pousa A, Martin-Broto J, Merimsky O, Messiou C, Miah AB, Mir O, Montemurro M, Morosi C, Palmerini E, Pantaleo MA, Piana R, Piperno-Neumann S, Reichardt P, Rutkowski P, Safwat AA, Sangalli C, Sbaraglia M, Scheipl S, Schöffski P, Sleijfer S, Strauss D, Strauss SJ, Hall KS, Trama A, Unk M, van de Sande MAJ, van der Graaf WTA, van Houdt WJ, Frebourg T, Gronchi A, Stacchiotti S. *Annals of Oncology*. 33(1):20-33.2022.
8. Alveolar soft part sarcoma: progress toward improvement in survival? A population-based study. Fujiwara T, Nakata E, Kunisada T, Ozaki T, Kawai A. *BMC Cancer*. 22(1):891.2022.
9. Cancer Rehabilitation Provided by Designated Cancer Hospitals in Japan: The Current State of Outpatient Setting and Coordination after Discharge. Fukushima T, Tsuji T, Watanabe N, Sakurai T, St AM, St KK, Yahiro S, Oki M, Okita Y, Yokota S, Nakano J, Sugihara S, Sato H, Kawakami J, Kagaya H, Tanuma A, Sekine R, Mori K, Zenda S, Kawai A. *Progress in Rehabilitation Medicine*. 7:20220006.2022.
10. Japan Society of Clinical Oncology Clinical Practice Guidelines 2017 for fertility preservation in childhood, adolescent, and young adult cancer patients: Part 1. Harada M, Kimura F, Takai Y, Nakajima T, Ushijima K, Kobayashi H, Satoh T, Tozawa A, Sugimoto K, Saji S, Shimizu C, Akiyama K, Bando H, Kuwahara A, Furui T, Okada H, Kawai K, Shinohara N, Nagao K, Kitajima M, Suenobu S, Soejima T, Miyachi M, Miyoshi Y, Yoneda A, Horie A, Ishida Y, Usui N, Kanda Y, Fujii N, Endo M, Nakayama R, Hoshi M, Yonemoto T, Kiyotani C, Okita N, Baba E, Muto M, Kikuchi I, Morishige KI, Tsugawa K, Nishiyama H, Hosoi H, Tanimoto M, Kawai A, Sugiyama K, Boku N, Yonemura M, Hayashi N, Aoki D, Osuga Y, Suzuki N. *International Journal of Clinical Oncology*. 27(2):265-80.2022.
11. Clinical utility of comprehensive genomic profiling tests for advanced or metastatic solid tumor in clinical practice. Ida H, Koyama T, Mizuno T, Sunami K, Kubo T, Sudo K, Tao K, Hirata M, Yonemori K, Kato K, Okusaka T, Ohe Y, Matsui Y, Yamazaki N, Ogawa C, Kawai A, Narita Y, Esaki M, Yamamoto N. *Cancer Science*. 2022.
12. Incidence and prognostic factors in severe drug-induced interstitial lung disease caused by antineoplastic drug therapy in the real world. Kaku S, Horinouchi H, Watanabe H, Yonemori K, Okusaka T, Boku N, Yamazaki N, Kawai A, Ohe Y, Kusumoto M. *Journal of Cancer Research and Clinical Oncology*. 148(7):1737-46.2022.
13. The Shape of Tumor Treatment in this Country. Kawai A. *Journal of Orthopaedic Science*. 27(3):511-3.2022.
14. Japanese Orthopaedic Association (JOA) clinical practice guidelines on the management of soft tissue tumors 2020 - Secondary publication. Kawai A, Araki N, Ae K, Akiyama T, Ozaki T, Kawano H, Kunisada T, Sumi M, Takahashi S, Tanaka K, Tsukushi S, Naka N, Nishida Y, Miyachi M, Yamamoto N, Yoshida A, Yonemoto T, Yoshida M, Iwata S. *Journal of Orthopaedic Science*. 27(3):533-50.2022.
15. Safety and effectiveness of eribulin in Japanese patients with soft tissue sarcoma including rare subtypes: a post-marketing observational study. Kawai A, Narahara H, Takahashi S, Nakamura T,

- Kobayashi H, Megumi Y, Matsuoka T, Kobayashi E. BMC Cancer. 22(1):528.2022.
16. Surgical Treatment for Pneumothorax and Tumor-bronchial Fistula Secondary to Pulmonary Metastasis of Osteosarcoma in Pediatric and Adolescent Patients. Kawakubo N, Hishiki T, Arakawa A, Nakajima M, Kumamoto T, Nakagawa K, Kawai A, Ogawa C. Journal of Pediatric Hematology/Oncology. 44(7):393-7.2022.
 17. Marginal resection for patients with atypical lipomatous tumours of the extremities and trunk wall: a systematic review and meta-analysis. Kido A, Kitagawa Y, Tsukushi S, Iwata S, Ishida Y, Tsukamoto S, Kawai A. Japanese Journal of Clinical Oncology. 52(2):151-6.2022.
 18. Co-expression of ERG and CD31 in a subset of CIC-rearranged sarcoma: a potential diagnostic pitfall. Kojima N, Arai Y, Satomi K, Kubo T, Matsushita Y, Mori T, Matsushita H, Ushijima T, Yatabe Y, Shibata T, Yonemori K, Ichimura K, Ichikawa H, Kawai A, Yoshida A. Modern Pathology. 35(10):1439-48.2022.
 19. Liposarcoma With Hibernoma-like Histology: A Clinicopathologic Study of 16 Cases. Kojima N, Komiyama M, Shinoda Y, Watanabe SI, Yatabe Y, Kawai A, Yoshida A. The American Journal of Surgical Pathology. 46(10):1319-28.2022.
 20. Poor Treatment Outcomes with Second-Line Chemotherapy in Advanced Synovial Sarcoma. Kojima Y, Shimoi T, Seo T, Yazaki S, Okuya T, Ohtake Y, Okuma HS, Shimomura A, Nishikawa T, Tanioka M, Sudo K, Noguchi E, Tamura K, Yoshida A, Iwata S, Kobayashi E, Kawai A, Fujiwara Y, Yonemori K. Oncology. 100(7):370-5.2022.
 21. Clinical features and treatment outcomes of dedifferentiated and grade 3 chondrosarcoma: A multi-institutional study. Kozawa E, Nishida Y, Kawai A, Hayakawa K, Setsu N, Kawashima H, Iwata S, Tsuchiya H, Tsukushi S, Takenaka S, Imanishi J, Baba I, Nagano A, Morii T, Shirai T, Shimizu K, Kawano H. Cancer Science. 113(7):2397-408.2022.
 22. The possible effects of the Japan Society of Clinical Oncology Clinical Practice Guidelines 2017 on the practice of fertility preservation in female cancer patients in Japan. Kunitomi C, Harada M, Sanada Y, Kusamoto A, Takai Y, Furui T, Kitagawa Y, Yamada M, Watanabe C, Tsugawa K, Nishiyama H, Hosoi H, Miyachi M, Sugiyama K, Maeda Y, Kawai A, Hamatani T, Fujio K, Suzuki N, Osuga Y. Reproductive Medicine and Biology. 21(1): e12453.2022.
 23. Loss of H3K27 trimethylation in a distinct group of de-differentiated chordoma of the skull base. Makise N, Shimoi T, Sunami K, Aoyagi Y, Kobayashi H, Tanaka S, Kawai A, Yonemori K, Ushiku T, Yoshida A. Histopathology. 2022.
 24. Clinical usefulness of 2-hydroxyglutarate as a biomarker in IDH-mutant chondrosarcoma. Nakagawa M, Yamaguchi M, Endo M, Machida Y, Hattori A, Tanzawa F, Tsutsumi S, Kitabayashi I, Kawai A, Nakatani F. Journal of Bone Oncology. 34:100430.2022.
 25. Is no additional excision after unplanned excision with positive margins justified in patients with small (≤ 5 cm) high-grade soft-tissue sarcoma?: Analysis from the Bone and Soft Tissue Tumor registry in Japan. Nakamura T, Kawai A, Asanuma K, Hagi T, Sudo A. Journal of Orthopaedic Science. 27(2):463-7.2022.
 26. The incidence of unplanned excision in patients with soft tissue sarcoma: Reports from the Bone and Soft Tissue Tumor registry in Japan. Nakamura T, Kawai A, Sudo A. Journal of Orthopaedic Science. 27(2):468-72.2022.
 27. Prognostic Factors of Pulmonary Metastasectomy for Soft Tissue Sarcomas Arising in the Trunk Wall and Extremities. Nakayama S, Kobayashi E, Nishio J, Toda Y, Yotsukura M, Watanabe SI, Yamamoto T, Kawai A. Cancers. 14(14).2022.
 28. Surgical treatment for extremity rhabdomyosarcoma: longitudinal national questionnaire survey in Japan. Nishida Y, Kawai A. Japanese Journal of Clinical Oncology. 52(4):362-9.2022.
 29. Standardization of evaluation method and prognostic significance of histological response to preoperative chemotherapy in high-grade non-round cell soft tissue sarcomas. Oda Y, Tanaka K, Hirose T, Hasegawa T, Hiruta N, Hisaoka M, Yoshimoto M, Otsuka H, Bekki H, Ishii T, Endo M, Kunisada T, Hiruma T, Tsuchiya H, Katagiri H, Matsumoto Y, Kawai A, Nakayama R, Kawashima H, Takenaka S, Emori M, Watanuki M, Yoshida Y, Okamoto T, Mizusawa J, Fukuda H, Ozaki T, Iwamoto Y, Nojima T. BMC Cancer. 22(1):94.2022 .

30. Indications for fertility preservation not included in the 2017 Japan Society of Clinical Oncology Guideline for Fertility Preservation in Pediatric, Adolescent, and Young Adult Patients treated with gonadal toxicity, including benign diseases. Ono M, Matsumoto K, Boku N, Fujii N, Tsuchida Y, Furui T, Harada M, Kanda Y, Kawai A, Miyachi M, Murashima A, Nakayama R, Nishiyama H, Shimizu C, Sugiyama K, Takai Y, Fujio K, Morishige KI, Osuga Y, Suzuki N. *International Journal of Clinical Oncology*. 27(2):301-9.2022.
31. Establishment and characterization of NCC-UPS4-C1: a novel cell line of undifferentiated pleomorphic sarcoma from a patient with Li-Fraumeni syndrome. Ono T, Yoshimatsu Y, Noguchi R, Sin Y, Tsuchiya R, Akiyama T, Sugaya J, Fukushima S, Kojima N, Yoshida A, Kawai A, Kondo T. *Human Cell*. 35(2):756-66.2022.
32. The epidemiology of rare types of hepatobiliary and pancreatic cancer from national cancer registry. Satake T, Morizane C, Rikitake R, Higashi T, Okusaka T, Kawai A. *Journal of Gastroenterology*. 57(11):890-901.2022.
33. Establishment and characterization of NCC-DDLPS5-C1: a novel patient-derived cell line of dedifferentiated liposarcoma. Sin Y, Yoshimatsu Y, Noguchi R, Tsuchiya R, Ono T, Akiyama T, Iwata S, Sugaya J, Yoshida A, Kawai A, Kondo T. *Human Cell*. 35(3):936-43.2022.
34. Establishment and characterization of NCC-MPNST6-C1: a novel patient-derived cell line of malignant peripheral nerve sheath tumors. Sin Y, Yoshimatsu Y, Noguchi R, Tsuchiya R, Ono T, Akiyama T, Nakatani F, Sugaya J, Yoshida A, Kawai A, Kondo T. *Human Cell*. 35(1):400-7.2022.
35. Retrospective observational studies in ultra-rare sarcomas: A consensus paper from the Connective Tissue Oncology Society (CTOS) community of experts on the minimum requirements for the evaluation of activity of systemic treatments. Stacchiotti S, Maria Frezza A, Demetri GD, Blay JY, Bajpai J, Baldi GG, Baldini EH, Benjamin RS, Bonvalot S, Bovée J, Callegaro D, Casali PG, D'Angelo SP, Davis EJ, Dei Tos AP, Demicco EG, Desai J, Dileo P, Eriksson M, Gelderblom H, George S, Gladdy RA, Gounder MM, Gupta AA, Haas R, Hayes A, Hohenberger P, Jones KB, Jones RL, Kasper B, Kawai A, Kirsch DG, Kleinerman ES, Le Cesne A, Maestro R, Martin Broto J, Maki RG, Miah AB, Palmerini E, Patel SR, Raut CP, Razak ARA, Reed DR, Rutkowski P, Sanfilippo RG, Sbaraglia M, Schaefer IM, Strauss DC, Strauss SJ, Tap WD, Thomas DM, Trama A, Trent JC, van der Graaf WTA, van Houdt WJ, von Mehren M, Wilky BA, Fletcher CDM, Gronchi A, Miceli R, Wagner AJ. *Cancer Treatment Reviews*. 110:102455.2022.
36. Randomized placebo-controlled double-blind phase II study of zaltoprofen for patients with diffuse-type and unresectable localized tenosynovial giant cell tumors: The REALIZE study. Takeuchi A, Endo M, Kawai A, Nishida Y, Terauchi R, Matsumine A, Aiba H, Nakamura T, Tandai S, Ozaki T, Hoshi M, Kayano D, Okuda M, Yamamoto N, Hayashi K, Miwa S, Igarashi K, Yoshimura K, Nomura A, Murayama T, Tsuchiya H. *Frontiers in Oncology*. 12:900010. 2022.
37. Perioperative Adriamycin plus ifosfamide vs. gemcitabine plus docetaxel for high-risk soft tissue sarcomas: randomised, phase II/III study JCOG1306. Tanaka K, Machida R, Kawai A, Nakayama R, Tsukushi S, Asanuma K, Matsumoto Y, Hiraga H, Hiraoka K, Watanuki M, Yonemoto T, Abe S, Katagiri H, Nishida Y, Nagano A, Suehara Y, Kawashima H, Kawano M, Morii T, Hatano H, Toguchida J, Okuma T, Takeyama M, Takenaka S, Akisue T, Furuta T, Emori M, Hiruma T, Outani H, Yamamoto T, Kataoka T, Fukuda H, Ozaki T, Iwamoto Y. *British Journal of Cancer*. 127(8):1487-96.2022.
38. Gorham-Stout syndrome mimicking a malignant bone tumor in two adult cases. Toda Y, Kobayashi E, Yoshida A, Kawai A. *Japanese Journal of Clinical Oncology*. 52(2):197.2022.
39. Image-guided core needle biopsy for musculoskeletal lesions. Toki S, Sone M, Yoshida A, Nishisho T, Gokita T, Kobayashi E, Nakatani F, Chuman H, Sugawara S, Arai Y, Kawai A. *Journal of Orthopaedic Science*. 27(2):448-55.2022.
40. Japan Society of Clinical Oncology Clinical Practice Guidelines 2017 for fertility preservation in childhood, adolescent, and young adult cancer patients: Part 2. Tozawa A, Kimura F, Takai Y, Nakajima T, Ushijima K, Kobayashi H, Satoh T, Harada M, Sugimoto K, Saji S, Shimizu C, Akiyama K, Bando H, Kuwahara A, Furui T, Okada H, Kawai K, Shinohara N, Nagao K, Kitajima M, Suenobu S, Soejima T, Miyachi M, Miyoshi Y, Yoneda A, Horie A, Ishida Y, Usui N, Kanda Y,

- Fujii N, Endo M, Nakayama R, Hoshi M, Yonemoto T, Kiyotani C, Okita N, Baba E, Muto M, Kikuchi I, Morishige KI, Tsugawa K, Nishiyama H, Hosoi H, Tanimoto M, Kawai A, Sugiyama K, Boku N, Yonemura M, Hayashi N, Aoki D, Suzuki N, Osuga Y. International Journal of Clinical Oncology. 27(2):281-300.2022.
41. Establishment and Characterization of NCC-MFS5-C1: A Novel Patient-Derived Cell Line of Myxofibrosarcoma. Tsuchiya R, Yoshimatsu Y, Noguchi R, Sin Y, Ono T, Akiyama T, Sugaya J, Kobayashi E, Kojima N, Yoshida A, Ohtori S, Kawai A, Kondo T. Cells. 11(2).2022.
 42. Establishment and characterization of NCC-UPS3-C1: a novel patient-derived cell line of undifferentiated pleomorphic sarcoma. Tsuchiya R, Yoshimatsu Y, Noguchi R, Sin Y, Ono T, Akiyama T, Sugaya J, Nakatani F, Kojima N, Yoshida A, Ohtori S, Kawai A, Kondo T. Human Cell. 35(1):384-91.2022.
 43. Short-term clinical outcomes of Kyocera Modular Limb Salvage System designed cementless stems for the endoprosthesis reconstruction of lower extremities: a Japanese Musculoskeletal Oncology Group multi-institutional study. Tsukushi S, Nishida Y, Hirose T, Nakata E, Nakagawa R, Nakamura T, Imanishi J, Nagano A, Tamiya H, Ueda T. BMC Cancer. 22(1):781.2022.
 44. The real-world selection of first-line systemic therapy regimen for metastatic gastroenteropancreatic neuroendocrine neoplasm in Japan. Yamamoto S, Sakakibara N, Hirano H, Morizane C, Honma Y, Hijioka S, Okusaka T, Higashi T, Kawai A. Scientific Reports. 12(1):17601.2022.
 45. Identification of novel SSX1 fusions in synovial sarcoma. Yoshida A, Arai Y, Satomi K, Kubo T, Ryo E, Matsushita Y, Hama N, Sudo K, Komiyama M, Yatabe Y, Shibata T, Ichikawa H, Ichimura K, Kawai A, Mori T. Modern Pathology. 35(2):228-39. 2022.
 46. Soft-tissue sarcoma with MN1-BEND2 fusion: A case report and comparison with astroblastoma. Yoshida A, Satomi K, Kobayashi E, Ryo E, Matsushita Y, Narita Y, Ichimura K, Kawai A, Mori T. Genes, Chromosomes & Cancer. 61(7):427-31. 2022.
 47. Establishment and characterization of NCC-MFS6-C1: a novel patient-derived cell line of myxofibrosarcoma. Yoshimatsu Y, Noguchi R, Sin Y, Tsuchiya R, Ono T, Akiyama T, Sato C, Kobayashi E, Kojima N, Yoshida A, Kawai A, Kondo T. Human Cell. 35(6):1993-2001. 2022.
 48. Establishment and characterization of NCC-SS5-C1: a novel patient-derived cell line of synovial sarcoma. Yoshimatsu Y, Noguchi R, Sin Y, Tsuchiya R, Ono T, Akiyama T, Sugaya J, Kojima N, Yoshida A, Kawai A, Kondo T. Human Cell. 35(4):1290-7.2022.
 49. Evaluation of the efficacy and safety of TAS0313 in adults with recurrent glioblastoma. Narita Y, Okita Y, Arakawa Y. Cancer Immunol Immunother. 2022.
 50. Transcriptome and methylome analysis of CNS germ cell tumor finds its cell-of-origin in embryogenesis and reveals shared similarities with testicular counterparts. Takami H, Elzawahry A, Mamatjan Y, Fukushima S, Fukuoka K, Suzuki T, Yanagisawa T, Matsushita Y, Nakamura T, Satomi K, Tanaka S, Mukasa A, Saito N, Kanamori M, Kumabe T, Tominaga T, Kobayashi K, Nagane M, Iuchi T, Tamura K, Maehara T, Sugiyama K, Yoshimoto K, Sakai K, Nonaka M, Asai A, Yokogami K, Takeshima H, Narita Y, Shibui S, Nakazato Y, Hama N, Totoki Y, Kato M, Shibata T, Nishikawa R, Matsutani M, Ichimura K. Neuro Oncol. 24(8):1246-58. 2022.
 51. Clinical application of a highly sensitive digital PCR assay to detect a small fraction of IDH1 R132H-mutant alleles in diffuse gliomas. Satomi K, Yoshida A, Matsushita Y, Sugino H, Fujimoto K, Honda-Kitahara M, Takahashi M, Ohno M, Miyakita Y, Narita Y, Yatabe Y, Shibahara J, Ichimura K. Brain Tumor Pathol. 39(4):210-7. 2022.
 52. Clinical Application of Comprehensive Genomic Profiling Tests for Diffuse Gliomas. Omura T, Takahashi M, Ohno M, Miyakita Y, Yanagisawa S, Tamura Y, Kikuchi M, Kawauchi D, Nakano T, Hosoya T, Igaki H, Satomi K, Yoshida A, Sunami K, Hirata M, Shimoi T, Sudo K, Okuma HS, Yonemori K, Suzuki H, Ichimura K, Narita Y. Cancers (Basel). 14(10). 2022.
 53. Continuing maintenance temozolomide therapy beyond 12 cycles confers no clinical benefit over discontinuation at 12 cycles in patients with IDH1/2-wildtype glioblastoma. Ohno M, Miyakita Y, Takahashi M, Yanagisawa S, Tamura Y, Narita Y. Jpn J Clin Oncol. 52(10):1134-42. 2022.
 54. Assessment of therapeutic outcome and role of reirradiation in patients with radiation-induced

- glioma. Ohno M, Miyakita Y, Takahashi M, Yanagisawa S, Tamura Y, Kawauchi D, Kikuchi M, Igaki H, Yoshida A, Satomi K, Matsushita Y, Ichimura K, Narita Y. *Radiat Oncol*. 17(1):85. 2022.
55. Assessment of radiographic and prognostic characteristics of programmed death-ligand 1 expression in high-grade gliomas. Ohno M, Kitano S, Satomi K, Yoshida A, Miyakita Y, Takahashi M, Yanagisawa S, Tamura Y, Ichimura K, Narita Y. *J Neurooncol*. 2022.
 56. Metformin with Temozolomide for Newly Diagnosed Glioblastoma: Results of Phase I Study and a Brief Review of Relevant Studies. Ohno M, Kitanaka C, Miyakita Y, Tanaka S, Sonoda Y, Mishima K, Ishikawa E, Takahashi M, Yanagisawa S, Ohashi K, Nagane M, Narita Y. *Cancers (Basel)*. 14(17). 2022.
 57. The first-in-human phase I study of a brain penetrant mutant IDH1 inhibitor DS-1001 in patients with recurrent or progressive IDH1-mutant gliomas. Natsume A, Arakawa Y, Narita Y, Sugiyama K, Hata N, Muragaki Y, Shinojima N, Kumabe T, Saito R, Motomura K, Mineharu Y, Miyakita Y, Yamasaki F, Matsushita Y, Ichimura K, Ito K, Tachibana M, Kakurai Y, Okamoto N, Asahi T, Nishijima S, Yamaguchi T, Tsubouchi H, Nakamura H, Nishikawa R. *Neuro Oncol*. 2022.
 58. Eribulin prolongs survival in an orthotopic xenograft mouse model of malignant meningioma. Nakano T, Fujimoto K, Tomiyama A, Takahashi M, Achiha T, Arita H, Kawauchi D, Yasukawa M, Masutomi K, Kondo A, Narita Y, Maehara T, Ichimura K. *Cancer Sci*. 113(2):697-708. 2022.
 59. Olfactory Preservation in Craniofacial Resection of Tumor Invading Hemianterior Skull Base: Operative Video. Kobayashi K, Miyakita Y, Matsumoto F, Omura G, Matsumura S, Ikeda A, Eguchi K, Ito A, Narita Y, Akazawa S, Yoshimoto S. *J Neurol Surg B Skull Base*. 83(Suppl 3): e639-e40. 2022.
 60. Early Diagnosis and Surgical Intervention Within 3 Weeks from Symptom Onset Are Associated with Prolonged Survival of Patients With Glioblastoma. Kawauchi D, Ohno M, Miyakita Y, Takahashi M, Yanagisawa S, Omura T, Yoshida A, Kubo Y, Igaki H, Ichimura K, Narita Y. *Neurosurgery*. 91(5):741-8. 2022.
 61. The clinical characteristics and outcomes of incidentally discovered glioblastoma. Kawauchi D, Ohno M, Honda-Kitahara M, Miyakita Y, Takahashi M, Yanagisawa S, Tamura Y, Kikuchi M, Ichimura K, Narita Y. *J Neurooncol*. 156(3):551-7. 2022.
 62. MGMT gene promoter methylation by pyrosequencing method correlates volumetric response and neurological status in IDH wild-type glioblastomas. Hosoya T, Takahashi M, Honda-Kitahara M, Miyakita Y, Ohno M, Yanagisawa S, Omura T, Kawauchi D, Tamura Y, Kikuchi M, Nakano T, Yoshida A, Igaki H, Matsushita Y, Ichimura K, Narita Y. *J Neurooncol*. 157(3):561-71. 2022.
 63. Volumetric Analysis of Glioblastoma for Determining Which CpG Sites Should Be Tested by Pyrosequencing to Predict Temozolomide Efficacy. Hosoya T, Takahashi M, Davey C, Sese J, Honda-Kitahara M, Miyakita Y, Ohno M, Yanagisawa S, Omura T, Kawauchi D, Ozeki Y, Kikuchi M, Nakano T, Yoshida A, Igaki H, Matsushita Y, Ichimura K, Narita Y. *Biomolecules*. 12(10). 2022.
 64. Effectiveness of Etoposide and Cisplatin vs Irinotecan and Cisplatin Therapy for Patients With Advanced Neuroendocrine Carcinoma of the Digestive System: The TOPIC-NEC Phase 3 Randomized Clinical Trial. Morizane C, Machida N, Honma Y, Okusaka T, Boku N, Kato K, Nomura S, Hiraoka N, Sekine S, Taniguchi H, Okano N, Yamaguchi K, Sato T, Ikeda M, Mizuno N, Ozaka M, Kataoka T, Ueno M, Kitagawa Y, Terashima M, Furuse J; Japan Clinical Oncology Group (JCOG). *JAMA Oncol*. 8(10):1447-1455. 2022.
 65. Clinical outcomes of surgical and imatinib treatment for rectal gastrointestinal stromal tumours: retrospective cohort study. Tsukamoto S, Honma Y, Shoji H, Hirano H, Inoue M, Takamizawa Y, Moritani K, Imaizumi J, Kanemitsu Y. *BJS Open*. 6(3): zrac067. 2022.
 66. Efficacy and safety of regorafenib in Japanese patients with advanced gastrointestinal stromal tumors. Teranishi R, Takahashi T, Nishida T, Hirota S, Kurokawa Y, Saito T, Yamamoto K, Yamashita K, Tanaka K, Makino T, Motoori M, Omori T, Nakajima K, Eguchi H, Doki Y *Int J Clin Oncol*. 27(7):1164-1172. 2022.
 67. Real-world data on the efficacy and safety of adjuvant chemotherapy in Japanese patients with a high-risk of gastrointestinal stromal tumor recurrence. Ushimaru Y, Takahashi T, Nakajima K, Teranishi R, Nishida T, Hirota S, Motoori M, Omori T, Kawabata R, Nishikawa K, Saito T,

- Yamashita K, Tanaka K, Makino T, Yamamoto K, Kurokawa Y, Eguchi H, Doki Y. *Int J Clin Oncol*. 27(5):921-929. 2022.
68. Risk Factors for Hepatic Toxicity of High-dose Methotrexate in Patients with Osteosarcoma. Abe K, Maeda-Minami A, Ishizu T, Iwata S, Kobayashi E, Shimoi T, Kawano Y, Hashimoto H, Yamaguchi M, Furukawa T, Miyazaki S, Mano Y. *Anticancer Res*. 42(2):1043-1050.2022.
 69. Retrospective Analysis of Retroperitoneal-Abdominal-Pelvic Ganglioneuromas: An International Study by the Transatlantic Australasian Retroperitoneal Sarcoma Working Group. Noh S, Nessim C, Keung EZ, Roland CL, Strauss D, Sivarajah G, Fiore M, Biasoni D, Cioffi SPB, Mehtsun W, Cananzi FCM, Sicoli F, Quagliuolo V, Chen J, Luo C, Gladdy RA, Swallow C, Johnston W, Ford SJ, Evenden C, Tirotta F, Almond M, Nguyen L, Rutkowski P, Krotewicz M, Pennacchioli E, Cardona K, Gamboa A, Hompes D, Renard M, Kollár A, Ryser CO, Vassos N, Raut CP, Fairweather M, Krakorova DA, Quildrian S, Perhavec A, Nizri E, Farma JM, Greco SH, Vincenzi B, Lopez JAG, Solerdecoll MS, Iwata S, Fukushima S, Kim T, Tolomeo F, Snow H, Howlett-Jansen Y, Tzanis D, Nikulin M, Gronchi A, Sicklick JK: Transatlantic Australasian Retroperitoneal Sarcoma Working Group. *Ann Surg*. 2022.
 70. Dedifferentiated liposarcoma in the extremity and trunk wall: A multi-institutional study of 132 cases by the Japanese Musculoskeletal Oncology Group (JMOG). Morii T, Anazawa U, Sato C, Iwata S, Nakagawa M, Endo M, Nakamura T, Ikuta K, Nishida Y, Nakayama R, Uda T, Kawamoto T, Kito M, Sato K, Imanishi J, Akiyama T, Kobayashi H, Nagano A, Outani H, Toki S, Nishisho T, Sasa K, Suehara Y, Kawano H, Ueda T, Morioka H. *Eur J Surg Oncol*. S0748-7983(22)00631-X.2022.
 71. Treatment outcomes and prognostic factors in 47 patients with primary anorectal malignant melanoma in the immune therapy era. Ogata D, Tsutsui K, Namikawa K, Moritani K, Nakama K, Jinnai S, Takahashi A, Tsukamoto S, Kanemitsu Y, Yamazaki N. *J Cancer Res Clin Oncol*. Online ahead of print. 2022.
 72. Post-Immunotherapy Robotic-Assisted Resection for Primary Anorectal Melanoma: A Case Report. Tsutsui K, Ogata S, Tsukamoto S, Moritani K, Mori T, Namikawa K, Takahashi A, Kanemitsu Y, Yamazaki N. *Case Rep Oncol*. 15(1):56-61.2022.
 73. Scalp angiosarcoma treated with linear accelerator-based boron neutron capture therapy: A report of two patients. Igaki H, Murakami N, Nakamura S, Yamazaki N, Kashiwara T, Takahashi A, Namikawa K, Takemori M, Okamoto H, Iijima K, Chiba T, Nakayama H, Takahashi A, Kaneda T, Takahashi K, Inaba K, Okuma K, Nakayama Y, Shimada K, Nakagawa H, Itami J. *Clin Transl Radiat Oncol*. 33:128-133.2022.
 74. Prognostic factor analysis of definitive radiotherapy using intensity-modulated radiation therapy and volumetric modulated arc therapy with boluses for scalp angiosarcomas. Kashiwara T, Igaki H, Ogata D, Nakayama H, Nakamura S, Okuma K, Mori T, Yamakawa K, Takahashi A, Namikawa K, Takahashi A, Takahashi K, Kaneda T, Inaba K, Murakami N, Nakayama Y, Okamoto H, Yamazaki N, Itami J. *Sci Rep*. 12(1):4355.2022.
 75. Efficacy of surgery for skin cancers initially suspected to be carcinoma of unknown primary: a retrospective observational study. Okumura M, Nakano E, Namikawa K, Takahashi A, Fujiwara Y, Yamazaki N. *Int J Dermatol*. 61(4):e150-e152. 2022.
 76. Concordance in judgment of clinical borders of basal cell carcinomas in Japanese patients: A preliminary study of JCOG2005 (J-BASE-MARGIN). Kamimura A, Nakamura Y, Takenouchi T, Matsushita S, Omodaka T, Yamamura K, Uchi H, Yoshikawa S, Yanagisawa H, Ito T, Kiyohara Y, Nakamura Y, Aoki M, Ishizuki S, Oashi K, Miyagawa T, Maeda T, Ogata D, Hatta N, Ohe S, Isei T, Takahashi A, Umeda Y, Yamaguchi B, Ishikawa M, Horimoto K, Fujisawa Y, Uehara J, Shibayama Y, Kuniwa Y, Kawahara Y, Matsuya T, Uhara H, Kato J, Nakamura Y, Murakami T, Namikawa K, Yoshino K, Funakoshi T, Takatsuka S, Matsui Y, Sasaki J, Koga H, Yokota K, Komori T, Fukushima S, Yamazaki N. *J Dermatol*. 49(9):837-844. 2022.
 77. Metastatic basal cell carcinoma with a high tumor mutational burden that achieved complete response with pembrolizumab. Yamakawa K, Ogata D, Hiki K, Jinnai S, Namikawa K, Takahashi A, Yamazaki N. *Int J Dermatol*. Online ahead of print. 2022.

78. The real-world safety of atezolizumab as second-line or later treatment in Japanese patients with non-small-cell lung cancer: a post-marketing surveillance study. Ohe Y, Yamazaki N, Yamamoto N, Murakami H, Yoh K, Kitano S, Hashimoto H, Murayama A, Nakane S, Gemma A. *Jpn J Clin Oncol*. 52(6):623-632. 2022.
79. Incidence and patterns of lymphatic drainage to the epitrochlear and popliteal sentinel lymph nodes in malignant melanoma of the distal extremities: a single-institution retrospective study. Jimnai S, Namikawa K, Takahashi A, Ogata D, Yamazaki N. *Int J Dermatol*. 61(7):855-860. 2022.
80. A phase I study of the safety and efficacy of talimogene laherparepvec in Japanese patients with advanced melanoma. Yamazaki N, Isei T, Kiyohara Y, Koga H, Kojima T, Takenouchi T, Yokota K, Namikawa K, Yi M, Keegan A, Fukushima S. *Cancer Sci*. 113(8):2798-2806. 2022.
81. A phase I dose-escalation, safety/tolerability, and preliminary efficacy study of the intratumoral administration of GEN0101 in patients with advanced melanoma. Kiyohara E, Tanemura A, Sakura K, Nakajima T, Myoui A, Yamazaki N, Kiyohara Y, Katayama I, Fujimoto M, Kaneda Y. *Cancer Immunol Immunother*. 71(8):2041-2049. 2022.
82. Safety and effectiveness of nivolumab in Japanese patients with malignant melanoma: Final analysis of a post-marketing surveillance. Uhara H, Tsuchida T, Kiyohara Y, Akamatsu A, Sakamoto T, Yamazaki N. *J Dermatol*. 49(9):862-871. 2022.
83. Prognoses of patients with melanoma who continue/discontinue anti-programmed death-1 therapy after achieving a complete response in a real-world setting: a multicentre retrospective study. Kato J, Namikawa K, Uehara J, Nomura M, Nakamura Y, Uhara H, Uchi H, Yoshikawa S, Kuniwa Y, Nakamura Y, Miyagawa T, Matsushita S, Takenouchi T, Hatta N, Ohno F, Maeda T, Fukushima S, Yamazaki N. *Br J Dermatol*. 87(4):594-596. 2022.
84. Postoperative radiation therapy improves prognoses in extramammary Paget's disease presenting with multiple lymph node metastases. Okumura M, Ogata D, Namikawa K, Tsutsui K, Takahashi A, Okuma K, Kashiwara K, Igaki H, Akiyama M, Yamazaki N. *J Dermatol*. 49(10):1005-1011. 2022.
85. Real-world safety and effectiveness of pembrolizumab in Japanese patients with radically unresectable melanoma: An all-case postmarketing surveillance in Japan. Yamazaki N, Shimizu A, Ozaki M, Hamada M, Takeuchi N, Ito Y, Maekawa S. *J Dermatol*. 49(11):1096-1105. 2022.
86. Clinical outcomes of surgical and imatinib treatment for rectal gastrointestinal stromal tumours: retrospective cohort study. Tsukamoto S, Honma Y, Shoji H, Hirano H, Inoue M, Takamizawa Y, Moritani K, Imaizumi J, Kanemitsu Y. *BJS Open*. 6(3):zrac067. 2022.
87. Efficacy and safety of regorafenib in Japanese patients with advanced gastrointestinal stromal tumors. Teranishi R, Takahashi T, Nishida T, Hirota S, Kurokawa Y, Saito T, Yamamoto K, Yamashita K, Tanaka K, Makino T, Motoori M, Omori T, Nakajima K, Eguchi H, Doki Y. *Int J Clin Oncol*. 27(7):1164-1172. 2022.
88. Real-world data on the efficacy and safety of adjuvant chemotherapy in Japanese patients with a high-risk of gastrointestinal stromal tumor recurrence. Ushimaru Y, Takahashi T, Nakajima K, Teranishi R, Nishida T, Hirota S, Motoori M, Omori T, Kawabata R, Nishikawa K, Saito T, Yamashita K, Tanaka K, Makino T, Yamamoto K, Kurokawa Y, Eguchi H, Doki Y. *Int J Clin Oncol*. 27(5):921-929. 2022.
89. The role of perioperative chemotherapy in primary high-grade extremity soft tissue sarcoma: a risk-stratified analysis using PERSARC. Acem I, Ogura K, Kawai A, et al. *Eur J Cancer*. 165:71-80. 2022.
90. Dedifferentiation in low-grade osteosarcoma: a Japanese Musculoskeletal Oncology Group (JMOG) study. Hirai T, Kobayashi H, Kobayashi E, Saito M, Akiyama T, Kikuta K, Nakai T, Endo M, Tsukamoto S, Hakozaaki M, Takenaka S, Nishimura S, Kawashima H, Tanzawa Y, Kawano H, Tanaka S. *Int J Clin Oncol*. 27(11):1758-1766. 2022.
91. Expert panel consensus recommendations on the use of circulating tumor DNA assays for patients with advanced solid tumors. Imai M, Nakamura Y, Sunami K, Kage H, Komine K, Koyama T, Amano T, Ennishi D, Kanai M, Kenmotsu H, Maeda T, Morita S, Sakai D, Bando H, Makiyama A, Suzuki T, Hirata M, Kohsaka S, Tsuchihara K, Naito Y, Yoshino T. *Cancer Sci*. 113:3646-3656.

2022.

92. Expansion of Cancer Risk Profile for BRCA1 and BRCA2 Pathogenic Variants. Momozawa Y, Sasai R, Usui Y, Shiraishi K, Iwasaki Y, Taniyama Y, Parsons MT, Mizukami K, Sekine Y, Hirata M, Kamatani Y, Endo M, Inai C, Takata S, Ito H, Kohno T, Matsuda K, Nakamura S, Sugano K, Yoshida T, Nakagawa H, Matsuo K, Murakami Y, Spurdle AB, Kubo M. JAMA Oncol. 8:871-878. 2022.
93. Best clinical management of tenosynovial giant cell tumour (TGCT): A consensus paper from the community of experts. Stacchiotti S, Dürr HR, Schaefer IM, Woertler K, Haas R, Kawai A, et al. Cancer Treat Rev. 2023 Jan;112:102491.
94. Establishment and characterization of NCC-PLPS2-C1: a novel cell line of pleomorphic liposarcoma. Akiyama T, Yoshimatsu Y, Noguchi R, Sin Y, Osaki J, Adachi Y, Ono T, Tsuchiya R, Sato C, Iwata S, Kojima N, Yoshida A, Ohtori S, Kawai A, Kondo T. Hum Cell. 2023 Jan;36(1):468-475.
95. Predictive value of peripheral blood markers in soft tissue sarcoma patients treated with eribulin. Ishihara S, Ogura K, Maeshima A, Shimoi T, Sudo K, Kojima Y, Fukushima S, Osaki S, Kobayashi E, Iwata S, Matsui Y, Yonemori K, Kawai A. Jpn J Clin Oncol. 2023 Mar 30;hyad021.
96. 加藤陽子.希少がん入門 「国立がん研究センター希少がんセンターの取り組み～患者さんやご家族、患者会の皆さんと共に～」の動画紹介 CLINIC magazine 2022 年 5 月号
97. 加藤陽子.希少がん入門 希少がんアドボカシー活動～それぞれの希少がんなど啓発の取り組み～ CLINIC magazine 2022 年 7 月号
98. 加藤陽子.希少がん入門 「希少がんグラント」の紹介 CLINIC magazine 2022 年 9 月号
99. 加藤陽子.希少がん入門 オンラインで開催 希少がんセミナー！「希少がん Meet the Expert」の紹介 CLINIC magazine 2022 年 11 月号

(学会発表)

1. 成田善孝. 2009-2016 脳腫瘍全国集計調査報告とデータの活用について. 第 81 回日本脳神経外科学会学術総会 2022 年 9 月;横浜.
2. 力武諒子. 「本邦における頭頸部領域の肉腫の現況」. 第 46 回日本頭頸部癌学会. 2022 年. 奈良
3. 佐竹 智行、森實 千種、力武 諒子、岩田 慎太郎、平野 秀和、緒方 大、下井 辰徳、須藤 一起、吉本 世一、山崎 直也、加藤 陽子、東 尚弘、川井 章. The epidemiology of rare cancers from National Cancer Registry in Japan. 第 19 回日本臨床腫瘍学会学術集会. 2022 年 2 月. 京都
4. Chigusa Morizane, Nozomu Machida, Yoshitaka Honma, Takuji Okusaka, Narikazu Boku, Ken Kato, Shogo Nomura, Nobuyoshi Hiraoka, Shigeki Sekine, Hirokazu Taniguchi, Naohiro Okano, Kensei Yamaguchi, Takuji Sato, Masafumi Ikeda, Nobumasa Mizuno, Masato Ozaka, Tomoko Kataoka, Yuko Kitagawa, Masanori Terashima, Junji Furuse, Japan Clinical Oncology Group (JCOG) . Randomized phase III study of etoposide/cisplatin versus irinotecan/cisplatin in advanced digestive NEC: JCOG1213. 第 19 回日本臨床腫瘍学会学術集会. 2022 年 2 月
5. Chigusa Morizane, Nozomu Machida, Yoshitaka Honma, Takuji Okusaka, Narikazu Boku, Ken Kato, Shogo Nomura, Nobuyoshi Hiraoka, Shigeki Sekine, Hirokazu Taniguchi, Naohiro Okano, Kensei Yamaguchi, Takuji Sato, Masafumi Ikeda, Nobumasa Mizuno, Masato Ozaka, Tomoko Kataoka, Yuko Kitagawa, Masanori Terashima, Junji Furuse, Randomized phase III study of etoposide plus cisplatin versus irinotecan plus cisplatin in advanced neuroendocrine carcinoma of the digestive system: a Japan Clinical Oncology Group study (JCOG1213). Japan Clinical Oncology Group (JCOG) . 2022 ASCO Gastrointestinal Cancers Symposium. 2022 年 1 月
6. 岩田慎太郎、川井章、他. 進行性デスモイド腫瘍に対するパゾパニブ療法は低用量で病勢の維持が可能である. 第 95 回日本整形外科学会学術総会. 2022 年 5 月. 神戸
7. Shintaro Iwata. What we know and don't know about infiltrative sarcoma. 第 95 回日本整形外科学会学術総会. 2022 年 5 月. 神戸
8. 岩田慎太郎. 後腹膜肉腫診療ガイドラインのエッセンス. 第 11 回 RAINBOW Conference. 2022 年 6 月. Web.
9. 岩田慎太郎、吉田朗彦. 左殿部軟部腫瘍の 1 例. 第 55 回日本整形外科学会骨・軟部腫瘍学術集会. 2022 年 7 月. 東京

10. Shintaro Iwata. Is Mixed Reality beneficial in infiltrative soft tissue sarcoma surgery? – A proof-of-concept study -. (Lecture) 21st General Meeting of the International Society of Limb Salvage. 2022 年 9 月. Los Angeles (USA)
11. Shintaro Iwata. How to manage infiltrative soft tissue sarcoma? - Survey for the musculoskeletal oncology surgeons -. (Oral) 21st General Meeting of the International Society of Limb Salvage. 2022 年 9 月. Los Angeles (USA)
12. 岩田慎太郎、加藤陽子、川井章. 希少がんホットラインの相談内容にみる希少がん患者の潜在的ニーズ. (ワークショップ) 第 60 回日本癌治療学会学術集会. 2022 年 10 月. 神戸
13. 岩田慎太郎. 小児・AYA 世代のがん患者の全国ゲノム診断プラットフォームの構築と長期サバイバーシップ支援に関する研究. 第 60 回日本癌治療学会学術集会. 2022 年 10 月. 神戸
14. Shintaro Iwata, Takahiro Higashi, Akira Kawai. CLINICOPATHOLOGICAL FEATURES AND TREATMENT PATHWAYS OF SOFT TISSUE SARCOMA BY TISSUE OF ORIGIN. (Poster) 2022 Connective Tissue Oncology Society Annual Meeting. 2022 年 11 月. Vancouver, Canada.
15. Dummer R, Pathan N, Zhu Z, Robert C, Arance A, de Groot JWB, Garbe C, Gogas HJ, Gutzmer R, Krajsová I, Liskay G, Loquai C, Mandalà M, Schadendorf D, Yamazaki N, di Pietro A, Cantey-Kiser J, Edwards M, Ascierto PA, Flaherty K. Molecular correlates of clinical benefit from circulating tumor DNA(ctDNA): Analysis of the COLUMBUS study. American Association for Cancer Research Annual Meeting. Apr 8-13, 2022.
16. 山崎直也、他. 皮膚悪性腫瘍患者会の現状と研究・診療上の患者市民参画の推進について. 第 38 回日本臨床皮膚科医会総会・臨床学術大会. 2022 年 4 月
17. 山崎直也、他. 臓器別ワークショップ 36：皮膚悪性腫瘍に対する最新の治療) 皮膚悪性腫瘍における最新の治療進歩. 第 60 回日本癌治療学会学術集会. 2022 年 10 月
18. 加藤陽子、小倉浩一、後藤悌、西田俊朗、川井章. Cancer information needs in patients with sarcoma: analysis of the questionnaire obtained from the participants in Rare Cancer Meet the Expert. 第 55 回日本整形外科学会 骨・軟部腫瘍学術集会. 2022 年 7 月
19. 加藤陽子. Rare Cancer Center – All Activities for Sarcoma Patients! -. 第 55 回日本整形外科学会 骨・軟部腫瘍学術集会. 2022 年 7 月
20. 加藤陽子. Rare Cancer Center – All Activities for Mesothelioma Patients!. 第 3 回 日本石綿・中皮腫学会学術集会. 2022 年 9 月
21. 加藤陽子、小倉浩一、後藤悌、西田俊朗、川井章. Cancer information needs in patients with rare cancers: analysis of the questionnaire obtained from the participants in “Meet the Expert on Rare Cancer”. 第 60 回日本癌治療学会学術集会. 2022 年 10 月
22. 小林英介. COVID-19 パンデミックが変えるがん・骨軟部腫瘍診療. 第 95 回日本整形外科学会総会. 2022 年 5 月
23. 小林英介、戸田 雄、岩田慎太郎、川井 章. 四肢および体幹表層に発生する高分化型脂肪肉腫成分を伴わない MDM2 増幅軟部肉腫と脱分化型脂肪肉腫の臨床的検討. 第 95 回日本整形外科学会総会. 2022 年 5 月
24. 小林英介. 悪性軟部腫瘍における診断と治療の変遷. 第 10 回 STS Clinical Conference Seminar. 2022 年 6 月
25. 小林英介. 整形外科領域における骨転移診療ガイドラインの改訂ポイント. 第 7 回日本がんサポーターブケア学会学術集会. 2022 年 6 月
26. 小林英介. 良性骨腫瘍の診断と治療. 第 55 回日本整形外科学会骨軟部腫瘍学術集会. 2022 年 7 月
27. 小林英介. ゲノム医療時代の骨軟部腫瘍診療. TRK Expert Summit Meeting. 2022 年 7 月
28. 小林英介. 超希少バリエントを含む骨軟部腫瘍診療最近の話題. 第 15 回四国骨軟部腫瘍研究会. 2022 年 9 月
29. 小林英介. Clinical outcome in MDM2-amplified soft tissue peripheral. sarcomas 21st ISOLS 2022 年 9 月. LA USA
30. 小林英介. 悪性軟部腫瘍の診断と治療における変遷と課題. Sarcoma conference. 2022 年 9 月. 広島
31. 小林英介. 悪性骨・軟部腫瘍の診断と治療. 第 60 回日本癌治療学会学術集会. 2022 年 10 月
32. 平田 真. 初学者のための 2 次的所見/germline findings への対応. 第 28 回日本遺伝性腫瘍学会学術集会. 2022 年 6 月. 岡山
33. 平井利英、平田 真、松本 嘉寛、大隈 知威、岩田慎太郎、比留間 徹、小倉浩一、西田佳弘、小林

- 寛、田中 栄、松田浩一. Comprehensive molecular profiling of extra-skeletal osteosarcoma. 骨軟部腫瘍ゲノムコンソーシアム. 第 55 回 日本整形外科学会 骨・軟部腫瘍集会. 2022 年 7 月. 東京
34. 平田 真. 骨軟部腫瘍におけるゲノム医療/医学の現状. 第 22 回骨軟部腫瘍サマーセミナー 2022 年 8 月. 福井
35. 平井 利英、平田 真、片山 琴絵、岩田 慎太郎、松本 嘉寛、比留間 徹、大津 敬、大隈 知威、小倉 浩一、西田 佳弘、小林 寛、松原 大祐、元井 亨、小田 義直、白石 友一、千葉 健一、山口 類、川井 章、柴田 龍弘、中川 英刀、井元 清哉、市川 仁、田中 栄、松田 浩一. Comprehensive molecular profiling of extra-skeletal osteosarcoma. 骨軟部腫瘍ゲノムコンソーシアム. 2022 年 9 月 Web 開催
36. 平田 真. 治療のがんゲノム医療と予防のがんゲノム医療が接するところ. 第 81 回日本癌学会学術総会. 2022 年 9 月. パシフィコ横浜. 神奈川
37. 中村航、須川正啓、Nicolas Raul、飯田直子、千葉健一、小田智世、平田真、辻本信一、柴徳生、伊藤秀一、白石友一. Adaptive sampling を用いたロングリードシーケンズ解析パイプラインの構築. 第 81 回日本癌学会学術総会. 2022 年 9 月. 神奈川
38. 平田 真. 遺伝性腫瘍に関する遺伝子パネル検査. 第 40 回日本染色体遺伝子検査学会学術集会. 2022 年 11 月. 東京
39. 平田 真. がんゲノム医療と遺伝性腫瘍. 第 25 回遺伝性腫瘍セミナー. 2022 年 11 月. Web 開催

(書籍)

1. 小林英介. 骨転移と骨の健康 整形外科医の関わり. がん支持療法テキストブック. P43-44. 金原出版. 2022.

(知的財産権)

記載なし

(政策提言 (寄与した指針等))

1. 日本皮膚悪性腫瘍学会 悪性黒色腫 (メラノーマ) 薬物療法の手引き作成委員会 (山崎直也、為政大幾、宇原久、清原祥夫、竹之内辰也、木庭幸子). 一般社団法人日本皮膚悪性腫瘍学会 悪性黒色腫 (メラノーマ) 薬物療法の手引き version1. 2022. Skin Cancer 37(2)67-71. 2022 年 10 月

(その他)

記載なし