

厚生労働科学研究費補助金

難治性疾患政策研究研究事業

治験を目的とした、成人発症白質脳症のレジストリーと評価方法に関する研究

令和3年度～令和5年度 総合研究報告書

研究代表者 小野寺 理

令和6年（2024）年 5月

目 次

I. 総合研究報告	
治験を目的とした、成人発症白質脳症のレジストリーと評価方法に関する研究	1
研究代表者 小野寺 理	
II. 研究成果の刊行に関する一覧表	12

目 次

I. 総合研究報告	
治験を目的とした、成人発症白質脳症のレジストリーと評価方法に関する研究	1
研究代表者 小野寺 理	
II. 研究成果の刊行に関する一覧表	12

研究成果の刊行に関する一覧表

書籍

著者氏名	論文タイトル名	書籍全体の編集者名	書籍名	出版社名	出版地	出版年	ページ
該当なし							

雑誌

発表者氏名	論文タイトル名	発表誌名	巻号	ページ	出版年
Hirata Y, Kato N, Muraga K, Shindo A, Nakamura N, Matsuura K, Ii Y, Shiga M, Tabei KI, Satoh M, Fukuma T, Kagawa Y, Fujita S, Kogue R, Umino M, Maeda M, Sakuma H, Dohi K, <u>Tomimoto H.</u>	Cerebral microbleeds with atrial fibrillation after ablation therapy.	Front Cell Neurosci	16	818288	2022
Uemura M, Hatano Y, Nozaki H, Ando S, Kondo H, Hanazono A, Iwanaga A, Murota H, Osakada Y, Osaki M, Kanazawa M, Kanai M, Shibata Y, Saika R, Miyatake T, Aizawa H, <u>Ikeuchi T</u> , <u>Tomimoto H</u> , Mizuta I, <u>Mizuno T</u> , Ishihara T, <u>Onodera O.</u>	High frequency of HTRA1 AND ABCC6 mutations in Japanese patients with adult-onset cerebral small vessel disease	J Neurol Neurosurg Psychiatry	94	74-81	2023
Kitahara S, Tsuboguchi S, Uemura M, Nozaki H, Kanazawa M, <u>Onodera O.</u>	Patients with heterozygous HTRA1-related cerebral small vessel disease misdiagnosed with other diseases: Two case reports	Clin Neurol Neurosurg	223	107502	2022
Mukai M, Hamano A, Mizuta I, Yokota I, Watanabe-Hosomi A, Matsuura H, Koizumi T, Matsuura J, Ohara T, Matsushima S, Teramukai S, Yamada K, <u>Mizuno T.</u>	Association between cerebrovasoreactivity and stroke in cerebral autosomal dominant arteriopathy with subcortical infarcts and leukoencephalopathy	Front Neurol	13	1087220	2023
<u>水野敏樹</u> , 石井亮太郎, 亀田知明	CADASIL からみた片頭痛	日本頭痛学会誌	49	29-32	2022
渡邊明子, 水田依久子, <u>水野敏樹</u>	CADASIL(cerebral autosomal dominant arteriopathy with subcortical infarcts and leukoencephalopathy)	脳神経内科	97	74-80	2022

Rosenstein I, Andersen O, Victor D, Englund E, Granlund T, Jood K, Wszolek, ZK, <u>Ikeuchi T</u> , Karrenbauer V.	CSF1R-related leukoencephalopathy caused by R777W and R782C mutations: a report of four cases in Sweden	Acta Neurologica Scandinavia	145	599-609	2022
Papapetropoulos S, Pontius A, Brennan M, Zappia S, Wszolek Z, Eichler F, Lynch D, Koehler W, Schoels L, Hayer S, Konno K, <u>Ikeuchi T</u> , Lund T, Orthmann-Murphy J, Karrenbauer V, Finger E.	Clinical literature review of adult-onset leukoencephalopathy with axonal spheroids and pigmented glia (ALSP): an orphan neurologic disorder and unmet medical need	Frontiers Neurology	12	788168	2022
Taniguchi A, Shindo A, Tabei KI, <u>Onodera O</u> , Ando Y, Urabe T, Kimura K, Kitagawa K, Miyamoto Y, Takegami M, Ihara M, Mizuta I, <u>Mizuno T</u> , <u>Tomimoto H</u> .	Imaging characteristics for predicting cognitive impairment in patients with cerebral autosomal dominant arteriopathy with subcortical infarcts and leukoencephalopathy	Front Aging Neuroscience	14	876437	2022
Ueda A, Namajima M, Misumi Y, et al.	Detection of vascular Notch3 deposits in unfixed frozen skin biopsy sample in CADASIL	Front Neurol.	13	881528	2022
Ishiyama H, Tanaka T, Saito S, Koyama T, Kitamura A, Inoue M, Fukushima N, Morita Y, Koga M, Toyoda K, Kuriyama N, Urushitani M, <u>Ihara M</u> .	Plasma Mid-regional pro-adrenomedullin: A Biomarker of Ischemic Penumbra in Hyperacute Stroke	Brain Pathol	33	e13110	2023
Tanaka T, Fukuma K, Abe S, Matsubara S, Ikeda S, Kamogawa N, Ishiyama H, Hosoki S, Kobayashi K, Shimotake A, Nakaoku Y, Ogata S, Nishimura K, Koga M, Toyoda K, Matsumoto R, Takahashi R, Ikeda A, <u>Ihara M</u> .	Association of cortical superficial siderosis with post-stroke epilepsy	Ann Neurol	93(2)	357-370	2023
<u>Ihara M</u> , Yamamoto Y, Hattori Y, Liu W, Kobayashi H, Ishiyama H, Yoshimoto T, Miyawaki S, Clausen T, Bang OY, Steinberg GK, Tournier-Lasserre E, Koizumi A.	Moyamoya disease: diagnosis and interventions	Lancet Neurol	21(8)	747-758	2022
<u>Ihara M</u> , Yamamoto Y.	Transcriptomic mapping of the human cerebrovasculature	Nat Rev Neurol	18(6)	319-320	2022
<u>Ihara M</u> .	Endothelial BACE1: Bridging the gap between hypertension and Alzheimer's disease	Circ Res	130	1342-1344	2022

Yoshimura H, Tanaka T, Fukuma K, Matsubara S, Motoyama R, Mizobuchi M, Matsuki T, Manabe Y, Suzuki J, Kobayashi K, Shimotake A, Nishimura K, Onozuka D, Kawamoto M, Koga M, Toyoda K, Murayama S, Matsumoto R, Takahashi R, Ikeda A, <u>Ihara M</u> on behalf of the PROPOSE Study Investigators.	Impact of seizure recurrence on one-year functional outcome and mortality in patients with post-stroke epilepsy	Neurology	99	e376-e384	2022
Uemura M, Kitahara S, Kato T, Nozaki H, Ando S, Ishihara T, <u>Onodera O.</u>	Inappropriate interpretation of non-pathogenic HTRA1 variant as pathogenic.	Ann Clin Transl Neurol	10(7)	1261-1262	2023
Akiyama N, Yamashiro T, Ninomiya I, Uemura M, Hattori Y, <u>Ihara M</u> , <u>Onodera O.</u> , Kanazawa M.	Neuroprotective effects of oral metformin before stroke on cerebral small-vessel disease.	J Neurol Sci	456	122812	2024
Uemura M, Tanaka N, Ando S, Yanagihara T, <u>Onodera O.</u>	Missense Variants in COL4A1/2 Are Associated with Cerebral Aneurysms: A Case Report and Literature Review.	Neurol Int	16(1)	226-238	2024
Mizuta I, Nakao-Azuma Y, Yoshida H, Yamaguchi M, <u>Mizuno T.</u>	Progress to Clarify How <i>NOTCH3</i> Mutations Lead to CADASIL, a Hereditary Cerebral Small Vessel Disease.	Biomolecules	14(1)	127	2024
水野敏樹, 尾原知行, 松浦啓, 中田美津子, 内藤あかり, 宇野葵, 岩見弥生, 猪原登志子, 手良向聡	ロメリジン塩酸塩による CADASIL 患者に対する脳虚血イベント再発抑制 (LOMCAD)試験 (会議録)	神経治療学	40(6)	S255	2023
<u>水野敏樹</u>	神経疾患治療への道 この 10 年間の歩み(講義)	京都府立医科大学雑誌	132(9)	573-586	2023
<u>水野敏樹</u> , 尾原知行, 中田美津子, 水田依久子, 渡邊・細見明子, 松浦啓, 福永大幹, 内藤あかり, 宇野葵, 岩見弥生, 猪原登志子, 手良向聡	遺伝性脳小血管病の新規治療法の開発と未来 ロメリジン塩酸塩による CADASIL 患者に対する脳虚血イベント再発抑制(LOMCAD)試験 (会議録)	Dementia Japan	37(4)	619	2023
<u>水野敏樹</u> , 藤川桂, 水田依久子, 渡邊・細見明子, 松浦啓, 福永大幹, 内藤あかり, 宇野葵, 岩見弥生, 尾原知行, 猪原登志子, 手良向聡	ロメリジン塩酸塩による CADASIL患者に対する脳虚血イベント再発抑制試験 (会議録)	臨床神経学	63suppl	S310	2023

松浦啓, 水田依久子, 玉井知里, 安田怜, 渡邊・細見明子, 福永大幹, 小泉崇, 向井麻央, 尾原知行, 吉田誠克, 曾根淳, 水野敏樹	未診断白質脳症における神経核内封入体病の頻度と画像的特徴 (会議録)	臨床神経学	63Suppl	S310	2023
村田 翔平, 田中 瑛次郎, 毛受奏子, 小島 雄太, 芦田 真士, 水田 依久子, 水野 敏樹	視床出血で発症し、多発微小出血、多発脳梗塞をみとめた前側頭極病変のない CADASIL の一例 (会議録)	臨床神経学	63(6)	404	2023
Ishiguro T, Konno T, Hara N, Zhu B, Okada S, Shibata M, Saika R, Kitano T, Toko M, Nezu T, Hama Y, Kawazoe T, Takahashi-Iwata I, Yabe I, Sato K, Takeda H, Toda S, Nishimiya J, Teduka T, Nozaki H, Kasuga K, Miyashita A, Onodera O, <u>Ikeuchi T.</u>	Mutational analysis of patients with CSF1R-related leukoencephalopathy: report on novel partial deletions, frameshift and missense mutations of CSF1R.	European Journal of Neurology	30	1861–1870	2023
Ishikawa R, Wada K, <u>Ikeuchi T.</u>	Adult-onset leukoencephalopathy with axonal spheroids and pigmental glia with diffuse cerebral microbleeds – case report.	Acta Neurologica Belgica	123(2)	739-741	2023
Parapetropoulos S, Gelfand JM, Konno T, <u>Ikeuchi T.</u> , Pontius A, Meier A, Foroutan F, Wszolek ZW.	Clinical presentations and diagnosis of adult-onset leukoencephalopathy with axonal spheroids and pigmented glia (ALSP): a literature analysis of case series.	Frontiers in Neurology	15	1320663	2024
Washida K, Saito S, Tanaka T, Nakaoku Y, Ishiyama H, Abe S, Kuroda T, Nakazawa S, Kakuta C, Omae K, Tanaka K, Minami M, Morita Y, Fukuda T, Shindo A, Maki T, Kitamura K, <u>Tomimoto H</u> , Aso T, <u>Ihara M.</u>	A multicenter, single-arm, phase II clinical trial of adrenomedullin in patients with cerebral autosomal dominant arteriopathy with subcortical infarcts and leukoencephalopathy.	Cerebral Circulation - Cognition and Behavior	6	100211	2024
Ishiyama H, <u>Ihara M.</u> et al.	Pro-hemorrhagic CADASIL associated with <i>NOTCH3</i> p.R75P mutation with low vascular NOTCH3 aggregation property.	Ann Neurol	95(6)	1040-1054	2024
Saito S, <u>Ihara M.</u> , et al.	Efficacy and safety of cilostazol in mild cognitive impairment: a randomized clinical trial.	JAMA Netw Open	6(12)	e2344938	2023

Hosoki S, Hansra G, Jayasena T, Poljak A, Mather KA, Catts VS, Rust R, Sagare A, Kovacic JC, Brodtmann A, Wallin A, Zlokovic BV, <u>Ihara M</u> , Sachdev PS.	Molecular biomarkers for vascular cognitive impairment and dementia.	Nat Rev Neurol	19(12)	737–753	2023
Yamamoto Y, Liao YC, Lee YC, <u>Ihara M</u> , Choi JC.	Update on the Epidemiology, Pathogenesis, and Biomarkers of Cerebral Autosomal Dominant Arteriopathy With Subcortical Infarcts and Leukoencephalopathy.	J Clin Neurol	19(1)	12-27	2023