

平 2 8 年 度 委 託 研 究 開 発 成 果 報 告 書

I. 基本情報

事業名： (日本語) 革新的がん医療実用化研究事業

(英語) Practical Research for Innovative Cancer Control

研究開発課題名： (日本語) ノン・ハイリスク群小児悪性固形腫瘍の安全性と治療後 QOL の向上への
新たな標準治療法開発のための多施設共同臨床研究

(英語) Multicenter collaborative study to develop novel standardized
treatment for non-high risk pediatric solid tumors.

研究開発担当者 (日本語) 京都府立医科大学大学院医学研究科小児科学 教授 細井 創

所属 役職 氏名： (英語) Department of Pediatrics, Kyoto Prefectural University of Medicine,
Graduate School of Medical Science, Professor, Hajime Hosoi

実施期間： 平成 26 年 4 月 1 日 ～ 平成 29 年 3 月 31 日

II. 成果の概要 (総括研究報告)

1. 「神経芽腫関連の治療法開発」では、日本神経芽腫研究グループと共同で低リスク、中間リスク神経芽腫に対する臨床試験を実施した。低リスク神経芽腫臨床試験は平成 25 年末に予定登録症例数に達したため登録を終了し、3 年間の追跡期間を終え、現在結果解析中である。中間リスク神経芽腫臨床試験は、平成 28 年 6 月に登録症例数 37 例で中間解析を行っており、良好な結果を得たため、引き続き試験を継続している。また、低リスク神経芽腫に対する新規臨床試験「血清 MYCN 遺伝子増幅を用いた無治療経過観察研究」は平成 28 年 2 月より症例登録を開始し、試験継続中である。
2. 「肝芽腫関連の治療開発」では、JPLT3-SIOPEL6 国際共同試験を施行し、治療成績、聴力検査の検討を行った。デキサトール併用群の治療成績、治療中の有害事象は非併用群と差はなく、デキサトールによる治療成績の低下や有害事象の変化は現時点では認められなかった。また、肝芽腫標準リスク群に対して JPLT3-S 臨床試験を実施し、現在までに 33 例の登録症例を得ているが、これまでに重篤な有害事象は認められず、大きな問題はなく臨床試験が実施されている。また、小児肝芽腫について、JPLT-2 プロトコールで治療が行われた 287 症例の晩期合併症をまとめた。

3. 「腎芽腫関連の治療法開発」では、平成 27 年より両側性腎芽腫に対する術前化学療法による臨床試験を開始した。希少な腎腫瘍であり、予定通りの症例登録数に達していないが引き続き登録を継続する。
4. 「中央病理診断システム構築」として、臨床研究に不可欠な中央病理診断と遺伝子解析、将来のトランスレーショナルリサーチに必要なオンライン病理診断、検体保存のシステムの基盤を構築した。平成 28 年は、脳腫瘍、リンパ腫を除いた小児固形腫瘍 463 例（神経芽腫群腫瘍 129、横紋筋肉腫 51、肝腫瘍 52、腎腫瘍 52、ユーイング肉腫 10、その他 169 例）の中央病理診断および検体管理・保存を行った。診断および治療の層別化に必要な遺伝子解析については、凍結組織からの RT-PCR 法によるキメラ遺伝子解析およびパラフィン切片を用いた FISH による遺伝子転座の解析を行った。がん免疫療法におけるバイオマーカーの標準化の基礎となる PD-L1 発現標準化（抗体差、cut off 値）の検討を開始し、各コンパニオン診断抗体との比較、現時点での最適抗体、悪性リンパ腫や横紋筋肉腫における発現結果を報告した。中央病理診断症例を用いた病理学的研究として、神経芽腫における ALK 発現と国際神経芽腫病理分類等のリスク因子との関連について検討した。ALK 高発現は国際神経芽腫病理分類の予後不良群と有意な相関があったが、MYCN 遺伝子増幅や 11qLOH との相関は無かった。また ALK 高発現は国際神経芽腫病理分類予後良好群での予後不良因子となることが判明した。
5. 「中央画像診断システム構築と実践」として、平成 28 年 4 月より日本小児がん研究グループ画像診断事務局の運営を開始した。JCCG 小児放射線科医を全国より 17 名確保、読影レポートなどの整備を行った。小児科医、小児外科医のための開発中の画像閲覧システムはインターネット Web 閲覧システムとしての X-TREK を完成させた。
6. 神経芽腫関連遺伝子 10 個のターゲットキャプチャーシーケンス、SNP アレイを用いた網羅的ゲノムコピー数解析を行った。その結果、神経芽腫は、ゲノム異常の特性により 6 つのサブグループに分類されることが判明し、これらのサブグループは臨床的特徴とよく相関することが明らかとなった。また、デジタル PCR によって、神経芽腫の予後不良因子である MYCN、11q 欠損、1p 欠損、17q 増幅の検出方法を確立した。また、また 11q 欠損のある神経芽腫由来細胞株が PARP 阻害剤に高感受性をしめすことを *in vitro*, *in vivo* で明らかにした。これら結果より、デジタル PCR を用い 11q 欠損を効率的に診断し、PARP 阻害剤を用いた治療を行える可能性が示唆された。

Development of novel clinical studies for neuroblastoma

To develop the standardized treatment strategy for non-high risk neuroblastoma, we performed two clinical studies for the patients with low-risk neuroblastoma and intermediate-risk neuroblastoma. The clinical trials for low-risk neuroblastoma completed the patient enrollment in the end of 2013, and now analyzing the data. In the clinical trial for intermediate-risk neuroblastoma, 37 patients were enrolled till June 2016, and we decided to continue the patient enrollment based on the results of interim analysis. Moreover, we started the new clinical study for low-risk, localized infantile neuroblastoma from Feb. 2016.

Development of novel clinical studies for hepatoblastoma

We performed international collaborative study for hepatoblastoma, named JPLT3-SIOPEL6, and analyzed the outcome of the patients and incidence of the adverse effect related to the chemotherapy. We also organized the

novel clinical study for the patients with standard-risk hepatoblastoma. 33 patients were enrolled to the study so far, and no severe toxicity has been observed. We also analyzed the incidence of late-onset adverse effect in the patients with hepatoblastoma treated with JPLT-2 protocol.

Development of novel clinical studies for nephroblastoma

We have started the new clinical trial for the patients with bilateral nephroblastoma from 2015. The number of enrolled patients did not reach the expectation, but we will continue the patient enrollment to complete the study.

Development of the central pathological review system

We established the on-line pathological diagnosis system and sample collection system, which should be indispensable for the central pathological review and molecular diagnosis. We performed pathological diagnosis and sample storage in a total of 463 cases of pediatric solid tumor (neuroblastoma; 129, rhabdomyosarcoma; 51, hepatoblastoma; 52, nephroblastoma; 52, Ewing sarcoma; 10, others; 169). We also analyzed the expression of PD-L1 in rhabdomyosarcoma tumor tissue, and the standardization of evaluation methods of PD-L1 expression for the further clinical trial. Moreover, we evaluated the correlation of the expression of ALK protein and international neuroblastoma pathology criteria (INPC), and found that high expression of ALK was strongly associated with poor prognosis group defined by INPC.

Development of central radiological imaging review system

We developed the web-based radiological imaging review system (X-TREK), and started the radiological imaging review in the collaboration with 17 pediatric radiologists.

Development of novel risk classification based on genomic/pathological information

We performed the target capture sequence for 10 of neuroblastoma-related genes, and genome-wide copy number alteration analysis by SNP array. We found that neuroblastoma could be stratified into 6 sub-group according to the characteristics of genomic alterations. We also developed novel detection system of 11q LOH, MYCN amplification, 1p LOH, and 17q gain, all of which were the poor prognostic factor for neuroblastoma, using droplet digital PCR system. Moreover, we discovered that PARP inhibitor effectively killed the neuroblastoma cells in vitro and in vivo.

III. 成果の外部への発表

(1) 学会誌・雑誌等における論文一覧 (国内誌 29 件、国際誌 47 件)

1. 中澤温子. 病理全般「小児がん診療ガイドライン」第 2 版 日本小児血液・がん学会編 金原出版 2016/8/10
2. Iwafuchi H, Nakazawa A, Matsuoka K, Watanabe T, Fuchimoto Y, Kiyotani C, Tsuzuki T. Seminoma accompanying mature teratoma in an infantile mediastinal region: A rare presentation of infantile germ cell tumors. Pathol Int. 2016 ;66(9):540-2.

3. Uchida H, Fukuda A, Sasaki K, Hirata Y, Shigeta T, Kanazawa H, Nakazawa A, Miyazaki O, Nosaka S, Mali VP, Sakamoto S, Kasahara M. Benefit of early inflow exclusion during living donor liver transplantation for unresectable hepatoblastoma. 2016 J Pediatr Surg. 2016;51(11):1807-1811.
4. Kaneuchi Y, Hakozaiki M, Yamada H, Tajino T, Watanabe K, Otani K, Hojo H, Hasegawa T, Konno S. Primary dumbbell-shaped epidural myxoid liposarcoma of the thoracic spine: A case report and review of the literature. Oncol Lett. 2016, 11:1421-1424.
5. 北條洋 軟部腫瘍:変化する疾患概念 紡錘(形)細胞型・硬化型横紋筋肉腫 病理と臨床 2016, 34:572-583.
6. 田中祐吉、中澤温子、北條洋 小児固形がんの最新のトピックス 中央病理診断の役割 小児外科 2016, 48:1145-1149.
7. Kato K, Oh Y, Takita J, Gunji Y, Kobayashi C, Yoshimi A, Nakao T, Noma M, Koike K, Morimoto A, Iijima S, Hojo H, Tsuchida M. Molecular genetic and cytogenetic analysis of a primary cutaneous CD8-positive aggressive epidermotropic cytotoxic T-cell lymphoma. Int J Hematol. 2016,103:196-201.
8. 小児病理診断講習会 横紋筋肉腫 口頭 北條洋 九州大学医学部中央会議棟多目的会議室 2016/8/27 国内
9. 横紋筋肉腫:臨床と病理の最前線 JRS-II の病理診断のピットホール 口頭 北條洋、大喜多 肇、孝橋 賢一、小田 義直、石田 剛、中澤 温子、義岡 孝子、瀧本 哲也 九州大学医学部中央会議棟多目的会議室 2016/8/27 国内
10. 希少がんの病理診断と診療体制 小児がんの病理診断 JCCG 中央病理診断の経験から 口頭 中澤 温子、北條洋、大喜多 肇、田中 祐吉、平戸 純子、義岡 孝子、細井 創、日本小児がん研究グループ病理診断委員会 金沢市文化ホール 2016/11/11 国内
11. Czauderna P, Lopez-Terrada D, Hiyama E, Häberle B, Malogolowkin MH, Meyers RL. Hepatoblastoma state of the art: pathology, genetics, risk stratification, and chemotherapy. Current Opinion in Pediatrics. 26(1): 19-28, 2014. doi: 10.1097/MOP.0000000000000046.
12. López-Terrada D, Alaggio R, de Dávila MT, Czauderna P, Hiyama E, Katzenstein H, Leuschner I, Malogolowkin M, Meyers R, Ranganathan S, Tanaka Y, Tomlinson G, Fabrè M, Zimmermann A, Finegold MJ; Children's Oncology Group Liver Tumor Committee. Towards an international pediatric liver tumor consensus classification: proceedings of the Los Angeles COG liver tumors symposium. Modern Pathology. 27(3): 472-91 2014. doi: 10.1038/modpathol.2013.80.
13. 上條岳彦, 檜山英三. 肝芽腫の診断と治療. 「最新肝癌学」, 日本臨牀社, 805-812, 2015.
14. 檜山英三, 上田祐華, 栗原 将. 肝芽腫の分子生物学. 小児外科. 47(2): 181-184, 2015.
15. Hiyama E. Pediatric Hepatoblastoma: diagnosis and treatment. Translational Pediatrics. 3(4)293-299, 2014. doi: 10.3978/j.issn.2224-4336.2014.09.01
16. Kurihara S, Ueda Y, Onitake Y, Sueda T, Ohta E, Morihara N, Hirano S, Irisuna F, Hiyama E. Circulating free DNA as non-invasive diagnostic biomarker for childhood solid tumors. Journal of Pediatric Surgery. 50(12): 2094-2097, 2015. doi: 10.1016/j.jpedsurg.2015.08.033.

17. Hiyama E, Hishiki T, Watanabe K, Ida K, Yano M, Oue T, Iehara T, Hoshino K, Koh K, Tanaka Y, Kurihara S, Ueda Y, Onitake Y. Mortality and morbidity in primarily resected hepatoblastomas in Japan: Experience of the JPLT (Japanese Study Group for Pediatric Liver Tumor) trials. *Journal of Pediatric Surgery*. 50(12): 2098-2101, 2015. doi: 10.1016/j.jpedsurg.2015.08.035.
18. Czauderna P, Haeberle B, Hiyama E, Rangaswami A, Krailo M, Maibach R, Rinaldi E, Feng Y, Aronson D, Malogolowkin M, Yoshimura K, Leuschner I, Lopez-Terrada D, Hishiki T, Perilongo G, von Schweinitz D, Schmid I, Watanabe K, Derosa M, Meyers R. The Children's Hepatic tumors International Collaboration (CHIC): Novel global rare tumor database yields new prognostic factors in hepatoblastoma and becomes a research model. *European Journal of Cancer*. 1(52): 92-101, 2015. doi: 10.1016/j.ejca.2015.09.023.
19. Honda S, Minato M, Suzuki H, Fujiyoshi M, Miyagi H, Haruta M, Kaneko Y, Hatanaka KC, Hiyama E, Kamijo T, Okada T, Taketomi A. Clinical prognostic value of DNA methylation in hepatoblastoma: Four novel tumor suppressor candidates. *Cancer Science*. 2016 Jun;107(6):812-9. doi: 10.1111/cas.12928. Epub 2016 Apr 27.
20. Hiyama E, Hishiki T, Watanabe K, Ida K, Yano M, Oue T, Iehara T, Hoshino K, Koh K, Tanaka Y, Kurihara S, Ueda Y, Onitake Y. Resectability and tumor response after preoperative chemotherapy in hepatoblastoma treated by the Japanese Study Group for Pediatric Liver Tumor (JPLT)-2 protocol. *Journal of Pediatric Surgery*. 2016 Dec;51(12):2053-2057. doi: 10.1016/j.jpedsurg.2016.09.038.
21. Czauderna P, Haeberle B, Hiyama E, Rangaswami A, Krailo M, Maibach R, Rinaldi E, Feng Y, Aronson D, Malogolowkin M, Yoshimura K, Leuschner I, Lopez-Terrada D, Hishiki T, Perilongo G, von Schweinitz D, Schmid I, Watanabe K, Derosa M, Meyers R. The Children's Hepatic tumors International Collaboration (CHIC): Novel global rare tumor database yields new prognostic factors in hepatoblastoma and becomes a research model. *Eur J Cancer*. 2016;52:92-101.
22. Meyers RL, Maibach R, Hiyama E, Häberle B, Krailo M, Rangaswami A, Aronson DC, Malogolowkin MH, Perilongo G, von Schweinitz D, Ansari M, Lopez-Terrada D, Tanaka Y, Alaggio R, Leuschner I, Hishiki T, Schmid I, Watanabe K, Yoshimura K, Feng Y, Rinaldi E, Saraceno D, Derosa M, Czauderna P. Risk-stratified staging in paediatric hepatoblastoma: a unified analysis from the Children's Hepatic tumors International Collaboration. *The Lancet Oncology*,18(1)122-131, 2017. doi: 10.1016/S1470-2045(16)30598-8.
23. 檜山英三. 小児がん臨床研究プロトコルの実際「肝腫瘍」, よくわかる臨床研究～小児がん～, 医薬ジャーナル社, 154-159, 2016. (著書)
24. 檜山英三, 上田祐華, 栗原 将, 河島茉澄. 小児肝腫瘍の最近の話題: グローバル試験へ向けて, 小児外科, 48(11); 1192-1195, 2016. (著書)
25. 檜山英三. 肝悪性腫瘍, 標準小児外科学, 医学書院, 342-348, 2016 (著書)

26. Ohta S, Isojima T, Mizuno Y, Kato M, Mimaki M, Seki M, Sato Y, Ogawa S, Takita J, Kitanaka S, Oka A. Partial monosomy of 10p and duplication of another chromosome in two patients. *Pediatr Int.* 2017, 59, 99-102
27. Hirabayashi S, Ohki K, Nakabayashi K, Ichikawa H, Momozawa Y, Okamura K, Yaguchi A, Terada K, Saito Y, Yoshimi A, Ogata-Kawata H, Sakamoto H, Kato M, Fujimura J, Hino M, Kinoshita A, Kakuda H, Kurosawa H, Kato K, Kajiwara R, Moriwaki K, Morimoto T, Nakamura K, Noguchi Y, Osumi T, Sakashita K, Takita J, Yuza Y, Matsuda K, Yoshida T, Matsumoto K, Hata K, Kubo M, Matsubara Y, Fukushima T, Koh K, Manabe A, Ohara A, Kiyokawa N. ZNF384-related fusion genes consist of a subgroup with a characteristic immunophenotype in childhood B-cell precursor acute lymphoblastic leukemia. *Haematologica.* 102:118-129, 2017 Osumi T, Kato M, Ouchi-Uchiyama M, Tomizawa D, Kataoka K, Fujii Y, Seki M, Takita J, Ogawa S, Uchiyama T, Ohki K, Kiyokawa N. Blastic transformation of juvenile myelomonocytic leukemia caused by the copy number gain of oncogenic KRAS. *Pediatr Blood Cancer.* 2017 Feb 28. 6. [Epub ahead of print]
28. Yoshida M, Hamanoue S, Seki M, Tanaka M, Yoshida K, Goto H, Ogawa S, Takita J, Tanaka Y. Metachronous anaplastic sarcoma of the kidney and thyroid follicular carcinoma as manifestations of DICER1 abnormalities. *Hum Pathol.* 2017, 61, 205-209
29. Kato M, Ishimaru S, Seki M, Yoshida K, Shiraishi Y, Chiba K, Kakiuchi N, Sato Y, Ueno H, Tanaka H, Inukai T, Tomizawa D, Hasegawa D, Osumi T, Arakawa Y, Aoki T, Okuya M, Kaizu K, Kato K, Taneyama Y, Goto H, Taki T, Takagi M, Sanada M, Koh K, Takita J, Miyano S, Ogawa S, Ohara A, Tsuchida M, Manabe A. Long-term outcome of six-month maintenance chemotherapy for acute lymphoblastic leukemia in children. *Leukemia.* 2017, 31, 580-584
30. Hirano Y, Itonaga T, Yasudo H, Isojima T, Miura K, Harita Y, Sekiguchi M, Kato M, Takita J, Oka A. Systemic lupus erythematosus presenting with mixed-type fulminant autoimmune hemolytic anemia. *Pediatr Int.* 2016, 58, 527-530
31. Yasuda T, Tsuzuki S, Kawazu M, Hayakawa F, Kojima S, Ueno T, Imoto N, Kohsaka S, Kunita A, Doi K, Sakura T, Yujiri T, Kondo E, Fujimaki K, Ueda Y, Aoyama Y, Ohtake S, Takita J, Sai E, Taniwaki M, Kurokawa M, Morishita S, Fukayama M, Kiyoi H, Miyazaki Y, Naoe T, Mano H. Recurrent DUX4 fusions in B cell acute lymphoblastic leukemia of adolescents and young adults. *Nat Genet.* 2016, 48, 569-74
32. Shiba N, Yoshida K, Shiraishi Y, Okuno Y, Yamato G, Hara Y, Nagata Y, Chiba K, Tanaka H, Terui K, Kato M, Park MJ, Ohki K, Shimada A, Takita J, Tomizawa D, Kudo K, Arakawa H, Adachi S, Taga T, Tawa A, Ito E, Horibe K, Sanada M, Miyano S, Ogawa S, Hayashi Y. Whole-exome sequencing reveals the spectrum of gene mutations and the clonal evolution patterns in paediatric acute myeloid leukaemia. *Br J Haematol.* 2016, 175, 76-89
33. Muraoka M, Okuma C, Kanamitsu K, Ishida H, Kanazawa Y, Washino K, Seki M, Kato M, Takita J, Sato Y, Ogawa S, Tsukahara H, Oda M. Adults with germline CBL mutation complicated with juvenile myelomonocytic leukemia at infancy. *J Hum Genet.* 2016, 61, 523-526

34. Ueda T, Nakata Y, Yamasaki N, Oda H, Sentani K, Kanai A, Onishi N, Ikeda K, Sera Y, Honda Z, Tanaka K, Sata M, Ogawa S, Yasui W, Saya H, Takita J, Honda H. ALKR1275Q perturbs extracellular matrix, enhances cell invasion, and leads to the development of neuroblastoma in cooperation with MYCN. *Oncogene*. 2016, 25, 4447-4458
35. Kato K, Oh Y, Takita J, Gunji Y, Kobayashi C, Yoshimi A, Nakao T, Noma M, Koike K, Morimoto A, Iijima S, Hojo H, Tsuchida M. Molecular genetic and cytogenetic analysis of a primary cutaneous CD8-positive aggressive epidermotropic cytotoxic T-cell lymphoma. *Int J Hematol*. 2016, 103, 196-201
36. Kato M, Seki M, Yoshida K, Sato Y, Oyama R, Arakawa Y, Kishimoto H, Taki T, Akiyama M, Shiraishi Y, Chiba K, Tanaka H, Mitsuiki N, Kajiwara M, Mizutani S, Sanada M, Miyano S, Ogawa S, Koh K, Takita J. Genomic analysis of clonal origin of Langerhans cell histiocytosis following acute lymphoblastic leukaemia. *Br J Haematol*. 2016, 175, 169-172
37. 滝田順子 : 小児白血病のゲノム・エピゲノム異常と臨床応用. *臨床血液*. 2016, 57, 2294-2300
38. 滝田順子 : 骨髄増殖性腫瘍のマネジメントと最近の展開】 若年性骨髄単球性白血病の病態と遺伝子異常. *血液内科*. 2016, 73, 340-344
39. 滝田順子 :【ガイドラインと最新文献による小児科学レビュー2016-'17】 疾患編 血液、腫瘍 固形腫瘍. *小児科学レビュー*. 2016, 17, 375-382
40. 片山菜穂子, 加藤元博, 渡邊健太郎, 樋渡光輝, 張田豊, 滝田順子, 岡明 : 小児血液・腫瘍患者のカテーテルへの colonization に対する抗生剤ロック療法. *日本小児血液・がん学会雑誌*. 2016, 52, 409-413
41. 竹原広基, 関口昌央, 加藤元博, 塩澤亮輔, 林泰祐, 清水信隆, 渡邊健太郎, 樋渡光輝, 滝田順子, 岡明 : 慢性心不全を合併した Down 症候群患児に発症した急性巨核芽球性白血病. *日本小児科学会雑誌*. 120, 752-755
42. 長澤武, 渡邊健太郎, 加藤元博, 関口昌央, 樋渡光輝, 岡明, 滝田順子 : ALK 増幅難治性神経芽腫における Crizotinib の使用経験. *日本小児血液・がん学会雑誌*. 2016, 53, 8-12
43. 関口昌央, 荒川ゆうき, 大隅朋生, 磯部清孝, 滝田順子, 花田良二, 富澤大輔, 松本公一, 岡明, 康勝好, 加藤元博 : 中心静脈カテーテルからの逆流採血方法の差異とタクロリムス血中濃度測定の誤差に関する検討. *日本造血細胞移植学会誌*. 2016, 5, 87-92
44. 瀧本哲也. 臨床試験. *小児血液・腫瘍学*, 2015, 332-336.
45. 瀧本哲也. 国立成育医療研究センターの固形腫瘍データセンター. *よくわかる臨床研究-小児がん*, 2016, 132-136.
46. Iehara T, Yagyu S, Tsuchiya K, Kuwahara Y, Miyachi M, Tajiri T, Sugimoto T, Sawad T, Hosoi H: Residual tumor in cases of intermediate-risk neuroblastoma did not influence the prognosis. *Japanese Journal of Clinical Oncology* 2016; 46: 1-6.
47. Fumino S, Maniwa J, Takeuchi Y, Sakai K, Higashi M, Aoi S, Furukawa T, Kimura O, Tajiri T: Surgical intervention and perioperative risk factors of retroperitoneal teratomas in children: a single institution experience. *Pediatric Surgery International*. 2016; 32: 909-914.
48. Tanaka T, Higashi M, Kimura K, Wakao J, Fumino S, Iehara T, Hosoi H, Sakai T, Tajiri T: MEK inhibitors as a novel therapy for neuroblastoma: Their in vitro effects and predicting their efficacy. *J Pediatr Surg* 2016; 51: 2074-2079.

49. Kimura K, Kishida T, Wakao J, Tanaka T, Higashi M, Fumino S, Aoi S, Furukawa T, Mazda O, Tajiri T: Tumor-homing effect of human mesenchymal stem cells in a TH-MYCN mouse model of neuroblastoma. *J Pediatr Surg* 2016; 51: 2068-2073.
50. 田尻達郎 : 神経芽腫 今日の治療指針 私はこう治療している. 2016 Volume58 医学書院. 2016, 1424-1425.
51. Tajiri T: PartVII Tumors 60 Neuroblastoma. Operative general surgery in neonates and infants. Springer 2016, 365-370.
52. Yoneda A, Nishikawa M, Uehara S, et al: Can neoadjuvant chemotherapy reduce the surgical risks for localized neuroblastoma patients with image-defined risk factors at the time of diagnosis? *Pediatr Surg Int*, 2016, 32, 209-214.
53. Yoneda A, Nishikawa M, Uehara S, et al: Can image-defined risk factors predict surgical complications in localized neuroblastoma? *Eur J Pediatr Surg* , 2016, 26, 117-122.
54. Matthay KK, Maris JM, Schleiermacher G, Nakagawara A, Mackall CL, Diller L, Weiss WA: Neuroblastoma. *Nat Rev Dis Primers* 2016 Nov 10; 2: 16078. doi: 10.1038/nrdp.2016.78.
55. Fumino S, Kimura K, Iehara T, Nishimura M, Nakamura S, Souzaki R, Nishie A, Taguchi T, Hosoi H, Tajiri T: Validity of image-defined risk factors in localized neuroblastoma: A report from two centers in Western Japan. *J Pediatr Surg* 2015, 50: 2102-2106.
56. 中川原章 : COG and JCCG JCCG と COG 小児血液・がん研究の将来へ向けたグローバルな挑戦. *日本小児血液・がん学会雑誌* 52 : 359-364, 2016.
57. 田尻達郎 :【小児固形がんの最新のトピックス】神経芽腫のトピックス. *小児外科* 48:1185-1191, 2016.
58. Janette M, Maeda T, Souzaki R, et al: Comprehensive analyses of imprinted differentially methylated regions reveal epigenetic and genetic characteristics in hepatoblastoma. *BioMed Cancer*, 2014.
59. Hirakawa M, Nishie A, Asayama Y, Fujita N, Ishigami K, Tajiri T, Taguchi T, Honda H: Efficacy of preoperative transcatheter arterial chemoembolization combined with systemic chemotherapy for treatment of unresectable hepatoblastoma in children: *Jpn J Radiol*, 2014. 32.529-536.
60. Oue T, Koshinaga T, Okita H, Kaneko Y, Hinotsu S, Fukuzawa M. Bilateral Wilms tumors treated according to the Japan Wilms Tumor Study Group protocol. *Pediatric blood & cancer* 2014; 61: 1184-9.
61. Kaneko Y, Okita H, Haruta M, Arai Y, Oue T, Tanaka Y, Horie H, Hinotsu S, Koshinaga T, Yoneda A, Ohtsuka Y, Taguchi T, Fukuzawa M. A high incidence of WT1 abnormality in bilateral Wilms tumours in Japan, and the penetrance rates in children with WT1 germline mutation. *British journal of cancer* 2015; 112: 1121-33.
62. Oue T, Fukuzawa M, Koshinaga T, Okita H, Nozaki M, Chin M, Kaneko Y, Tanaka Y, Haruta M, Tsuchiya K, Kuwajima S, Takimoto T. Management of pediatric renal tumor: Past and future trials of the Japan Wilms Tumor Study Group. *Pediatrics international* : official journal of the Japan Pediatric Society 2015; 57: 828-31.

63. Ueno-Yokohata H, Okita H, Nakasato K, Akimoto S, Hata J, Koshinaga T, Fukuzawa M, Kiyokawa N. Consistent in-frame internal tandem duplications of BCOR characterize clear cell sarcoma of the kidney. *Nature genetics* 2015; 47: 861-3.
64. Oue, T.; Koshinaga, T.; Takimoto, T.; Okita, H.; Tanaka, Y.; Nozaki, M.; Haruta, M.; Kaneko, Y.; Fukuzawa, M.; Renal Tumor Committee of the Japanese Children's Cancer, G., Anaplastic histology Wilms' tumors registered to the Japan Wilms' Tumor Study Group are less aggressive than that in the National Wilms' Tumor Study 5. *Pediatr Surg Int* 2016, 32 , 851-5
65. 野澤久美子、宮寄治. 日本小児がん研究グループ (JCCG) における画像診断委員会の役割と取り組み. *映像情報メディカル*. 2017,49,62-65
66. Takagi M, Yoshida M, Nemoto Y, Tamaichi H, Tsuchida R, Seki M, Uryu K, Hoshino N, Nishii R, Miyamoto S, Saito M, Shimizu T, Hanada R, Kaneko H, Fukao T, Koyama T, Shiraishi Y, Chiba K, Tanaka H, Miyano S, Sato Y, Fujii Y, Kataoka K, Okuno Y, Yoshida K, Morio T, Oka A, Ohira M, Hayashi Y, Nakagawara A, Ogawa S, Mizutani S, Takita J. Loss of DNA damage response in neuroblastoma and utility of a PARP inhibitor. *J Natl Cancer Inst.* 2017 in press
67. Honda S, Minato M, Suzuki H, Fujiyoshi M, Miyagi H, Haruta M, Kaneko Y, Hatanaka KC, Hiyama E, Kamijo T, Okada T, Taketomi A. Clinical prognostic value of DNA methylation in hepatoblastoma: Four novel tumor suppressor candidates. *Cancer Sci.* 2016 Mar 16. doi: 10.1111/cas.12928
68. 春田雅之, 上條岳彦. 分子生物学の新知見 小児外科 48:1129-1132
69. Kaneko Y, Okita H, Haruta M, Arai Y, Oue T, Tanaka Y, Horie H, Hinotsu S, Koshinaga T, Yoneda A, Ohtsuka Y, Taguchi T, Fukuzawa M. A high incidence of WT1 abnormality in bilateral Wilms tumours in Japan, and the penetrance rates in children with WT1 germline mutation. *Br J Cancer.* 112:1121-1133, 2015.
70. Oue T, Fukuzawa M, Koshinaga T, Okita H, Nozaki M, Chin M, Kaneko Y, Tanaka Y, Haruta M, Tsuchiya K, Kuwajima S, Takimoto T. Management of pediatric renal tumor: Past and future trials of the Japan Wilms Tumor Study Group. *Pediatr Int.* 57:828-831, 2015.
71. Honda S, Minato M, Suzuki H, Masato F, Miyagi H, Haruta M, Kaneko Y, Hatanaka K, Hiyama E, Kamijo T, Okada T, Taketomi A. Clinical prognostic value of aberrant methylation of four novel tumor suppressor candidates in hepatoblastoma. *Cancer Sci* 2016; 107(6):812-9.
72. Oue T, Koshinaga T, Takimoto T, Okita H, Tanaka Y, Nozaki M, Haruta M, Kaneko Y, Fukuzawa M; Renal Tumor Committee of the Japanese Children's Cancer Group. Anaplastic histology Wilms' tumors registered to the Japan Wilms' Tumor Study Group are less aggressive than that in the National Wilms' Tumor Study 5. *Pediatr Surg Int.* 2016; 32(9):851-5.
73. 金子安比古: Wilms 腫瘍(腎芽腫)の発生に関わるジェネティック・エピジェネティック異常、および遺伝性・両側性 Wilms 腫瘍の原因遺伝子日小血がん会誌 51:423-431, 2014.
74. 金子安比古: 小児固形腫瘍の分子生物学 (その 4) 次世代シーケンサーの時代 小児外科 47 巻 2 号 (2015 年 2 号) Wilms 腫瘍 (腎芽腫) の分子生物学 165-170, 2015.
75. 金子安比古: 日本臨床: 2015 年 8 月増刊号 家族性腫瘍学: 家族性腫瘍の最新研究動向 2. 原因遺伝子(26) WT1 394-400.

76. 金子安比古：日本臨床：2015年8月増刊号 家族性腫瘍学：家族性腫瘍の最新研究動向 3. 臓器・領域別家族性腫瘍の臨床 (22) 小児科腫瘍 534-538.

(2) 学会・シンポジウム等における口頭・ポスター発表

1. A High ALK expression is Associated with an Unfavorable Histology in Neuroblastoma. ポスター発表, Nakazawa A, Uryu K, Haga C, Okita H, Takimoto T, Tajiri T, Nakagawara A, Ogawa S, Takita J. Advanced Neuroblastoma Research, Cairns, 2016/6/21, 国外
2. 小児病理 (小児腫瘍) と免疫染色. 口頭発表、中澤温子. 第5回神戸免疫組織診断セミナー (いむーのセミナー) 2016/5/13, 国内
3. Pathology and molecular diagnosis for devising a treatment strategy in pediatric solid tumors. 小児固形腫瘍に対する治療戦略画策のための分子病理診断. 口頭発表、中澤温子. 第75回日本癌学会学術集会 2016/10/7, 国内
4. 標準・中間リスク肝芽腫に対する臨床試験 (JPLT3-S, JPLT3-I) の進捗状況、井田孔明、平成28年度第1回班会議、2016/08/19、国内
5. 標準・中間リスク肝芽腫に対する臨床試験 (JPLT3-S, JPLT3-I) の進捗状況、井田孔明、平成28年度第2回班会議、2016/12/23、国内
6. 標準リスクプロトコールの進捗状況、井田孔明、JCCG 肝腫瘍委員会報告会、2017/01/21、国内
7. 栗原 将, 鬼武美幸, 小倉 薫, 檜山英三. 肝芽腫の縦隔再発に対して ICG 蛍光法を使用した経験. 第55回日本中国四国小児がん研究会. 2014年4月26日. 広島県福山市. (口頭発表)
8. 檜山英三. JPLT(肝芽腫). 第51回日本小児外科学会. 2014年5月9日. 大阪市.
9. 本多昌平, 湊 雅嗣, 鈴木 拓, 春田雅之, 金子安比古, 檜山英三, 武富紹信. DNA メチル化解析による肝芽腫の新規予後予測マーカーの確立. 第73回日本癌学会学術集会. 2014年9月25日. 横浜市. (一般口演)
10. Hiyama E, Hishiki T, Watanabe K, Ida K, Yano M, Oue T, Iehara T, Hoshino K, Koh K, Tanaka Y, Kurihara S. Outcome and morbidity of primary resection of hepatoblastoma in JPLT-1 and 2 protocols. SIOP2014. October22-25, 2014, Toronto, Canada. (ポスターディスカッション)
11. 栗原 将, 鬼武美幸, 三木瑞香, 中村和洋, 小林正夫, 檜山英三. 肺転移を有した肝芽腫 6 例の外科的検討. 第56回日本小児血液・がん学会学術集会. 2014年11月28-30日. 岡山市.
12. Kurihara S, Ueda Y, Onitake Y, Sueda T, Ohta E, Morihara N, Hirano S, Irisuna F, Hiyama E. Circulating free DNA as non-invasive diagnostic biomarker for childhood solid tumors. 48th Annual Meeting of the Pacific Association of Pediatric Surgeons. May 17-21, 2015. Jeju, South Korea. (一般口演 5/19)
13. Hiyama E, Hishiki T, Watanabe K, Ida K, Yano M, Oue T, Iehara T, Hoshino K, Koh K, Tanaka Y, Kurihara S, Ueda Y, Onitake Y. Mortality and morbidity in primarily resected hepatoblastomas in Japan: experience of JPLT (Japanese study group for pediatric liver

- tumor) trials. 48th Annual Meeting of the Pacific Association of Pediatric Surgeons. May 17-21, 2015. Jeju, South Korea. (一般口演 5/21)
14. 湊 雅嗣, 本多昌平, 小林 希, 三次早香, 鈴木 拓, 岡田忠雄, 宮城久之, 檜山英三, 武富紹信. *OCIAD2*はDNAメチル化により制御される肝芽腫の新規癌抑制遺伝子である. 第52回日本小児外科学会学術集会. 2015年5月28~30日. 兵庫県神戸市. (要望演題 5/28)
 15. 菱木 知郎, 家原 知子, 井田孔明, 大植孝治, 康 勝好, 田中祐吉, 星野 健, 矢野道広, 渡邊健一郎, 檜山英三, 日本小児肝癌スタディグループ(JPLT). 小児期発症肝細胞がんの現状と切除不能例に対する治療戦略の展望~JPLT2登録症例の後方視的解析を通して. 第52回日本小児外科学会学術集会. 2015年5月28~30日. 兵庫県神戸市. (要望演題 5/29)
 16. Hiyama E, Kurihara S, Ueda Y, Hishiki T, Ida K, Iehara T, Oue T, Yano M, Watanabe K, Hoshino K, Ko K, Tanaka Y. Survival and late effects in the risk-stratified hepatoblastoma patients treated by JPLT-2 protocol. 2015 ASCO Annual Meeting, May 29-June 2, 2015. Chicago, U.S.A (ポスターセッション 5/31)
 17. Hiyama E, Hishiki T, Ida K, Watanabe K, Oue T, Yano M, Hoshino K, Iehara T, Koh K, Tanaka Y, Kurihara S, Ueda Y. Prediction of prognosis by preoperative chemotherapy response in hepatoblastoma patients treated by JPLT-2 protocol. SIOP 2015, October 8-11, 2015. Cape Town, South Africa. (10/9 SIOP award session)
 18. Hiyama E, Kurihara S, Onitake Y, Ueda Y, Morihara N, Fukuba I, Komatsu R. Integrated exome analysis in childhood hepatoblastoma: Biological approach for molecular targeting. SIOP 2015, October 8-11, 2015. Cape Town, South Africa. (10/10 Free papers)
 19. Watanabe K, Hishiki T, Ida K, Oue T, Yano M, Hoshino K, Iehara T, Koh K, Tanaka Y, Hiyama E. Congenital hepatoblastoma in JPLT-2 study. SIOP 2015, October 8-11, 2015. Cape Town, South Africa. (10/9 Poster discussion)
 20. 檜山英三. 【教育講演】小児肝腫瘍の診断・治療の進歩. 小児血液・がんセミナー in 関東・甲信越. 2015年10月25日. 埼玉県熊谷市.
 21. 檜山英三. 小児肝がんに対するゲノム解析と国際共同臨床試験へのアプローチ. 第53回日本癌治療学会学術集会. 2015年10月29~31日. 京都市. (一般口演 10/30)
 22. 本多昌平, 湊 雅嗣, 宮城久之, 檜山英三, 武富紹信. 肝芽腫の化学療法抵抗性に関わるDNAメチル化異常解析. 第57回日本小児血液・がん学会学術集会. 2015年11月27~29日. 山梨県甲府市. (11/27 一般口演)
 23. 檜山英三. 「小児肝がん治療の現状と今後」. 第12回大阪小児固形腫瘍研究会. 2015年12月18日. 大阪市. (招待講演)
 24. Hiyama E. Exome sequencing of hepatoblastoma identifies biological signatures and potential therapeutic targets. International Pediatric Liver Tumor Symposium. February 25-26, 2016. Texas, USA. (2/27 symposium)
 25. 本多昌平, 宮城久之, 檜山英三, 武富紹信. 肝芽腫において異常メチル化で発現抑制されるPARP6の機能解析. 第116回日本外科学会定期学術集会. 2016年4月14~16日. 大阪国際会議場(大阪市) (一般口演 4/14)
 26. 檜山英三. 小児肝腫瘍国際共同試験への歩み. 第96回京滋小児悪性腫瘍懇話会. 2016年5月20日. LAQUE (ラケ) 四条烏丸ビル6階(京都市)

27. Brock PR, Childs M, Rajput K, Maibach R, Brugieres L, Roebuck D, Sullivan M, Laithier V, Rhonge M, dall'Igna P, Hiyama E, Brichard B, Skeen J, Mateos M, Capra M, Fabre M, Perilongo G, Czauderna P, Morland B, Neuwelt E. Two-year results of clinical efficacy of cisplatin in combination with sodium thiosulfate (STS) vs cisplatin alone in a randomized phase III trial for standard risk hepatoblastoma (SR-HB): SIOPEL 6. 2016 ASCO Annual Meeting. June 3-7, Chicago, Illinois, USA. (一般口演 6/5)
28. Brock P, Childs M, Rajput K, Maibach R, Brugieres L, Roebuck D, Sullivan M, Laithier V, Rhonge M, dall'Igna P, Hiyama E, Brichard B, Skeen J, Mateos M, E, Capra M, Fabre M, Perilongo G, Czauderna P, Morland B, Neuwelt E. Two Year Results of a Randomised Phase III Trial for Standard Risk Hepatoblastoma (SR-HB) SIOPEL 6; Cisplatin and Sodium Thiosulfate (STS) Vs Cisplatin Alone. 48th Congress of the International Society of Paediatric Oncology (SIOP). October 19-22, 2016. Dublin, Ireland (The Convention Centre Dublin). O-110 (一般口演 10/22)
29. Hiyama E, Hishiki T, Oue T, Hoshino K, Kurihara S, Kawashima M, Ueda Y. Surgical Resectability and Tumour Response to Preoperative Chemotherapy in Hepatoblastoma Patients Treated by the Japanese Study Group for Paediatric Liver Tumour (JPLT)-2 Protocol. 48th Congress of the International Society of Paediatric Oncology (SIOP). October 19-22, 2016. Dublin, Ireland (The Convention Centre Dublin). O-164(一般口演 10/20)
30. Watanabe K, Hishiki T, Ida K, Oue T, Yano M, Hoshino K, Iehara T, Koh K, Tanaka Y, Hiyama E. Congenital Abnormalities and Genetic Backgrounds Associated with Paediatric Malignant Liver Tumour in the Japanese Study Group for Paediatric Liver Tumour. 48th Congress of the International Society of Paediatric Oncology (SIOP). October 19-22, 2016. Dublin, Ireland (The Convention Centre Dublin). PD-064(ポスターディスカッション 10/20)
31. Fuji H, Soejima T, Nozaki M, Masaki H, Nozawa K, Miyazaki O, Kitamura M, Tajiri T, Koshinaga T, Hosoi H, Hiyama E, Takimoto T, Fukuzawa M, Kiyokawa N, Hara J. Radiotherapy Quality Management System for Conducting Nationwide Clinical Trials: An Instrument Established by the Japan Children's Cancer Group. 48th Congress of the International Society of Paediatric Oncology (SIOP). October 19-22, 2016. Dublin, Ireland (The Convention Centre Dublin). PD-127 (ポスターディスカッション 10/20)
32. Hiyama E, Hishiki T, Ida K, Watanabe K, Oue T, Yano M, Hoshino K, Iehara T, Koh K, Tanaka Y, Kurihara S, Kawashima M, Ueda Y. Genetic Risk Factors of Chemotherapy-Related Ototoxicity and Cardiotoxicity in Hepatoblastoma. 48th Congress of the International Society of Paediatric Oncology (SIOP). October 19-22, 2016. Dublin, Ireland (The Convention Centre Dublin). P-0342 (E-Posters) (ポスターディスカッション) 発表日不明
33. 宮寄 治, 小熊栄二, 西川正則, 田波 穰, 北見昌広, 細川崇洋, 渡邊健一郎, 菱木知郎, 井田孔明, 檜山英三. 肝芽腫の肺結節—JCCG 肝芽腫症例における PRETEXT 肺転移診断基準の妥当性の検討. 第 58 回日本小児血液・がん学会学術集会. 2016 年 12 月 15 日～17 日. 品川プリンスホテル (東京都品川区) (一般口演 12/15)
34. Major Symposium, Characteristics of ALK-related pediatric cancers, 口頭, Takita J, AACR2016, New Orleans, U.S.A., 2016/4/18, 国外.

35. 小児固形腫瘍の病態解明を目指した統合的ゲノム・エピゲノム解析, 口頭, 滝田順子, 第12回北関東小児がんセミナー, 群馬, 2016/5/21, 国内.
36. 分子生物学の進歩: 神経芽腫, 口頭, 滝田順子, TCCSG夏季例会, 東京, 2016/7/23, 国内.
37. 小児固形腫瘍の分子病態の解明, 口頭, 滝田順子, 第22回北愛媛小児血液・悪性腫瘍研究会, 愛媛, 2016/6/17, 国内.
38. Genetic and epigenetic alterations in childhood leukemia, 口頭, Takita J, The 5th JCA-AACR Special Joint Conference Meet the Expert Evening Thursday, Chiba, 2016/7/14, 国内.
39. Integrated Genetic Analysis of Pediatric T-cell Acute Lymphoblastic Leukemia, 口頭, Takita J, The 5th JCA-AACR Special Joint Conference, Chiba, 2016/7/15, 国内.
40. 小児固形腫瘍のゲノム・エピゲノム異常, 口頭, 滝田順子, 臨床遺伝子学セミナー, 東京, 2016/8/21, 国内.
41. 小児固形腫瘍の治療と分子病態の解明, 口頭, 滝田順子, 2016年小児血液・がんセミナー in 関西, 大阪, 2016/9/25, 国内.
42. Genetic and epigenetic alterations of pediatric leukemia and application. 口頭, Takita J, 日本血液学会, 横浜, 2016/10/15, 国内.
43. Genetic and epigenetic alterations of pediatric leukemia, 口頭, Takita J, Pediatric Hematology Forum 2016, Nagoya, 2016/11/19, 国内.
44. ALK 関連小児固形腫瘍の遺伝学的特性, 口頭, 滝田順子, 第一回日本肉腫学会・日本臨床肉腫学会合同年次集会, 京都, 2016/12/2, 国内.
45. 血病を合併したマフッチ症候群におけるエクソーム解析, 口頭, 関正史, 吉田健一, 加藤元博, 秋山正晴, 百名伸之, 真部淳, 小川誠司, 滝田順子, 岡明, 第119回日本小児科学会学術集会, 札幌, 2016/5/13, 国内.
46. Down-ALLとnon Down-All における遺伝子背景の相違, 口頭, 瓜生久美子, 吉田健一, 関正史, 樋渡光輝, 康勝好, 後藤裕明, 小川誠司, 宮野悟, 滝田順子, 岡明, 第119回日本小児科学会学術集会, 札幌, 2016/5/13, 国内.
47. 中枢神経浸潤を伴うALCLに対し大量MTX療法と髄注を強化した化学療法を行った2歳男児例, ポスター, 関口昌央, 樋渡光輝, 半谷まゆみ, 久保田泰央, 滝田順子, 岡明, 第119回日本小児科学会学術集会, 札幌, 2016/5/14, 国内.
48. 神経芽腫におけるATMとその関連遺伝子の解析, 口頭, 吉田美沙, 瓜生久美子, 関正史, 星野論子, 樋渡光輝, 吉田健一, 小川誠司, 林泰秀, 滝田順子, 岡明, 第119回日本小児科学会学術集会, 札幌, 2016/5/13, 国内.
49. Genetic characteristics of 494 neuroblastomas using genome-wide analysis combined with immunohistochemistry, ポスター, Uryu K, Nishimura R, Yoshida K, Kataoka K, Shiraishi Y, Chiba K, Tanaka H, Seki M, Hoshino N, Hiwatari M, Oka A, Hayashi Y, Nakazawa A, Takimoto T, Tajiri T, Nakagawara A, Miyano S, Ogawa S, Takita J, ANR, Cairns, 2016/6/20, 国外.
50. Identification of novel pathways and molecules able to down regulate oncogenes expression by in vitro drug screening approaches in neuroblastoma cells, ポスター, Hiwatari M, Seki M, Oka A, Takita J, ANR, Cairns, 2016/6/21, 国外.

51. DNA methylation analysis in acute lymphoblastic leukemia of Down syndrome, ポスター, Kubota Y, Uryu K, Kawai T, Ito T, Hanada I, Toki T, Seki M, Yoshida K, Sato Y, Shiraishi Y, Chiba K, Tanaka H, Miyano S, Oka A, Hayashi Y, Ogawa S, Terui K, Sato A, Hata K, Ito E, Takita J, The 35th Sapporo International Cancer Symposium, 2016/6/24, 国内.
52. 統合的ゲノム解析による小児T細胞性急性リンパ性白血病における新規標的の同定, 口頭, 滝田順子, 第75回日本癌学会学術総会, 2016/10/8, 国内.
53. Genetic characteristic of 500 neuroblastomas using genomewide combined with immunohistochemistry, 口頭, Uryu K, Yoshida K, Kataoka K, Seki M, Hiwatari M, Hayashi Y, Nakazawa A, Takimoto T, Tajiri T, Nakagawara A, Miyano S, Ogawa S, Takita J, 第75回日本癌学会学術総会, 横浜, 2016/10/6, 国内.
54. Mutation analysis of NOTCH1 and FBXW7 in pediatric T cell acute lymphoblastic leukemia (T-ALL), 口頭, Kimura S, Seki M, Yoshida K, Shiraishi Y, Chiba K, Tanaka H, Akiyama M, Koh K, Miyano S, Imamura T, Ogawa S, Takita J, 第75回日本癌学会学術総会, 横浜, 2016/10/7, 国内.
55. 小児胚細胞腫瘍の遺伝子発現プロファイルに基づくクラスター分析, ポスター, 久保田泰央, 関正史, 吉田健一, 佐藤悠佑, 白石友一, 千葉健一, 田中洋子, 田中祐吉, 宮野悟, 岡明, 林泰秀, 小川誠司, 滝田順子, 第75回日本癌学会学術総会, 横浜, 2016/10/7, 国内.
56. 小児T-ALLにおけるSPI1高発現を呈する新規高悪性度群の同定, ポスター, 関正史, 吉田健一, 木村俊介, 白石友一, 今村俊彦, 堀部敬三, 清河信敬, 小原明, 眞田昌, 間野博行, 宮野悟, 小川誠司, 滝田順子, 第75回日本癌学会学術総会, 第75回日本癌学会学術総会, 横浜, 2016/10/7, 国内.
57. Clustering analysis on gene expression data of pediatric hepatoblastoma, 口頭, Sekiguchi M, Seki M, Hoshino N, Yoshida K, Shiraishi Y, Yoshida M, Souzaki R, Tanaka Y, Taguchi T, Miyano S, Hayashi Y, Ogawa S, Takita J, 第75回日本癌学会学術総会, 横浜, 2016/10/8, 国内.
58. Identifications of novel recurrent SP11 fusions in highly aggressive phenotype of pediatric T-ALL, 口頭, Seki M, Yoshida K, Kimura S, Ueno H, Shiraishi Y, Takagi M, Iwama A, Kataoka K, Shiozawa Y, Kato M, Moritake H, Koh K, Hanada R, Hashii Y, Deguchi T, Kobayashi R, Sato A, Imamura T, Horibe K, Ohki K, Kiyokawa N, Manabe A, Ohara A, Sanada M, Mano H, Oka A, Miyano S, Hayashi Y, Ogawa S, Takita J, 第78回日本血液学会学術集会, 横浜, 2016/10/13, 国内.
59. TAL1 abnormalities in childhood T-Cell acute lymphoblastic leukemia, ポスター, Seki M, Yoshida K, Kimura S, Isobe T, Shiraishi Y, Kato M, Koh K, Hanada R, Deguchi T, Imamura T, Horibe K, Kiyokawa N, Manabe A, Ohara A, Sanada M, Mano H, Hayashi Y, Miyano S, Oka A, Ogawa S, Takita J, The 48th Annual Congress of the International Society of Paediatric Oncology, Dublin, Ireland, 2016/10/19-22, 国外.
60. Genome-wide multi-omic analysis of pediatric pancreatoblastoma, 口頭, Isobe T, Seki M, Yoshida K, Iguchi A, Hama A, Taguchi T, Tanaka Y, Akiyama M, Fujimura J, Inoue A, Ito T, Deguchi T, Kato M, Kiyotani C, Yagyū S, Iehara T, Hosoi H, Miyano S, Ogawa S, Takita J, The 48th Annual Congress of the International Society of Paediatric Oncology, Dublin, Ireland, 2016/10/21, 国外.

61. Gene expression-based classification of paediatric germ cell tumors. 口頭, Kubota Y, Seki M, Isobe T, Yoshida K, Sat Y, Kataoka K, Shiraishi Y, Chiba K, Tanaka H, Hiwatari M, Miyano S, Hayashi Y, Oka A, Ogawa S, Takita J, The 48th Annual Congress of the International Society of Paediatric Oncology, Dublin, Ireland, 2016/10/21, 国外.
62. TAL1 super enhancer aberration and STIL-TAL1 fusion in pediatric T cell acute lymphoblastic leukemia (T-ALL), ポスター, Kimura S, Seki M, Yoshida K, Shiraishi Y, Chiba K, Tanaka H, Suzuki H, Kataoka K, Kato M, Koh K, Hanada R, Imamura T, Kiyokawa N, Hashii Y, Ohara A, Deguchi T, Horibe K, Hayashi Y, Miyano S, Ogawa S, Takita J, Asian Society for Pediatric Research, Bangkok, 2016/11/10, 国外.
63. A case of 14q terminal deletion syndrome with pleuropulmonary blastoma, ポスター, Kubota Y, Seki M, Yoshida K, Sato Y, Oka A, Ogawa S, Takita J, Asian Society for Pediatric Research 2016, Bangkok, 2016/11/10, 国外.
64. Integrated Genetic and Epigenetic Analysis of Hepatoblastoma, ポスター, Sekiguchi M, Seki M, Isobe M, Hoshino N, Yoshida K, Shiraishi Y, Kawai T, Yoshida M, Chiba K, Tanaka H, Sozaki R, Hata K, Tanaka Y, Taguchi T, Miyano S, Hayashi Y, Ogawa S, Takita J, Asian Society for Pediatric Research 2016, Bangkok, 2016/11/10, 国外.
65. Gene Expression Profiles and Methylation Analysis in Down Syndrome Related Acute Lymphoblastic Leukemia, ポスター, Kubota Y, Uryu K, Kawai T, Ito T, Hanada I, Toki T, Seki M, Yoshida K, kataoka K, Shiraishi Y, Chiba K, Tanaka H, Miyano S, Oka A, Yasuhide Hayashi Y, Ogawa S, Terui K, Sato A, Hata K, Ito E, Takita J, 58th ASH Annual Meeting & Exposition, San Diego, U.S.A., 2016/12/5, 国外.
66. Genome-Wide Mutational Landscape of Infant Acute Lymphoblastic Leukemia, 口頭, Isobe T, Yoshida K, Kobayashi C, Shiraishi Y, Chiba K, Tanaka H, Fukuda S, Yamamoto S, Tatsuno K, Aoki Y, Miyamura T, Tsutsumi S, Kiyokawa N, Ishihara T, Tomizawa D, Ishii E, Miyano S, Ogawa S, Aburatani H, Mizutani S, Takita J, Takagi M, 58th ASH Annual Meeting & Exposition, San Diego, U.S.A., 2016/12/5, 国外.
67. Identifications of Highly Aggressive Phenotype with SP11 Overexpression in Pediatric T Cell Acute Lymphoblastic Leukemia/Lymphoma, 口頭, Seki M, Kimura S, Yoshida K, Isobe T, Ueno H, Suzuki H, Shiozawa Y, Kataoka K, Fujii Y, Shiraishi Y, Chiba K, Tanaka H, Takagi M, Iwama A, Oki K, Kato M, Koh K, Hanada R, Moritake H, Kobayashi R, MD, Deguchi T, Hashii Y, Imamura T, Sato A, Horibe K, Kiyokawa N, Manabe A, Ohara A, Sanada M, Hayashi Y, Mano H, Miyano S, Oka A, Ogawa S, Takita J, 58th ASH Annual Meeting & Exposition, San Diego, U.S.A., 2016/12/5, 国外.
68. TAL1 Super Enhancer Aberration and Stil-TAL1 Fusion in Pediatric T Cell Acute Lymphoblastic Leukemia, ポスター, Kimura S, Seki M, Yoshida K, Ueno H, Shiraishi Y, Chiba K, Tanaka H, Suzuki H, Kataoka K, Ohki K, Kato M, Koh K, Hanada R, Kiyokawa N, Kobayashi M, Manabe A, Ohara A, MD, Hayashi Y, Miyano S, Ogawa S, Takita J, 58th ASH Annual Meeting & Exposition, San Diego, U.S.A., 2016/12/3, 国外.

69. Recurrent Ewing's sarcoma complicated with subsequent thyroid cancer in an autistic male patient: a case report, 口頭, Sekiguchi M, Seki M, Watanabe K, Hiwatari M, Nagayama K, Niwa T, Kawano H, Oka A, Takita J, 日本肉腫学会/日本臨床肉腫学会合同シンポジウム, 京都, 2016/12/1, 国内.
70. 小児固形腫瘍における治療標的の探索, 口頭, 滝田順子, 第 58 回日本小児血液・がん学会学術集会, 東京, 2016/12/15, 国内.
71. Identifications of fatal SPI1 fusions and highly aggressive phenotype with SPI1 overexpression in pediatric T cell acute lymphoblastic leukemia/lymphoma, 口頭, Seki M, Kimura S, Yoshida K, Isobe T, Ueno H, Shiozawa Y, Shiraishi Y, Chiba K, Takagi M, Iwama A, Ohki K, Kato M, Koh K, Hanada R, Moritake H, Kobayashi R, Deguchi T, Hashii Y, Imamura T, Sato A, Horibe K, Kiyokawa N, Manabe A, Ohara A, Sanada M, Hayashi Y, Miyano S, Oka A, Ogawa S, Takita J, 第 58 回日本小児血液・がん学会学術集会, 東京, 2016/12/16, 国内.
72. Integrative genome-wide analysis of pancreatoblastoma, 口頭, Isobe T, Seki M, Yoshida K, Shiraishi Y, Chiba K, Tanaka H, Sato Y, Kataoka K, Suzuki H, Shimamura T, Kawai T, Kato M, Iguchi A, Hama A, Taguchi T, Akiyama M, Fujimura J, Inoue A, Ito T, Deguchi T, Kiyotani C, Yagyu S, Iehara T, Hosoi H, Oka A, Tanaka Y, Hata K, Miyano S, Ogawa S, Takita J, 第 58 回日本小児血液・がん学会学術集会, 東京, 2016/12/16, 国内.
73. 再発神経芽腫において獲得された片親性ダイソミーによる ALK 遺伝子のホモ変異, 口頭, 木村俊介, 長谷川大輔, 代田惇朗, 関正史, 吉本優理, 平林真介, 細谷要介, 滝田順子, 真部淳, 第 58 回日本小児血液・がん学会学術集会, 東京, 2016/12/15, 国内.
74. ダウン症候群児における急性リンパ性白血病のメチル化解析, 口頭, 久保田泰央, 瓜生久美子, 河合智子, 伊東竜也, 花田勇, 土岐力, 関正史, 吉田健一, 佐藤悠佑, 白石友一, 千葉健一, 田中洋子, 宮野悟, 岡明, 林泰秀, 小川誠司, 照井君典, 佐藤篤, 秦健一郎, 伊藤悦朗, 滝田順子, 第 58 回日本小児血液・がん学会学術集会, 2016/12/15, 国内.
75. 小児 T 細胞性リンパ性白血病における TAL1 スーパーエンハンサー変異と STIL-TAL1 融合遺伝子の臨床的特徴, 口頭, 木村俊介, 関正史, 吉田健一, 上野浩生, 白石友一, 千葉健一, 田中洋子, 鈴木啓道, 片岡圭亮, 大木健太郎, 加藤元博, 康勝好, 花田良二, 清河信敬, 小林正夫, 真部淳, 小原明, 林泰秀, 宮野悟, 小川誠司, 滝田順子, 第 58 回日本小児血液・がん学会学術集会, 東京, 2016/12/15, 国内.
76. 小児がんに対する新規分子標的療法の開発, 口頭, 樋渡光輝, 関正史, 滝田順子, 第 58 回日本小児血液・がん学会学術集会, 東京, 2016/12/15, 国内.
77. 肝芽腫のゲノム・エピゲノム解析, 口頭, 関口昌央, 関正史, 磯部知弥, 星野論子, 吉田健一, 白石友一, 河合智子, 吉田美沙, 千葉健一, 田中洋子, 宗崎良太, 秦健一郎, 田中祐吉, 田口智章, 宮野悟, 林泰秀, 小川誠司, 滝田順子, 第 58 回日本小児血液・がん学会学術集会, 東京, 2016/12/16, 国内.
78. 小児胚細胞腫瘍における遺伝子発現に基づく分類, 口頭, 久保田泰央, 関正史, 塩澤亮輔, 吉田健一, 佐藤悠佑, 白石友一, 千葉健一, 田中洋子, 樋渡光輝, 宮野悟, 岡明, 林泰秀, 田中祐吉, 小川誠司, 滝田順子, 第 58 回日本小児血液・がん学会学術集会, 東京, 2016/12/17, 国内.
79. MEK inhibitors as a novel therapy for neuroblastoma: Their in vitro effects & predicting their efficacy [oral] . Tanaka T, Higashi M, Kimura K, Wakao J, Fumino S, Iehara T, Hosoi

- H, Sakai T, Tajiri T. 49th Annual Meeting of the Pacific Association of Pediatric Surgeons (PAPS), 2016 May 17-21; Kauai, USA.
80. Surgical management and perioperative risk factors of retroperitoneal teratomas in children: A single institution experience【poster】. Fumino S, Maniwa J, Takeuchi Y, Sakai K, Higashi M, Aoi S, Furukawa T, Kimura O, Tajiri T. 49th Annual Meeting of the Pacific Association of Pediatric Surgeons (PAPS), 2016 May 17-21; Kauai, USA.
 81. A clinical trial of low-dose mTOR inhibitor therapy for the treatment of children with refractory lymphatic anomaly 【oral】 . Furukawa T, Sakai K, Higashi M, Fumino S, Aoi S, Kimura O, Ozeki M, Tajiri T. 49th Annual Meeting of the Pacific Association of Pediatric Surgeons (PAPS), 2016 May 17-21; Kauai, USA.
 82. Tumor-homing effect of human mesenchymal stem cells in a TH-MYCN mouse model of neuroblastoma 【oral】 . Kimura K, Kishida T, Wakao J, Tanaka T, Higashi M, Fumino S, Aoi S, Furukawa T, Mazda O, Tajiri T. 49th Annual Meeting of the Pacific Association of Pediatric Surgeons (PAPS), 2016 May 17-21; Kauai, USA.
 83. Primary tumor resection after high dose chemotherapy with autologous hematopoietic stem cell transplantation is a safe and feasible option. A report from the Japanese Neuroblastoma Study Group (JNBSG). Hishiki T, Yoneda A, Kuroda T, Tokiwa K, Ise K, Ono S, Kinoshita Y, Uehara S, Matsumoto K, Kumagai M, Shichino H, Soejima T, Takimoto T, Hara J, Tajiri T, Nakagawara A 【oral】 Advances in Neuroblastoma Research (ANR), 2016/6/19-23, 国外.
 84. Genomic characterization of high-risk neuroblastoma in Japan: A retrospective study of 537 cases by using updated follow-up data based on INRG variables [Japan Neuroblastoma Study Group (JNBSG)]. 【oral】 Ohira M, Kamijo T, Takimoto T, Nakazawa A, Matsumoto K, Shichino H, Hishiki T, Iehara T, Nakamura Y, Nagase H, Yoneda A, Fukushima T, Tajiri T, Nakagawara A. Advances in Neuroblastoma Research (ANR), 2016/6/19-23 , 国外.
 85. Opsoclonus-myooclonus syndrome in neuroblastoma: A report from the Japan Neuroblastoma Study Group (JNBSG) 【oral】 . Iehara T, Yoneda A, Takama Y, Arakawa Y, Koh K, Yagyu S, Hosoi H, Tajiri T, Nakagawara A: Advances in Neuroblastoma Research (ANR), 2016/6/19-23 , 国外.
 86. Perioperative management and surgical intervention for retroperitoneal teratomas in children. Fumino S, Maniwa J, Takeuchi Y, Sakai K, Higashi M, Aoi S, Furukawa T, Kimura O, Tajiri T, 【oral】 48th Congress of the International Society of Paediatric Oncology (SIOP), 2016/10/19-22, 国外.
 87. Delayed local treatment for high risk neuroblastoma - from the Japan neuroblastoma study group trial. Yoneda A, Tajiri T, Hishiki T: [Multidisciplinary team “IPSO-PROS-SIOP” symposium]. 【oral】 48th Congress of the International Society of Paediatric Oncology (SIOP). 2016/10/19-22, 国外.
 88. A phase II study of bold delayed local control strategy in children with high risk neuroblastoma: Japan neuroblastoma study group (JN-H-11) trial. Shichino H, Mugishima H, Matsumoto K, Hishiki T, Iehara T, Yoneda A, Soejima T, Takimoto T, Takahashi H, Teramukai S, Kamijo T, Nakazawa A, Fukushima T, Hosoi H, Tajiri T, Nakagawara A. 【oral】

- 48th Congress of the International Society of Paediatric Oncology (SIOP), 2016/10/19-22, 国外.
89. Retroperitoneal teratomas in children: still challenging for surgeons. Fumino S, Maniwa J, Takeuchi Y, Sakai K, Higashi M, Aoi S, Furukawa T, Kimura O, Tajiri T, 【oral】 40th World Congress of the International College of Surgeons, 2016/10/24-26 国内.
90. JNK-STAT3 pathway in neuroblastoma. Higashi M, Sakai K, Fumino S, Aoi S, Furukawa T, Tajiri T, 【poster】 40th World Congress of the International College of Surgeons, 2016/10/24-26 国内.
91. Immunohistochemical staining of phosphorylated-ERK as a predictor of therapeutic effects of MEK inhibitors on neuroblastoma. 【poster】 Tanaka T, Higashi M, Wakao J, Kimura K, Fumino S, Iehara T, Hosoi H, Sakai T, Tajiri T, 40th World Congress of the International College of Surgeons, 2016/10/24-26 国内.
92. Surgical strategy of pediatric epithelial ovarian tumors. 【oral】 Maniwa J, Fumino S, Tanaka T, Sakai K, Higashi M, Aoi S, Furukawa T, Iehara T, Hosoi H, Tajiri T, 40th World Congress of the International College of Surgeons, 2016/10/24-26 国内.
93. Progress of clinical study group for neuroblastoma in Japan -from JNBSG to JCCG neuroblastoma committee- 【Key note lecture】 Tajiri T, 24th Congress of the Asian Association of Pediatric Surgeons, 2016 May 24-26; Fukuoka, 国内.
94. 本邦神経芽腫治療の現状と今後【特別講演】. 田尻達郎 : 第 11 回大分血液・腫瘍セミナー 2016/3/10, 国内.
95. 神経芽腫マスキリーニング休止後の再評価【シンポジウム】 小児の臨床現場からみた現在の保健・医療制度の問題点. 田尻達郎 : 第 12 回日本小児医療政策研究会 2016/3/19, 国内.
96. 神経芽腫の治療の現状と将来【特別講演】. 田尻達郎 : 第 27 回群馬小児がん研究会 2016/8/26, 国内.
97. 田尻達郎 : 本邦における神経芽腫治療の現況～外科療法を中心に～【特別講演】. 鹿児島大学小児がん講演会 2016/11/25, 国内.
98. 田尻達郎 : 神経芽腫研究の進歩と今後【特別講演】. 神戸大学大学院特別講義 2016/12/9, 国内.
99. 木村幸積, 岸田綱郎, 東 真弓, 若尾純子, 田中智子, 坂井宏平, 文野誠久, 青井重善, 古川泰三, 松田 修, 田尻達郎 : 脂肪組織由来間葉系幹細胞を用いた神経芽腫に対する新規細胞療法の開発【ワークショップ; 小児外科領域における幹細胞研究】. 第 116 回日本外科学会定期学術集会 2016/4/16, 国内.
100. 田中智子, 東 真弓, 木村幸積, 若尾純子, 文野誠久, 家原知子, 細井 創, 酒井敏行, 田尻達郎 : MEK 阻害剤の神経芽腫に対する in-vitro 治療効果検討. 第 53 回日本小児外科学会学術集会 2016/5/24 国内.
101. 東 真弓, 田中智子, 木村幸積, 文野誠久, 田尻達郎 : 神経芽腫細胞株における JNK 阻害の抗腫瘍効果の解析. 第 53 回日本小児外科学会学術集会 2016/5/24, 国内.
102. 木村幸積, 岸田綱郎, 若尾純子, 田中智子, 東 真弓, 坂井宏平, 文野誠久, 青井重善, 古川泰三, 松田 修, 田尻達郎 : ヒト脂肪組織由来間葉系幹細胞による神経芽腫モデルマウスを用いた homing 効果および抗腫瘍効果の検討. 第 53 回日本小児外科学会学術集会 2016/5/26, 国内.

103. 東 真弓, 文野誠久, 田尻達郎: 神経芽腫治療ターゲットとしての JNK-STAT3 経路の解析. 第 75 回日本癌学会学術総会 2016/10/7, 国内.
104. 東 真弓, 坂井宏平, 文野誠久, 青井重善, 古川泰三, 家原知子, 細井 創, 田尻達郎: ノンハイリスク群局所神経芽腫に対して臓器機能温存手術を施行した 3 例. 第 36 回日本小児内視鏡外科・手術手技研究会 2016/10/27, 国内.
105. 馬庭淳之介, 木村幸積, 文野誠久, 東 真弓, 田尻達郎: 神経芽腫への hMSCs による homing 効果の検討. 第 23 回神経芽腫研究会 2016/10/29, 国内.
106. 東 真弓, 田中智子, 木村幸積, 文野誠久, 田尻達郎: 神経芽腫における JNK-STAT3 経路阻害効果の解析. 第 58 回日本小児血液・がん学会学術集会 2016/12/15, 国内.
107. 田中智子, 東 真弓, 若尾純子, 木村幸積, 文野誠久, 家原知子, 細井 創, 酒井敏行, 田尻達郎: 神経芽腫治療における新規 MEK 阻害剤の効果予測因子としてのリン酸化 ERK 免疫染色. 第 58 回日本小児血液・がん学会学術集会 2016/12/15, 国内.
108. 田尻達郎: 神経芽腫の治療の現状と将来-外科療法を中心に- 【特別講演】. 新潟小児悪性腫瘍研究会 2015/2/20, 国内.
109. 田尻達郎: 本邦における神経芽腫治療の現状と今後 【特別講演】. 第 21 回愛媛小児血液・悪性腫瘍研究会 2015/6/26, 国内.
110. 田尻達郎: 本邦における神経芽腫の治療-小児外科医の役割- 【特別講演】. 第 35 回山口県小児外科研究会 2015/9/10, 国内.
111. 田尻達郎: 神経芽腫の多施設臨床試験とトランスレーショナルリサーチ 【特別講演】. 神戸大学医学部大学院特別講義 2015/11/20, 国内.
112. Fumino S, Kimura K, Iehara T, Nishimura M, Nakamura S, Souzaki R, Nishie A, Taguchi T, Hosoi H, Tajiri T: Validity of image-defined risk factors in localized neuroblastoma: A report from two centers in Western Japan 【oral】. 48th Annual Meeting of the Pacific Association of Pediatric Surgeons, 2015/5/17-21, 国外.
113. Matsumoto K, Ohira M, Kamijo T, Shichino H, Kuroda T, Hishiki T, Soejima T, Kaneko T, Nakazawa A, Takimoto T, Fukushima T, Hara J, Kaneko M, Ikeda H, Tajiri T, Nakagawara A: Molecular Profiling Including Genomic Aberrations Can Reveal Ultra High-risk Group in the Japan Neuroblastoma Study Groups Clinical Trials for High-risk Neuroblastoma 【oral】. 47th Congress of the International Society of Paediatric Oncology, 2015 10/8-11, 国外.
114. Yoneda A, Tajiri T, Iehara T, Kitamura M, Nakazawa A, Takahashi H, Takimoto T, Fumino S, Nakagawara A: Determination of timing of surgery based on IDRF: an observation study for low risk neuroblastomas (JN-L-10) 【oral】. 2015 Asia-Pacific Symposium of Neuroblastoma, 2015 11/14, 国外.
115. Higashi M, Tanaka T, Kimura K, Fumino S, Tajiri T: Effects of MAPK inhibitors on neuroblastoma 【oral】. 2015 Asia-Pacific Symposium of Neuroblastoma, 2015 11/14, 国外.
116. Hishiki T, Matsumoto K, Shichino H, Kuroda T, Soejima T, Kaneko T, Nakazawa A, Takimoto T, Takahashi H, Fukushima T, Hara J, Kaneko M, Ikeda H, Yoneda A, Tajiri T, Nakagawara A, JNBSG: Analysis of the clinical outcome of high-risk neuroblastoma: Results from the late phase II study of Japan Neuroblastoma Study Group (JNBSG) JN-H-07 【oral】. 2015 Asia-Pacific Symposium of Neuroblastoma, 2015 11/14, 国外.

117. Fumino S, Kimura K, Iehara T, Nishimura M, Nakamura S, Souzaki R, Nishie A, Taguchi T, Hosoi H, Tajiri T. Validity and reliability of image-defined risk factors in localized neuroblastoma: 【poster】 A report from 2 territorial centers in Japan. 46th Congress of the International Society of Paediatric Oncology 2014/10/23, 国外.
118. 文野誠久, 坂井宏平, 樋口恒司, 青井重善, 古川泰三, 田尻達郎. リスク分類に基づく縦隔原発神経芽腫群腫瘍に対する外科的治療戦略【ポスター】. 第 51 回日本小児外科学会学術集会 2014/5/8, 国内.
119. 木村幸積, 文野誠久, 樋口恒司, 青井重善, 古川泰三, 田尻達郎. 局所神経芽腫における Image Defined Risk Factor (IDRF) に対する新ガイドラインの手術リスク評価の妥当性【ポスター】. 第 51 回日本小児外科学会学術集会 2014/5/9, 国内.
120. 文野誠久, 木村幸積, 家原知子, 西村元喜, 中村聡明, 宗崎良太, 西江昭弘, 田口智章, 細井創, 田尻達郎. 局所神経芽腫における IDRF に基づいた手術適応の妥当性の評価【口演】. 第 56 回日本小児血液・がん学会学術集会 2014/11/30, 国内.
121. 田尻達郎. 神経芽腫に対する外科療法【多診療科医師合同シンポジウム; 難治性固形腫瘍を考える-基礎から臨床まで: 神経芽腫】【口演】. 第 56 回日本小児血液・がん学会学術集会 2014/11/30, 国内.
122. Iehara T, Tsuchiya K, Yagyu S, et al: Is additional treatment necessary for a residual tumor in cases of intermediate-risk neuroblastoma? 【oral 国外】 Advances in Neuroblastoma Research (ANR), 2014 May 13-16; Koln, Germany.
123. Ohira M, Kamijo T, Nakamura Y, et al: Genome-based sub-classification of neuroblastoma: a retrospective study by using 573 neuroblastoma samples obtained in Japan 【oral 国外】. Advances in Neuroblastoma Research (ANR), 2014 May 13-16; Koln, Germany.
124. Shichino H, Matsumoto K, Iehara T, et al: Feasibility of delayed local control treatment in patients with high risk neuroblastoma: report of a pilot study from the Japan Neuroblastoma Study Group (JNBSG) 【oral 国外】. Advances in Neuroblastoma Research (ANR), 2014 May 13-16; Koln, Germany.
125. Matsumoto K, Shichino H, Kuroda T, et al: MYCN amplification is not solely the prognostic factor in treating of high-risk neuroblastoma: A late phase II study of Japan Neuroblastoma Study Group (JNBSG) 【oral 国外】. Advances in Neuroblastoma Research (ANR), 2014 May 13-16; Koln, Germany.
126. Hishiki T, Kuroda T, Tajiri T, et al: Surgical treatment in patients enrolled in the nationwide phase II study NB-HR07 for advanced neuroblastoma: A report from Japan Neuroblastoma Study Group (JNBSG) 【oral 国外】. Advances in Neuroblastoma Research (ANR), 2014 May 13-16; Koln, Germany.
127. Yoneda A, Tajiri T, Iehara T, et al: Characteristics of image defined risk factors (IDRFs) in patients enrolled the low risk protocol (JN-L-10) from the Japanese Neuroblastoma Study Group (JNBSG) 【oral 国外】. 46th Congress of the International Society of Paediatric Oncology (SIOP), 2014 Oct 22-25; Toronto, Canada.

128. Fumino S, Kimura K, Iehara T, et al: Validity and reliability of image-defined risk factors in localized neuroblastoma: A report from 2 territorial centers in Japan 【poster 国外】. 46th Congress of the International Society of Paediatric Oncology (SIOP), 2014 Oct 22-25; Toronto, Canada.
129. 越永 従道, 大植 孝治, 大喜多 肇, 大村 素子, 金子 安比古, 桑島 成子, 齋藤 正博, 杉藤 公信, 高安 肇, 瀧本 哲也, 田中 祐吉, 陳 基明, 土屋 邦彦, 中舘 尚也, 野崎 美和子, 春田 雅之, 樋之津 史郎, 福澤 正洋, 日本ウィルムス腫瘍スタディグループ運営委員会: 小児悪性固形腫瘍の臨床研究グループの現状と今後 日本ウィルムス腫瘍スタディグループの現状と今後. 第 50 回日本小児外科学会学術集会(2014.05) 口頭、国内
130. 春田 雅之, 大島 淳二郎, 新井 康仁, 大喜多 肇, 大植 孝治, 田中 祐吉, 野崎 美和子, 瀧本 哲也, 越永 従道, 福澤 正洋, 上條 岳彦, 金子 安比古, 日本ウィルムス腫瘍スタディグループ: 日本人腎芽腫における遺伝子・染色体異常と予後(Relationships between genetic and chromosomal alterations and outcomes in Japanese Wilms tumor patients). 第 57 回日本小児血液・がん学会学術集会(2015.11) 口頭、国内
131. 上野 瞳, 大喜多 肇, 中里 恵子, 秦 順一, 越永 従道, 福澤 正洋, 清河 信敬: 腎明細胞肉腫における BCOR-ITD 変異と BCOR 関連分子の検討. 第 105 回日本病理学会総会(2016.05) 口頭、国内
132. 大植 孝治, 越永 従道, 高安 肇, 瀧本 哲也, 大喜多 肇, 田中 祐吉, 野崎 美和子, 福澤 正洋: JWITS に登録された退形成腎芽腫(Anaplastic neuroblastoma)の検討—NWTS のデータと比較して. 第 52 回日本小児外科学会学術集会 (2016.05) 口頭、国内
133. Loss of ATM and DNA damage response associated genes in neuroblastoma provides a therapeutic target for PARP inhibitor. 口頭、Masatoshi Takagi, Junko Takita. Ataxia Telangiectasia workshop 2017, 2017. 03. 20-24, Milan, Italy、海外
134. DNA 損傷応答機構の破綻が進行神経芽細胞腫のリスクとなり、PARP 阻害剤への感受性を亢進する. 口頭、高木正稔, 吉田美沙, 根本佳乃, 玉一博之, 土田里香, 関正史, 瓜生久美子, 星野論子, 西井里菜, 宮本智史, 齋藤正博, 花田良二, 金子英雄, 深尾敏幸, 白石友一, 千葉健一, 田中洋子, 宮野悟, 佐藤悠佑, 片岡圭亮, 奥野友介, 吉田健一, 岡明, 森尾友宏, 大平美紀, 林泰秀, 中川原章, 小川誠司, 水谷修紀, 滝田順子. 第 58 回日本小児血液・がん学会学術集会 2016.12.15 東京, 国内
135. 神経芽腫における DNA 損傷応答機構の異常は PARP 阻害剤の標的となる. 口頭、高木正稔. 第 58 回日本小児血液・がん学会学術集会 2016.12.15 東京, 国内
136. PARP 阻害剤が有効な新規標的疾患の探索. 口頭、高木正稔. 第 39 回日本分子生物学会年会 2016.12.02 神奈川, 国内
137. 進行神経芽細胞腫における DNA 損傷応答機構と PARP 阻害剤の有効性. 口頭、高木正稔, 滝田順子. 第 75 回日本癌学会学術総会 2016.10.08 神奈川, 国内
138. Loss of ATM function confers risk for advanced stage neuroblastoma but provides a therapeutic target for poly-ADP ribose polymerase inhibitors. ポスター、Masatoshi Takagi, Misa Yoshida, Yoshino Nemoto, Hiroyuki Tamaichi, Rika Tsuchida, Masafumi Seki, Kumiko Uryu, Noriko Hoshino, Rina Nishii, Satoshi Miyamoto, Masahiro Saito, Toshiaki Shimizu, Ryoji Hanada, Hideo Kaneko, Toshiyuki Fukao, Takatoshi Koyama, Yuichi Shiraishi, Kenichi Chiba, Hiroko Tanaka, Satoru Miyano, Yusuke Sato Sato, Keisuke Kataoka, Yusuke

- Okuno, Kenichi Yoshida, Tomohiro Morio, Akira Oka, Miki Ohira, Yasuhide Hayashi, Akira Nakagawara, Seishi Ogawa, Shuki Mizutani, Junko Takita. Advances in Neuroblastoma Research Congress 2016 2016.06.21 Queensland, Australia, 国外
139. Polycomb group protein BMI1 protects neuroblastoma cells from DNA damage-induced apoptotic death in cooperation with L3MBTL2, N. Akita, H. Takenobu, K. Chikaraishi, M. Ohira, T. Kamijo, (第 107 回米国癌学会総会(AACR2015), , アメリカ)
140. CDX1 regulates cancer stemness pathway in neuroblastoma, CDX1 regulates cancer stemness pathway in neuroblastoma Hisanori Takenobu, Miki Ohira, Koji Chikaraishi, Nobuhiro Akita, Yohko Yamaguchi, Masayuki Haruta, Akira Nakagawara, Manabu Nakayama, Haruhiko Koseki, Takehiko Kamijo, (国際神経芽腫学会 (ANR2016), ケアンズ, オーストラリア)
141. Phase I study of anti-GD2 antibody ch14.18/CHO long term infusion in recurrent or refractory neuroblastoma patients in Japan Atsushi Narita, Yoshiyuki Takahashi, Nikolai Siebert, Nobuhiro Nishio, Xinan Wang, Yinyan Xu, Yusuke Okuno, Daiei Kojima, Kyogo Suzuki, Norihiro Murakami, Rieko Taniguchi, Daisuke Ichikawa, Motoharu Hamada, Shinsuke Kataoka, Yuko Sekiya, Nozomu Kawashita, Eri Nishikawa, Michi Kamei, Hideki Muramatsu, Asahito Hama, Takehiko Kamijo, Atsuko Nakazawa, Hajime Hosoi, Yoshiaki Kinoshita, Shinobu Shimizu, Katsuyoshi Kato, Masaaki Mizuno, Hans Loibner, Tatsuo Tajiri, Akira Nakagawara, Ruth Ladenstein, Holger N Lode, Seiji Kojima, (国際神経芽腫学会 (ANR2016), ケアンズ, オーストラリア)
142. 神経芽腫幹細胞を制御する新規シグナル経路の解析, Hisanori Takenobu, Miki Ohira, Koji Chikaraishi, Kyosuke Mukae, Nobuhiro Akita, Masayuki Haruta, Haruhiko Koseki, Takehiko Kamijo, (第 75 回日本癌学会学術総会, 横浜)
143. iPS 細胞から神経堤細胞への分化における統合解析, Sugino R, Ohira M, Yamashita S, Takenobu H, Toguchida J, Ushijima T, Kamijo T, (第 75 回日本癌学会学術総会, 横浜)
144. EZH2 による神経芽腫の分化抑制, Li Z, Setyawati AN, Takenobu H, Akita N, Haruta M, Chikaraishi K, Mukae K, Akter J, Sugino R, Ohira M, Kamijo T, (第 75 回日本癌学会学術総会, 横浜)
145. ヒト iPS 細胞を用いた神経芽腫発がんモデル, Takenobu H, Sugino R, Ohira M, Yamashita S, Toguchida J, Kamijo T (第 58 回日本小児血液がん学会学術集会, 品川)
146. CFC-1 遺伝子は神経芽腫細胞の幹細胞化制御因子である, Chikaraishi K, Takenobu H, Mukae K, Sugino R, Ohira M, Koseki H, Kamijo T (第 58 回日本小児血液がん学会学術集会, 品川)
147. 日本人再発 / 難治性神経芽腫における抗 GD2 抗体 (ch14.18/CHO) 持続注射の第 I 相試験 Phase I study of anti-GD2 antibody ch14.18/CHO long term infusion in recurrent or refractory neuroblastoma patients in Japan 成田 敦、Nikolai Siebert、西尾 信博、王 希楠、徐 銀燕、奥野 友介、小島 大英、鈴木 喬悟、村上 典寛、谷口 理恵子、市川 大輔、濱田 太立、片岡 伸介、関屋 由子、川島 希、村松 秀城、濱 麻人、上條 岳彦、中澤 温子、細井 創、木下 義晶、清水 忍、加藤 勝義、水野 正明、 Hans Loibner、田尻 達郎、中川原 章、 Ruth Ladenstein、小島 勢二、高橋 義行 (第 58 回日本小児血液がん学会学術集会, 品川)

- 148.成人のがん専門病院における思春期若年成人のがんの疫学調査 Epidemiologic study of adolescents and young adults with cancer in a single cancer center 川村 眞智子、上條 岳彦、金子 安比古 (第 58 回日本小児血液がん学会学術集会, 品川)
- 149.局所腫瘍残存を許容した神経芽腫非遠隔転移症例の検討 Clinical course of massive residual disease in localized neuroblastoma 中田 光政、菱木 知郎、上條 岳彦、大平 美紀、中澤 温子、齋藤 武、照井 慶太、小松 秀吾、小原 由紀子、柴田 涼平、原田 和明、小林 真史、秦 佳孝、西村 雄宏、文田 貴志、吉田 英生 (第 58 回日本小児血液がん学会学術集会, 品川)
- 150.22q uniparental disomy を伴う SMARCB1 遺伝子変異の頻度は欧米人の腎または脳ラブドイド腫瘍より日本人の腎ラブドイド腫瘍に高い金子 安比古, 春田 雅之, 上條 岳彦、新井 康仁, 大喜多 肇, 陳 基明, 大植 孝治, 越永 従道, 福澤 正洋第 75 回日本癌学会学術総会
- 151.Trisomy 12 occurs before alteration of IGF2 expression and predicts favorable outcome in patients with Wilms tumors. Kaneko Y, Haruta M, Kamijo T, Arai Y, Okita H, Tanaka T, Takimoto H, Nakadate H, Oue T, Nozaki M, M Chin, Koshinaga T, Fukuzawa M. 48th Annual Congress of the International Society of Paediatric Oncology. (Dublin, October 2016)
152. 春田雅之、大島淳二郎、新井康仁、大喜多肇、大植孝治、田中祐吉、野崎美和子、瀧本哲也、越永従道、福澤正洋、上條岳彦、金子安比古：日本人腎芽腫における遺伝子・染色体異常と予後。日本小児血液・がん学会学術集会、口頭発表、2015 年 11 月、甲府
153. 金子安比古、春田雅之、上條岳彦、新井康仁、大喜多肇、陳基明、大植孝治、越永従道、福澤正洋: 22q uniparental disomy を伴う SMARCB1 遺伝子変異の頻度は欧米人の腎または脳ラブドイド腫瘍より日本人の腎ラブドイド腫瘍に高い。第75回日本癌学会総会、ポスター、2016年10月、横浜
154. 春田雅之、金子安比古：SIX1/2, DROSHA および DGCR8 遺伝子変異でなく WTX 遺伝子変異は WILMS 腫瘍の予後因子である。第 74 回日本癌学会学術総会、口頭発表、2015 年 10 月、名古屋

(3) 「国民との科学・技術対話社会」に対する取り組み

1. 檜山英三. 小児がん. がん政策サミット 2014. 2014 年 5 月 17 日. 東京都.
2. 檜山英三、肝芽腫、胚細胞性腫瘍へのアプローチ：研究成果討論会（治療が難航している小児がんへのアプローチ）、2017 年 9 月 22 日、東京、国内
3. 細井創、京都府小児がん拠点病院公開シンポジウム、2017 年 1 月 28 日、京都、国内

(4) 特許出願

平成28年度医療研究開発推進事業費補助金

(革新的がん医療実用化研究事業) 成果報告書

I. 基本情報

事業名： (日本語) 革新的がん医療実用化研究事業

(英語) Practical Research for Innovative Cancer Control

補助事業課題名： (日本語) ノン・ハイリスク群小児悪性固形腫瘍の安全性と治療後QOLの向上への
新たな標準治療法開発のための多施設共同臨床研究

(英語) Multicenter collaborative study to develop novel standardized
treatment for non-high risk pediatric solid tumors.

補助事業担当者 (日本語) 埼玉県立がんセンター 臨床腫瘍研究所 所長 上條 岳彦

所属 役職 氏名： (英語) Takehiko Kamijo, MD, Ph. D, Director, Research Institute for Clinical
Oncology, Saitama Cancer Center

実施期間： 平成26年4月1日 ~ 平成29年3月31日

II. 成果の概要 (総括研究報告)

補助事業代表者： 京都公立大学法人京都府立医科大学・小児科・細井 創 総括研究報告を参照。

III. 成果の外部への発表

(1) 学会誌・雑誌等における論文一覧 (国内誌 件、国際誌 件)

1. Honda S, Minato M, Suzuki H, Fujiyoshi M, Miyagi H, Haruta M, Kaneko Y, Hatanaka KC, Hiyama E, Kamijo T, Okada T, Taketomi A. Clinical prognostic value of DNA methylation in hepatoblastoma: Four novel tumor suppressor candidates. Cancer Sci. 2016 Mar 16. doi: 10.1111/cas.12928
2. 春田雅之, 上條岳彦. 分子生物学の新知見 小児外科 48:1129-1132

(2) 学会・シンポジウム等における口頭・ポスター発表

1. Polycomb group protein BMI1 protects neuroblastoma cells from DNA damage-induced apoptotic death in cooperation with L3MBTL2, N. Akita, H. Takenobu, K. Chikaraishi, M. Ohira, T. Kamijo, (第 107 回米国癌学会総会(AACR2015), , アメリカ)
2. CDX1 regulates cancer stemness pathway in neuroblastoma, CDX1 regulates cancer stemness pathway in neuroblastoma Hisanori Takenobu, Miki Ohira, Koji Chikaraishi, Nobuhiro Akita, Yohko Yamaguchi, Masayuki Haruta, Akira Nakagawara, Manabu Nakayama, Haruhiko Koseki, Takehiko Kamijo, (国際神経芽腫学会 (ANR2016), ケアンズ, オーストラリア)
3. Phase I study of anti-GD2 antibody ch14.18/CHO long term infusion in recurrent or refractory neuroblastoma patients in Japan Atsushi Narita, Yoshiyuki Takahashi, Nikolai Siebert, Nobuhiro Nishio, Xinan Wang, Yinyan Xu, Yusuke Okuno, Daiei Kojima, Kyogo Suzuki, Norihiro Murakami, Rieko Taniguchi, Daisuke Ichikawa, Motoharu Hamada, Shinsuke Kataoka, Yuko Sekiya, Nozomu Kawashita, Eri Nishikawa, Michi Kamei, Hideki Muramatsu, Asahito Hama, Takehiko Kamijo, Atsuko Nakazawa, Hajime Hosoi, Yoshiaki Kinoshita, Shinobu Shimizu, Katsuyoshi Kato, Masaaki Mizuno, Hans Loibner, Tatsuo Tajiri, Akira Nakagawara, Ruth Ladenstein, Holger N Lode, Seiji Kojima, (国際神経芽腫学会 (ANR2016), ケアンズ, オーストラリア)
4. 神経芽腫幹細胞を制御する新規シグナル経路の解析, Hisanori Takenobu, Miki Ohira, Koji Chikaraishi, Kyosuke Mukae, Nobuhiro Akita, Masayuki Haruta, Haruhiko Koseki, Takehiko Kamijo, (第 75 回日本癌学会学術総会, 横浜)
5. iPS 細胞から神経堤細胞への分化における統合解析, Sugino R, Ohira M, Yamashita S, Takenobu H, Toguchida J, Ushijima T, Kamijo T, (第 75 回日本癌学会学術総会, 横浜)
6. EZH2 による神経芽腫の分化抑制, Li Z, Setyawati AN, Takenobu H, Akita N, Haruta M, Chikaraishi K, Mukae K, Akter J, Sugino R, Ohira M, Kamijo T, (第 75 回日本癌学会学術総会, 横浜)
7. ヒト iPS 細胞を用いた神経芽腫発がんモデル, Takenobu H, Sugino R, Ohira M, Yamashita S, Toguchida J, Kamijo T (第 58 回日本小児血液がん学会学術集会, 品川)
8. CFC-1 遺伝子は神経芽腫細胞の幹細胞化制御因子である, Chikaraishi K, Takenobu H, Mukae K, Sugino R, Ohira M, Koseki H, Kamijo T (第 58 回日本小児血液がん学会学術集会, 品川)
9. 日本人再発 / 難治性神経芽腫における抗 GD2 抗体 (ch14.18/CHO) 持続注射の第 I 相試験 Phase I study of anti-GD2 antibody ch14.18/CHO long term infusion in recurrent or refractory neuroblastoma patients in Japan 成田 敦、Nikolai Siebert、西尾 信博、王 希楠、徐 銀燕、奥野 友介、小島 大英、鈴木 喬悟、村上 典寛、谷口 理恵子、市川 大輔、濱田 太立、片岡 伸介、関屋 由子、川島 希、村松 秀城、濱 麻人、上條 岳彦、中澤 温子、細井 創、木下 義晶、清水 忍、加藤 勝義、水野 正明、 Hans Loibner、田尻 達郎、中川原 章、 Ruth Ladenstein、小島 勢二、高橋 義行 (第 58 回日本小児血液がん学会学術集会, 品川)
10. 成人のがん専門病院における思春期若年成人のがんの疫学調査 Epidemiologic study of adolescents and young adults with cancer in a single cancer center 川村 眞智子、上條 岳彦、金子 安比古 (第 58 回日本小児血液がん学会学術集会, 品川)
11. 局所腫瘍残存を許容した神経芽腫非遠隔転移症例の検討 Clinical course of massive residual disease in localized neuroblastoma 中田 光政、菱木 知郎、上條 岳彦、大平 美紀、中澤 温子、齋藤 武、照井 慶太、小松 秀吾、小原 由紀子、柴田 涼平、原田 和明、小林 真史、秦 佳孝、西村 雄宏、文田 貴

志、吉田 英生 (第 58 回日本小児血液がん学会学術集会, 品川)

12. 22q uniparental disomy を伴う SMARCB1 遺伝子変異の頻度は欧米人の腎または脳ラブドイド腫瘍より日本人の腎ラブドイド腫瘍に高い金子 安比古, 春田 雅之, 上條 岳彦、新井 康仁, 大喜多 肇, 陳 基明, 大植 孝治, 越永 従道, 福澤 正洋第 75 回日本癌学会学術総会
13. Trisomy 12 occurs before alteration of IGF2 expression and predicts favorable outcome in patients with Wilms tumors. Kaneko Y, Haruta M, Kamijo T, Arai Y, Okita H, Tanaka T, Takimoto H, Nakadate H, Oue T, Nozaki M, M Chin, Koshinaga T, Fukuzawa M. 48th Annual Congress of the International Society of Paediatric Oncology. (Dublin, October 2016)

(3) 「国民との科学・技術対話社会」に対する取り組み
特記無し

(4) 特許出願

平成28年度医療研究開発推進事業費補助金 (革新的がん医療実用化研究事業) 成果報告書

I. 基本情報

事業名： (日本語) 革新的がん医療実用化研究事業
(英語) Practical Research for Innovative Cancer Control

補助事業課題名： (日本語) ノン・ハイリスク群小児悪性固形腫瘍の安全性と治療後 QOL の向上への
新たな標準治療法開発のための多施設共同臨床研究
(英語) Multicenter collaborative study to develop novel standardized
treatment for non-high risk pediatric solid tumors.

補助事業担当者 (日本語) 埼玉県立がんセンター 臨床腫瘍研究所 金子 安比古
所属 役職 氏名： (英語) Yasuhiko Kaneko, MD, Adviser, Research Institute for Clinical
Oncology, Saitama Cancer Center

実施期間： 平成28年 4月 1日 ～ 平成29年 3月 31日

II. 成果の概要 (総括研究報告)

補助事業代表者： 京都府立医科大学 小児科 細井 創 総括研究報告を参照。

補助事業分担者： 埼玉県立がんセンター 臨床腫瘍研究所 金子 安比古

1. 研究開発課題名： 両側性腎芽腫の遺伝子診断と片側性腎芽腫の予後因子となる染色体・遺伝子異常の同定

2. 成果報告書

近年、次世代シーケンサー解析により、小児腫瘍の10%は、胚細胞遺伝子変異により発生すると報告されている。両側性腎芽腫は、WT1 を始めとする、いくつかの遺伝子の胚細胞変異により発生すると考えられる。すでに、日本人の両側性腎芽腫31例のWT1 遺伝子分析を実施し、80%にWT1 異常を検出して報告した。これらの症例や新たに登録される両側性腎芽腫において、WT1 胚細胞変異は親か

ら受け継ぐのか、新生突然変異によるのか解析する、また、腫瘍発生の浸透率を明らかにし、遺伝相談に役立てる。

片側性腎芽腫の生存率は約 90%に達したが、再発例、初診時遠隔転移例、unfavorable histology 例の生存率は 70%である。一方、全治療例の 70%になんらかの晩期障害が発生している。新たなバイオマーカーを確立し、適切に層別化した治療プロトコールに基づき患者を治療し、治療成績の改善と QOL の向上を図ることが、研究の目的である。この研究は日本小児がん研究グループ腎腫瘍委員会に登録された患者さんの検体を用いて実施した。

両側性腎芽腫患者 6 例について、腫瘍と正常組織、両親の血液について、WT1 変異解析、MLPA 解析、aCGH による染色体解析を実施した。6 例全例の患者正常組織に WT1 胚細胞変異を確認した。両親の血液の WT1 変異解析の結果から、2 例は、WT1 変異を親から受け継ぎ、4 例は、親の生殖細胞に生じた新生突然変異によるものであることが明らかになった。今後、分析数を増加し、WT1 変異を親から受け継いだのか、新生突然変異によるものか、その比率を明らかにしたい。

片側性腎芽腫 127 例の aCGH による染色体分析と、腎芽腫関連遺伝子の変異解析により、11q-, 16q-, HACE1 欠失、WTX 欠失、20q 増加が予後不良因子であることを明らかにした。分析数が少ないので、症例数を増加し、治療強化候補例と治療強度低減候補例を判別するバイオマーカーを開発したい。

III. 成果の外部への発表

(1) 学会誌・雑誌等における論文一覧 (国内誌 4 件、国際誌 4 件)

1. Kaneko Y, Okita H, Haruta M, Arai Y, Oue T, Tanaka Y, Horie H, Hinotsu S, Koshinaga T, Yoneda A, Ohtsuka Y, Taguchi T, Fukuzawa M. A high incidence of WT1 abnormality in bilateral Wilms tumours in Japan, and the penetrance rates in children with WT1 germline mutation. *Br J Cancer*. 112:1121-1133, 2015.
2. Oue T, Fukuzawa M, Koshinaga T, Okita H, Nozaki M, Chin M, Kaneko Y, Tanaka Y, Haruta M, Tsuchiya K, Kuwajima S, Takimoto T. Management of pediatric renal tumor: Past and future trials of the Japan Wilms Tumor Study Group. *Pediatr Int*. 57:828-831, 2015.
3. Honda S, Minato M, Suzuki H, Masato F, Miyagi H, Haruta M, Kaneko Y, Hatanaka K, Hiyama E, Kamijo T, Okada T, Taketomi A. Clinical prognostic value of aberrant methylation of four novel tumor suppressor candidates in hepatoblastoma. *Cancer Sci* 2016; 107(6):812-9.
4. Oue T, Koshinaga T, Takimoto T, Okita H, Tanaka Y, Nozaki M, Haruta M, Kaneko Y, Fukuzawa M; Renal Tumor Committee of the Japanese Children's Cancer Group. Anaplastic histology Wilms' tumors registered to the Japan Wilms' Tumor Study Group are less aggressive than that in the National Wilms' Tumor Study 5. *Pediatr Surg Int*. 2016; 32(9):851-5.
5. 金子安比古: Wilms 腫瘍(腎芽腫)の発生に関わるジェネティック・エピジェネティック異常、および遺伝性・両側性 Wilms 腫瘍の原因遺伝子 *日小血がん会誌* 51:423-431, 2014.

6. 金子安比古：小児固形腫瘍の分子生物学（その 4）次世代シーケンサーの時代 小児外科 47 巻 2 号（2015 年 2 号）Wilms 腫瘍（腎芽腫）の分子生物学 165-170, 2015.
7. 金子安比古：日本臨床：2015 年 8 月増刊号 家族性腫瘍学：家族性腫瘍の最新研究動向 2. 原因遺伝子(26) *WT1* 394-400.
8. 金子安比古：日本臨床：2015 年 8 月増刊号 家族性腫瘍学：家族性腫瘍の最新研究動向 3. 臓器・領域別家族性腫瘍の臨床（22）小児科腫瘍 534-538.

(2) 学会・シンポジウム等における口頭・ポスター発表

1. 春田雅之、大島淳二郎、新井康仁、大喜多肇、大植孝治、田中祐吉、野崎美和子、瀧本哲也、越永従道、福澤正洋、上條岳彦、金子安比古：日本人腎芽腫における遺伝子・染色体異常と予後。日本小児血液・がん学会学術集会、口頭発表、2015 年 11 月、甲府
2. 金子安比古、春田雅之、上條岳彦、新井康仁、大喜多肇、陳基明、大植孝治、越永従道、福澤正洋: 22q uniparental disomyを伴うSMARCB1遺伝子変異の頻度は欧米人の腎または脳ラブドイド腫瘍より日本人の腎ラブドイド腫瘍に高い。第75回日本癌学会総会、ポスター、2016年10月、横浜
3. 春田雅之、金子安比古：SIX1/2,DROSHA および DGCR8 遺伝子変異でなく WTX 遺伝子変異は WILMS 腫瘍の予後因子である。第 74 回日本癌学会学術総会、口頭発表、2015 年 10 月、名古屋

(3) 「国民との科学・技術対話社会」に対する取り組み
発表なし

(4) 特許出願