

厚生労働科学研究費補助金

難治性疾患政策研究事業

慢性活動性EBV病の疾患レジストリ情報に基づく病型別根治療法の確立に関する研究

(令和)4年度～5年度 総合研究報告書

研究代表者 大賀 正一

(令和) 6 (2024) 年 5月

目 次

I. 総合研究報告	
慢性活動性EBV病の疾患レジストリ情報に基づく病型別根治療法の確立に関する研究	1
九州大学／大賀正一	
II. 研究成果の刊行に関する一覧表	7

厚労補助金（難治性疾患政策研究事業）
（総括）研究報告書

慢性活動性EBウイルス感染症およびその類縁疾患の根治療法の確立に関する研究

研究代表 大賀 正一 国立大学法人九州大学 教授

研究要旨：慢性活動性 EBV 病（慢性活動性 EBV 感染症：CAEBV）と、EBV 関連血球貪食性リンパ組織球症（EBV-HLH）、種痘様水疱症および蚊刺過敏症は、EBV 感染 T 細胞・NK 細胞の増殖を伴う予後不良な希少難病である。研究班では、H28 迄に診断体制を確立し、診断基準・診療指針を作成した（2016）0。H29～R1 にレジストリ・バイオバンク基盤を構築した。R2～3 に指針の改訂に着手したが、感染細胞同定・至適治療確立の必要性が明らかになった。CAEBV は造血細胞移植が唯一の根治療法で、特異治療薬もなく、病型間移行など不明な点が多い。WHO 造血器腫瘍分類 2017 の記載以降、世界的にも認識された日本など東アジアの全身疾患であることから、特定診療科をこえた研究班からの情報発信と研究推進の意義が大きい。本研究班の集積情報に基づき、正確な診断法と病型別の根治療法確立を目指して、① 診療指針の改訂と世界標準化（英文化）、②造血細胞移植の最適化を主眼とした治療指針のエビデンスの創出、③迅速な EBV 感染細胞同定法の開発を行っている。本年度は診療指針の改訂を完成し、世界標準へ向けてその英文化を進めた。病期に応じた造血細胞移植の課題を抽出し、適応と方法を検討した。簡便な診断法と新規治療法の開発を進め、さらに登録症例を集積している。

研究分担者

新井文子・聖マリアンナ医科大学・主任教授
今留謙一・国立成育医療研究センター・統括部長

大島孝一・久留米大学・教授

森毅彦・東京医科歯科大学・教授

和田泰三・金沢大学・教授

笹原洋二・東北大学・准教授

伊藤嘉規・愛知医科大学・教授

村松秀城・東海国立大学機構・講師

坂口大俊・国立成育医療研究センター・診療部長

澤田明久・大阪府立病院機構大阪母子医療センター・部長

平井陽至・岡山大学・助教

小林徹・国立成育医療研究センター・部門長

研究協力者

石村匡崇・九州大学・講師

河本啓介・久留米大学・助教

東馬智子・金沢大学・助教

松井俊大、山田全毅、牛腸義宏、出口晶裕、富

澤大輔、松本公一・国立成育医療研究センター

佐藤真穂、樋口浩平、岡田洋介、後藤公寿、井

上将太・阪府立病院機構大阪母子医療センター

岩月啓氏・岡山大学・教授

木村宏・名古屋大学・教授

川田潤一・名古屋大学・准教授

A. 研究目的

海外では慢性活動性 EBV 病と総称される慢性活動性 EBV 感染症（CAEBV：小児慢性特定疾患に指定）と、EBV 関連血球貪食性リンパ組織球症、種痘様水疱症および蚊刺過敏症は、日本の小児～若年成人を中心として報告されている希少難病である。この 4 病型の臨床像は異なるが、EBV 感染 T 細胞・NK 細胞の増殖から、臓器不全に至る予後不良なものが多い。

これまで難治性疾患政策研究事業において、CAEBV とその類縁疾患の研究班は以下の成果を上げてきた。平成 26～28 年度、本疾患群に対する診断体制を確立し、診断基準・診療ガイドラインを作成した（CAEBV とその類縁疾患の診療ガイドライン 2016；日本小児感染症学会監修）。平成 29～令和元年度には 4 疾患のレジストリ・バイオバンクの基盤を構築し、この間に本疾患群の発症病理解明、診断法確立、新規治療法開発に努めた。これらを受け、令和 2 年～3 年度には発刊後 6 年となる診療ガイドラインの改訂作業に着手した。しかし、改訂作業を通じ、改めて、診断に必須である感染細胞の迅速かつ汎用性の高い同定法の確立、予後因子や至適治療法に関するさらなるエビデンス創出の必要性が明らかになった。

具体的には、CAEBV 以外の 3 病型の詳細な臨床

像や、各病型間の移行に関して、未だ不明な点が多い。CAEBV は造血細胞移植が唯一の根治療法で、特異的治療薬はない。病態解明と至適治療法の開発は喫緊の課題である。一方、その他の3病型の至適治療法、特に造血幹細胞移植の適応を明確にする必要がある。

CAEBV と類縁疾患は病変が経過とともに全身に進展するため、特定の疾患領域/診療科での診療に帰属させにくい。また、患者年齢は幅広く小児から AYA 世代、そして成人までを一体として研究・診療をすすめる体制が望まれる。患者は東アジアに集中していたが、2017 年改訂の WHO 造血器腫瘍分類に記載されて以降、世界的にも報告が増えてきた。日本をはじめとする東アジアに患者が多いため、私たちの情報発信と研究推進の意義は大きい。

本研究では、集積した CAEBV とその類縁疾患のレジストリ情報に基づいて、正確な診断と病型別の根治療法確立を目指して、①診療ガイドラインの世界標準へ向けた改定（英文化）、②造血細胞移植の最適化を主眼とした治療指針のエビデンスの創出、③迅速な EBV 感染細胞同定法の開発を目指す。

B. 研究方法

- 初版診療ガイドラインの内容を再検討し、改訂を完了して、英文化を進めた。
- 疾患レジストリ登録を進めて、治療に関わる課題を抽出し解析を目的として討議を行う。
- 汎用性の高い感染細胞同定法を開発し、開発中の新規診断薬開発を推進する。
- 令和 5 年 3 月に東京で治療法確立に向けたシンポジウムと患者向けの公開講座を開催する。（倫理面への配慮）

各研究者は各所属機関の倫理委員会承認を受け、該当する法令、国際的に認められた倫理的ガイドラインに従い実施した。

C. 研究結果

<診療ガイドラインの改訂と英文化>

改訂作業を計画通り遂行し、R4 年度内に出版予定である。HLH 診療ガイドライン 2020(資料 4)、および種痘様水疱症リンパ増殖異常症 (HV-LPD) と重症蚊刺アレルギー (SMBA) との整合性を検討した (R4 年 5-7 月)。英文化作業を「CAEBV (担当: 川田・木村)」と「HPV-LPD と SMBA (担当: 平井・岩月)」に分けて開始した (R4 年年 11 月)。

<レジストリの新規登録と情報解析>

・2022 年 1-2023 年 12 月に感染細胞同定 (名古屋大学・成育医療センター・九州大学他) と病理診断 (久留米大学) から各施設で診断した 121 例

が登録され、累計 239 名が集積され、課題を抽出して解析計画会議を開始した。

・これまでに小児 CAEBV の主たる感染細胞に基づく臨床的特徴や予後に関する明確な知見はまだ限られていたため、単一施設 (九州大学) による後方視的解析を実施した。小児期発症の CAEBV 21 名を対象とし、主たる感染細胞は CD4⁺T 細胞 7 名、CD8⁺T 細胞 3 名、 $\gamma\delta$ T 細胞 2 名および NK 細胞 9 名であった。CD8⁺T 細胞、 $\gamma\delta$ T 細胞、および NK 細胞を主たる感染細胞とする CAEBV では HCT 未施行でも長期生存例が存在した。一方で、CD4⁺T 細胞を主たる感染細胞とする CAEBV は予後不良であり、早期移植の必要性が示唆された。

・造血細胞移植など治療の至適化に関するコンセンサス会議を令和 5 年 3 月に行い、これを継続している。患者向けの質問等議会を Web にて開催したが、コロナ禍の影響から参加者を得ることができなかった。次年度に向けて再度計画を進める。

<新規診断・治療法の開発研究の推進>

・新規診断・治療法の開発研究 (①感染細胞同定と新規細胞治療標的の探索、②抗 EB ウイルス新規薬剤の効果検証) を進めている。(令和 4 年 12 月)。

<指定難病の申請>

指定難病の申請にあたって、日本医学会連合に属する日本血液学会 (成人) および日本小児血液・がん学会に重症度分類および診断基準の学会承認を行った。(2023 年末承認)

D. 考察

診療指針が改訂され新規診断患者の登録も進んできたが、疾患重症度の多様性と類縁疾患への移行、遺伝性素因との関連、リンパ増殖性疾患から悪性リンパ腫などへの進行、が治療方針に大きく影響していること明確になってきた。これが診療に関わる各科でも共有されるようになった。一方で、これが適切な造血細胞移植の時期と方法の決定に関与し治療選択の難しさを象徴するものであることも集積症例の結果から示唆される。

E. 結果

EBV 感染から炎症とリンパ増殖性疾患およびリンパ腫へと進展する本症の適切な治療介入の時期と方法の戦略を具体化するためのエビデンスが集積されている。疾患概念の国際化を進めて、根治のための造血細胞移植の至適化と同時に病勢制御の新規薬剤の開発を検討していくことが重要である。

F. 研究発表

1. 論文発表

1. Yamamoto M, Sato M, Onishi Y, Sasahara Y, Sano H, Masuko M, Nakamae H, Matsuoka KI, Ara T, Washio K, Onizuka M, Watanabe K, Takahashi Y, Hirakawa T, Nishio M, Sakashita C, Kobayashi T, Sawada A, Ichinohe T, Fukuda T, Hashii Y, Atsuta Y, Arai A. Registry data analysis of hematopoietic stem cell transplantation on systemic chronic active Epstein-Barr virus infection patients in Japan. *Am J Hematol*. 2022 Jun 1;97(6):780-790. doi: 10.1002/ajh.26544.
2. Sonoda M, Ishimura M, Eguchi K, Shiraishi A, Sakai Y, Urabe K, Ohga S. High-dose immunoglobulin therapy for steroid-resistant myositis in juvenile localized scleroderma. *Pediatr Neonatol*. 2022 Sep;63(5):542-544. doi: 10.1016/j.pedneo.2022.01.006.
3. Tanita K, Kawamura Y, Miura H, Mitsuiki N, Tomoda T, Inoue K, Iguchi A, Yamada M, Yoshida T, Muramatsu H, Tada N, Matsui T, Kato M, Eguchi K, Ishimura M, Ohga S, Imai K, Morio T, Yoshikawa T, Kanegane H. Case Report: Rotavirus Vaccination and Severe Combined Immunodeficiency in Japan. *Front Immunol*. 2022 Feb 23;13:786375. doi: 10.3389/fimmu.2022.786375.
4. Adachi S, Sonoda M, Ishimura M, Eguchi K, Tanaka T, Motomura Y, Ohga S. Optimal biologics for juvenile idiopathic arthritis in an infection with SARS-CoV-2 α -variant. *Pediatr Allergy Immunol*. 2022 Jan;33(1):e13686. doi: 10.1111/pai.13686.
5. Ohashi A, Uemura Y, Yoshimori M, Wada N, Imadome KI, Yudo K, Koyama T, Shimizu N, Nishio M, Arai A. The Plasma Level of Interleukin-1 β Can Be a Biomarker of Angiopathy in Systemic Chronic Active Epstein-Barr Virus Infection. *Front Microbiol*: April 13, 2022. doi: 10.3389/fmicb.2022.874998
6. Uemura Y, Ohashi A, Yoshimori M, Nishio M, Hirakawa T, Shimizu N, Wada N, Imadome KI, Arai A. Plasma interferon- γ concentration: a potential biomarker of disease activity of systemic chronic active Epstein-Barr virus infection. *Front. Virol*. 2:999929. September 29, 2022. doi: 10.3389/fviro.2022.999929
7. Ishikawa Y, Yamada M, Wada N, Takahashi E, Imadome KI: Mucosal-associated invariant T cells are activated in an interleukin-18-dependent manner in Epstein-Barr virus-associated T/natural killer cell lymphoproliferative diseases. *Clin Exp Immunol* 2022, 207(2):141-148 .doi: 10.1093/cei/uxab004.
8. Yoshida M, Morita K, Fukushima H, Jona M, Nishikawa M, Yatomi Y, Kishino Y, Iwasaki A, Ushiku T, Imadome KI, Honda A, Maki H, Kurokawa M :Development of E Yoshida M, Morita K, Fukushima H, Jona M, Nishikawa M, Yatomi Y, Kishino Y, Iwasaki A, Ushiku T, Imadome KI, Honda A, Maki H, Kurokawa M: Development of Epstein-Barr virus-associated lymphoproliferative disorder and hemophagocytic lymphohistiocytosis during long-term lenalidomide maintenance therapy in multiple myeloma. *Int J Hematol* 2022:1-5. doi: 10.1007/s12185-022-03499-2.
9. Matsukawa Y, Isshiki K, Osumi T, Fujiyama S, Fukushima H, Uchiyama T, Yamada M, Deguchi T, Imadome KI, Matsumoto K, Tomizawa D, Takada H, Onodera M, Kato M. Successful hematopoietic stem cell transplantation with reduced dose of busulfan for Omenn syndrome. *Blood Cell Ther* 2022, 5(3):75-78. doi:10.31547/bct-2021-021. eCollection 2022 Aug 25.
10. Yoshimura T, Miyoshi H, Shimono J, Nakashima K, Takeuchi M, Yanagida E, Yamada K, Shimasaki Y, Moritsubo M, Furuta T, Khono K, Ohshima K. CD37 expression in follicular lymphoma. *Ann Hematol*, 2022, 101(5): 1067-1075. PMID: 35171311. doi: 10.1007/s00277-022-04785-z.
11. Miyawaki K, Kato K, Sugio T, Sasaki K, Miyoshi H, Semba Y, Kikushige Y, Mori Y, Kunisaki Y, Iwasaki H, Miyamoto T, Kuo FC, Aster JC, Ohshima K, Maeda T, Akashi K. A germinal center-associated microenvironmental signature reflects malignant phenotype and outcome of DLBCL. *Blood Adv*, 2022, 6(7): 2388-2402. PMID: 34638128. doi: 10.1182/bloodadvances.2021004618.

12. Ono R, Tsumura M, Shima S, Matsuda Y, Gotoh K, Miyata Y, Yoto Y, Tomomasa D, Utsumi T, Ohnishi H, Kato Z, Ishiwada N, Ishikawa A, Wada T, Uhara H, Nishikomori R, Hasegawa D, Okada S, Kanegane H. Novel STAT1 variants in Japanese patients with isolated Mendelian susceptibility to mycobacterial diseases. *J Clin Immunol*. 2023 Feb;43(2):466-478.
13. Wakamatsu M, Kojima D, Muramatsu H, Okuno Y, Kataoka S, Nakamura F, Sakai Y, Tsuge I, Ito T, Ueda K, Saito A, Morihana E, Ito Y, Ohashi N, Tanaka M, Tanaka T, Kojima S, Nakajima Y, Ito T, Takahashi Y. TREC/KREC Newborn Screening followed by Next-Generation Sequencing for Severe Combined Immunodeficiency in Japan. *J Clin Immunol*. 2022 Nov;42(8):1696-1707. doi: 10.1007/s10875-022-01335-0.
14. 新井文子. 慢性活動性 EB ウイルス感染症の診断と治療の進歩. *血液内科*, 85(3): 294-297. 科学評論社, 令和 4 年 9 月 28 日
15. 新井文子. 血球貪食症候群、血球貪食性リンパ組織球症. 今日の治療指針 2023 年版. 福井次矢・高木誠・小室一成総編集. 医学書院, 令和 5 年 1 月, 688. ISBN 978-4-260-05035-7
16. Hirai Y, Asada H, Hamada T, Kawada JI, Kimura H, Arai A, Ohshima K, Ohga S, Iwatsuki K; Committee for Guidelines for the Management of Chronic Active EBV Disease and Related Disorders (the MHLW Research Team in Japan). Diagnostic and disease severity determination criteria for hydroa vacciniforme lymphoproliferative disorders and severe mosquito bite allergy. *J Dermatol*. 2023 Jul;50(7):e198-e205. doi: 10.1111/1346-8138.16842.
17. Moriya K, Nakano T, Honda Y, Tsumura M, Ogishi M, Sonoda M, Nishitani-Isa M, Uchida T, Hbibbi M, Mizoguchi Y, Ishimura M, Izawa K, Asano T, Kakuta F, Abukawa D, Rinchai D, Zhang P, Kambe N, Bousfiha A, Yasumi T, Boisson B, Puel A, Casanova JL, Nishikomori R, Ohga S, Okada S, Sasahara Y, Kure S. Human RELA dominant-negative mutations underlie type I interferonopathy with autoinflammation and autoimmunity. *J Exp Med*. 2023 Sep 4;220(9):e20212276. doi: 10.1084/jem.20212276.
18. Sonoda M, Ishimura M, Ohga S, Oda H, Ohga S. Split Immunological Reconstitution in a NEMO-Deficient Male with Incontinentia Pigmenti and Immunodeficiency. *J Clin Immunol*. 2023 Nov;43(8):1743-1746. doi: 10.1007/s10875-023-01543-2.
19. Kawada JI, Ito Y, Ohshima K, Yamada M, Kataoka S, Muramatsu H, Sawada A, Wada T, Imadome KI, Arai A, Iwatsuki K, Ohga S, Kimura H; Committee for Guidelines for the Management of Chronic Active EBV Disease, Related Disorders (the MHLW Research Team in Japan). Updated guidelines for chronic active Epstein-Barr virus disease. *Int J Hematol*. 2023 Nov;118(5):568-576. doi: 10.1007/s12185-023-03660-5.
20. Fujiyoshi J, Inoue H, Sawano T, Mushimoto Y, Motomura Y, Nishiyama K, Kaku N, Nagata H, Yamamura K, Ishimura M, Koga Y, Ochiai M, Sakai Y, Tajiri T, Ohga S. Critical diseases in neonates after discharge home from birth hospital: A retrospective study from a tertiary hospital in Japan. *Early Hum Dev*. 2023 Nov;186:105869. doi: 10.1016/j.earlhumdev.2023.105869.
21. Yada Y, Matsumoto M, Inoue T, Baba A, Higuchi R, Kawai C, Yanagisawa M, Kitamura D, Ohga S, Kurosaki T, Baba Y. STIM-mediated calcium influx regulates maintenance and selection of germinal center B cells. *J Exp Med*. 2024 Jan 1;221(1):e20222178. doi: 10.1084/jem.20222178.
22. Sonoda M, Ishimura M, Inoue H, Eguchi K, Ochiai M, Sakai Y, Doi T, Suzuki K, Inoue T, Mizukami T, Nakamura K, Takada H, Ohga S. Non-conditioned cord blood transplantation for infection control in athymic CHARGE syndrome. *Pediatr Blood Cancer*. 2024 Mar;71(3):e30809. doi: 10.1002/pbc.30809.
23. Ishimura M, Eguchi K, Sonoda M, Tanaka T, Shiraishi A, Sakai Y, Yasumi T, Miyamoto T, Voskoboinik I, Hashimoto K, Matsumoto S, Ozono S, Moritake H, Takada H, Ohga S. Early hematopoietic cell transplantation for familial hemophagocytic lymphohistiocytosis in a regional treatment network in Japan. *Int*

- J Hematol. 2024 May;119(5):592-602. doi: 10.1007/s12185-024-03721-3.
24. Park S, Sonoda M, Eguchi K, Shunichi A, Kinoshita K, Semba Y, Ishimura M, Ohga S. Epstein-Barr virus monitoring for preemptive re-hematopoietic cell transplantation in CD3 δ -deficient siblings. *Pediatr Blood Cancer in press*
 - 25.
 2. 学会発表
江口克秀、石村匡崇、原田頌隆、園田素史、大賀正一：急性脳症で発症し、臍帯血移植を要した難治性 EB ウイルス関連血球貪食性リンパ組織球症の 1 例、令和 4 年度第 1 回「慢性活動性 EBV 病の疾患レジストリ情報に基づく病型別根治療法の確立」大賀班会議 2022.12.2 web 会議
 2. 吉里倫、山根慶大、金宇琦、大木駿、福田泰崇、保田朋波流：細胞表面抗原を標的とした治療法の開発、令和 4 年度第 1 回「慢性活動性 EBV 病の疾患レジストリ情報に基づく病型別根治療法の確立」大賀班会議 2022.12.2 web 会議
 3. 石村匡崇：小児非腫瘍性血液疾患に関する登録事業の現況と課題、第 64 回日本小児血液・がん学会 JSPH0&JCCG 特別企画 ジョイントシンポジウム 2022.11.26 東京 ハイブリッド開催
 4. 石村匡崇：マクロファージ活性化症候群と血球貪食症候群 up to date：家族性血球貪食症候群および EBV 関連血球貪食性リンパ組織球症、第 5 回日本免疫不全・自己炎症学会 2022.2.12 Web 開催
 5. 足立俊一、江口克秀、石村匡崇、園田素史、平野直樹、今留謙一、大賀正一：CAEBV の移植前処置における Alemtuzumab の使用経験、第 30 回 EB ウイルス感染症研究会 2022.3.13. Web 開催
 6. Ohashi A, Kurata M, Arai A. The Effects of BCL2 Inhibitors on Chronic Active EBV Infections, an Intractable T- or NK-cell Lymphoid Neoplasm (EBV 陽性 T, NK 細胞腫瘍、慢性活動性 EBV 感染症に対する BCL2 阻害剤の効果)．第 81 回日本癌学会学術総会, 2022. 9. 29. 横浜, ポスター
 7. Uemura Y, Yamamoto M, Ishimura M, Kanegane H, Sawada A, Hirakawa A, Imadome KI, Yoshimori M, Shimizu N, Koike R, Arai A. Phase II study of a JAK1/2 inhibitor ruxolitinib for chronic active Epstein-Barr virus infection (慢性活動性 EB ウイルス感染症を対象とした JAK1/2 阻害薬ルキシニブ第 II 相試験) , 第 84 回日本血液学会学術集会, 福岡. 2022.10.14. 口頭
 8. 鈴木黎, 佐野文明, 齊木祐輔, 上村悠, 大島久美, 大橋彩香, 辻村浩司, 小島尚美, 清水則夫, 今留謙一, 新井文子. Alemtuzumab を用いた HLA 半合致造血幹細胞移植が奏効した成人発症慢性活動性 EB ウイルス病. 第 31 回 EBV 感染症研究会, オンライン/福岡. 2023. 3. 19. 口頭
 9. 大賀正一, 新井文子, 今留謙一, 川田潤一, 石村匡崇. CAEBV の診断基準と重症度分類について. 第 31 回 EBV 感染症研究会, オンライン/福岡. 2023. 3. 19. パネルディスカッション
 10. Tsushima T, Masuda S, Yoda N, Kainuma S, Tanaka A, Tanaka K, Isogai S, Shimoji S, Kimura K, Arai H, Utsu Y, Imadome KI, Aotsuka N. Epstein-Barr virus viral load status with 122 recipients of allogeneic stem cell transplantation. 45th JSCT Annual Meeting (JSTCT2023) Japanese Society for Transplantation and Cellular Therapy, Nagoya CongressCenter, 2/1012/2023. (oralpresentation2/10/2023)
 11. 宇佐美雅章、山上綾子、東玖美、神川愛純、松田裕介、横山忠史、井美暢子、東馬智子、今留謙一、和田泰三. EB ウイルス再活性化を伴った重症潰瘍性大腸炎の女児例. 第 31 回 EB ウイルス 感染症研究会. 福岡. 2023. 3. 19.
 12. 原発性免疫不全症を対象とした新生児マススクリーニング, 村松秀城. 第 84 回日本血液学会学術集会 (教育講演) , 福岡. 2022.10.14-16. 口頭.
 13. 江口克秀、石村匡崇、原田頌隆、園田素史、大賀正一：血球貪食性リンパ組織球症を伴う治療抵抗性悪性リンパ腫の経過から診断に至った遅発発症家族性血球貪食性リンパ組織球症 2 型の 1 例 「慢性活動性 EBV 病の疾患レジストリ情報に基づく病型別根治療法の確立」令和 5 年度 第 1 回合同研究班班会議 (大賀班・新井班・奥野班) 2023.12.1 Web
 14. 木下恵志郎、江口克秀、園田有里、長友雄作、原田頌隆、足立俊一、矢田裕太郎、園田素史、石村匡崇、大賀正一：EB ウイルス関連血球貪食性リンパ組織球症における稀な合併症 第

31回EBV感染症研究会 2023.3.19 福岡(Web)

G. 知的所有権の取得状況

1. 特許取得

1. 出願中 国際出願「EBV関連疾患を標的とする核酸医薬」整理番号 PH-9711-PCT 受付番号 52202872104 提出日 令和5年12月27日 出願番号 PCT/JP2022/048097

2. 出願中 国際出願「慢性活動性 Epstein-Barr ウイルス感染症 (CAEBV) の検出方法」整理番号 23012W2 受付番号 52300619394 提出日 令和5年3月23日 出願番号 PCT/JP2023/11650

2. 実用新案登録 該当なし

3. その他 該当なし

研究成果の刊行に関する一覧表レイアウト

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
平川経晃, 新井文子	慢性活動性EBウイルス感染症	神田善伸	ここが知りたい！血液疾患診療ハンドブック	中外医学社	日本	2022年	198/202
新井文子	血球貪食症候群、血球貪食性リンパ組織球症	福井次矢・高木誠・小室一成	今日の治療指針2023年版. 総編集	医学書院	日本	2023年	688-689
上村悠 (システマティックレビュー担当), 新井文子 (診療ガイドライン統括委員) 他	慢性活動性EBウイルス病とその類縁疾患 診療ガイドライン2023	日本小児感染症学会監修	慢性活動性EBウイルス病とその類縁疾患 診療ガイドライン2023	診断と治療社	日本	2023年	38-42
笹原洋二	免疫不全を伴う特徴的症候群	日本小児血液・がん学会	小児血液・腫瘍学テキスト 改訂第2版	診断と治療社	東京	2022年	422-426
澤田明久	サイトカインストームに対する治療戦略 免疫化学療法	金兼弘和	小児科診療, 第85巻4号	診断と治療社	東京都	2022年	495-500
澤田明久	血球貪食性リンパ組織球症	神田善伸	月刊カレントセラピー, Vol. 40 No. 6	ライフメディアコム	東京都	2022年	36-41
澤田明久、井上雅美	慢性活動性EBウイルス感染症	松村到、張替秀郎、神田善伸	血液疾患 最新の治療 2023-2025	南江堂	東京都	2022年	708-709
新井文子	発熱	井上智子・窪田哲朗	症状別看護過程 第4版	医学書院	東京	2023年	2-6
上村悠, 新井文子	Epstein-Barr ウイルス関連血球貪食症候群	島清彦	日本臨牀別冊 血液症候群 (第3版) IV	日本臨牀社	東京	2024年	448-452

伏屋愛加, 新井文子	悪性腫瘍関連血球 貪食性リンパ組織 球症	島清彦	日本臨牀別冊 血液症候群 (第3版) IV	日本臨牀 社	東京	2024年	453-457
笹原洋二	Wiskott-Aldrich 症候群	瓦谷秀治	日本臨床 2023年10月 別冊 血液症 候群(第3 版) II~その 他の血液疾患 を含めて~	日本臨床 社	東京	2023年	298-303
笹原洋二	原発性免疫不全症	福井次矢	今日の治療指 針 2024年度 版 -私はこう 治療している	医学書院	東京	2023年	1497-1498
笹原洋二	ウィスコット・オ ルドリッチ症候群	日本免疫不 全・自己炎 症学会	原発性免疫不 全症候群 診 療の手引き (改訂第2版)	診断と治 療社	東京	2023年	30-35
笹原洋二	NFKB2欠損症	日本免疫不 全・自己炎 症学会	原発性免疫不 全症候群 診 療の手引き (改訂第2版)	診断と治 療社	東京	2023年	90-95
笹原洋二	腸炎を伴う免疫不 全症	日本免疫不 全・自己炎 症学会	原発性免疫不 全症候群 診 療の手引き (改訂第2版)	診断と治 療社	東京	2023年	125-131

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
Yamamoto M, Sat o M, Onishi Y, Sa sahara Y, San o H, Masuko M, Nakamae H, Mats uoka KI, Ara T, Washio K, Oniz uka M, Watanabe K, Takahashi Y, Hirakawa T, Nishio M, Sakas hita C, Kobayas hi T, Sawada A, Ichinohe T, Fu kuda T, Hashii Y, Atsuta Y, Ar ai A	Registry data analys is of hematopoietic stem cell transplant ation on systemic ch ronic active Epstein -Barr virus infectio n patients in Japan	Am J Hematol	97(6)	780-790	2022年

Sonoda M, Ishimura M, Eguchi K, Shiraishi A, Sakai Y, Urabe K, Ohga S	High-dose immunoglobulin therapy for steroid-resistant myositis in juvenile localized scleroderma.	Pediatr Neonatol.	63(5)	542-544	2022年
Tanita K, Kawamura Y, Miura H, Mitsuiki N, Tomoda T, Inoue K, Iguchi A, Yamada M, Yoshida T, Muramatsu H, Tada N, Matsui T, Kato M, Eguchi K, Ishimura M, Ohga S, Imai K, Morio T, Yoshikawa T, Kanegane H	Rotavirus Vaccination and Severe Combined Immunodeficiency in Japan	Front Immunol.	13	786375.	2022年
Adachi S, Sonoda M, Ishimura M, Eguchi K, Tanaka T, Motomura Y, Ohga S	Optimal biologics for juvenile idiopathic arthritis in an infection with SARS-CoV-2 α -variant	Pediatr Allergy Immunol	33(1)	e13686	2022年
Ohashi A, Uemura Y, Yoshimori M, Wada N, Imadome KI, Yudo K, Koyama T, Shimizu N, Nishio M, Arai A.	The Plasma Level of Interleukin-1 β Can Be a Biomarker of Angiopathy in Systemic Chronic Active Epstein-Barr Virus Infection	Front Microbiol	doi: 10.3389/fmicb.2022.874998		2022年
新井文子	慢性活動性EBウイルス感染症の診断と治療の進歩	血液内科	85(3)	294-297	2022年
Uemura Y, Ohashi A, Yoshimori M, Nishio M, Hirakawa T, Shimizu N, Wada N, Imadome KI, Arai A	Plasma interferon- γ concentration: a potential biomarker of disease activity of systemic chronic active Epstein-Barr virus infection	Front. Virology	2:999929		2022年
大橋彩香, 上村悠, 新井文子	Epstein-Barr VirusによるT、NK細胞の腫瘍化のメカニズム	新リンパ腫学	81巻増刊号3	107-111	2022年

今留謙一	ヘルペスウイルスと皮膚疾患 EBウイルス関連疾患を中心として	日本小児皮膚科学会雑誌	42 (1)	3-8	2023年
今留謙一	胸部の最新画像情報 2023】22q11.2欠失症候群を背景とした慢性活動性Epstein-Barrウイルス感染症に両肺の多発結節を認めた1例	臨床放射線	68 (1)	27-32	2023年
Nakamura Y, Mori T, Kako S, Yamazaki H, Kanda Y, Uchida N, Tanaka M, Nawa Y, Fukuda T, Ichinohe T, Atsuta Y, Onishi Y.	Outcome of peripheral blood stem cell transplantation from HLA-identical sibling donors for adult patients with aplastic anemia	Int J Hematol	117	356-365	2023年
Mizuno K, Sakurai M, Kato J, Yamaguchi K, Abe R, Koda Y, Kataoka K, Mori T.	Risk factor analysis for cytomegalovirus reactivation under prophylaxis with letamovir after allogeneic hematopoietic stem cell transplantation.	Transpl Infect Dis	24	e13904	2022年
Ono R, Tsumura M, Shima S, et al	Novel STAT1 variants in Japanese patients with isolated Mendelian susceptibility to mycobacterial diseases.	J Clin Immunol	43(2)	466-478	2023年
Noguchi K, Ikawa Y, Takenaka M, et al.	Acquired L1196M ALK mutation in anaplastic lymphoma kinase-positive anaplastic large cell lymphoma during alectinib administration.	EJHaem	4(1)	305-308	2023年
Miyazawa H, Wada T.	Immune-mediated inflammatory diseases with chronic excess of serum interleukin-18.	Front Immunol	13	930141	2022年
Yamamoto M, Sato M, Onishi Y, Sasahara Y, et al.	Registry data analysis of hematopoietic stem cell transplantation on systemic chronic active EBV infection patients in Japan.	Am J Hematol	97(6)	780-790	2022年

Horiba K, Torii Y, Aizawa Y, Yamaguchi M, Haruta K, Okumura T, Suzuki T, Kawano Y, Kawada JJ, Hara S, Saitoh A, Giske G, Ogi T, Ito Y.	Performance of Nanopore and Illumina metagenomic sequencing for pathogen detection and transcriptome analysis in infantile central nervous system infections.	Open Forum Infect Dis	9(10)	ofac504	2022年
Narita K, Muramatsu H, Narumi S, Nakamura Y, Okuno Y, Suzuki K, Hamada M, Yamaguchi N, Suzuki A, Nishio Y, Shiraki A, Yamamori A, Tsumura Y, Sawamura F, Kawaguchi M, Wakamatsu M, Kataoka S, Kato K, Asada H, Kubota T, Muramatsu Y, Kidokoro H, Natsume J, Mizuno S, Nakata T, Inagaki H, Ishihara N, Yonekawa T, Okumura A, Ogi T, Kojima S, Kaname T, Hasegawa T, Saitoh S, Takahashi Y.	Whole-exome analysis of 177 pediatric patients with undiagnosed diseases	Sci Rep.	12(1)	14589	2022年
Wakamatsu M, Kojima D, Muramatsu H, Okuno Y, Kataoka S, Nakamura F, Sakai Y, Tsuge I, Ito T, Ueda K, Saito A, Morihana E, Ito Y, Ohashi N, Tanaka M, Tanaka T, Kojima S, Nakajima Y, Ito T, Takahashi Y.	TREC/KREC Newborn Screening followed by Next-Generation Sequencing for Severe Combined Immunodeficiency in Japan	J Clin Immunol.	42(8)	1696-1707	2022年

Miyagishima M, Hamada M, Hirayama Y, Muramatsu H, Tainaka T, Shirota C, Hinoki A, Imaizumi T, Nakatochi M, Kamei M, Nishikawa E, Kawashima N, Narita A, Nishio N, Kojima S, Takahashi Y.	Risk factors for unplanned removal of central venous catheters in hospitalized children with hematological and oncological disorders	Int J Hematol	116(2)	288-294	2022年
Haruta K, Takeuchi S, Yamaguchi M, Horiba K, Suzuki T, Torii Y, Narita A, Muramatsu H, Takahashi Y, Ito Y, Kawada JI.	Droplet Digital PCR Development for Adenovirus Load Monitoring in Children after Hematopoietic Stem Cell Transplantation	J Mol Diagn.	25(6)	403-409	2023年
Hamada M, Muramatsu H, Torii Y, Suzuki K, Narita A, Yoshida T, Imai M, Yamamori A, Wakamatsu M, Miwata S, Narita K, Kataoka S, Kawashima N, Taniguchi R, Nishikawa E, Nishio N, Ito Y, Kojima S, Takahashi Y.	Human leukocyte antigen 7/8-matched unrelated bone marrow transplantation using anti-thymocyte globulin in children	Int J Hematol	-	-	2023年
Kawaguchi K, Umehada K, Miyamoto S, Yoshida N, Yabe H, Koike T, Kajiwarra M, Kawaguchi H, Takahashi Y, Ishimura M, Sakaguchi H, Hama A, Chino Y, Sato M, Kato K, Sato A, Kato K, Tabuchi K, Atsuta Y, Imai K.	Graft-versus-host disease-free, relapse-free, second transplant-free survival in allogeneic hematopoietic cell transplantation for genetic disorders.	Bone Marrow Transplant.	16 Feb		2023年

Maemura R, Wakamatsu M, Matsumoto K, Sakaguchi H, Yoshida N, Hama A, Yoshida T, Miwata S, Kitazawa H, Narita K, Kataoka S, Ichikawa D, Hamada M, Taniguchi R, Suzuki K, Kawashima N, Nishikawa E, Narita A, Okuno Y, Nishio N, Kato K, Kojima S, Morita K, Muramatsu H, Takahashi Y.	Clinical Impact of Melphalan Pharmacokinetics on Transplantation Outcomes in Children Undergoing Hematopoietic Stem Cell Transplantation.	Cell Transplantation.	31	1-9	令和4年
Inamoto Y, Takeuchi W, Hirakawa T, Sakaguchi H, Nakano N, Uchida N, Doki N, Ikegami K, Katayama Y, Sawa M, Kuriyama T, Hiramoto N, Ota S, Ozawa Y, Kataoka K, Kanda Y, Hino M, Kimura T, Atsuta Y, Fukuda T, Nagafuji K.	Adenovirus disease after hematopoietic cell transplantation: A Japanese transplant registry analysis.	Am J Hematol	97	1568-1579	2022年
Kato I, Sakaguchi H, Kato S, Sato M, Noguchi M, Yoshida N, Koh K, Koike T, Yanagimachi M, Kato K, Takahashi Y, Fujita N, Sato A, Hashii Y, Tabuchi K, Atsuta Y, Morishima S, Kanda J.	Impact of human leukocyte antigen mismatch on outcomes after unrelated bone marrow transplantation in paediatric patients: A retrospective analysis by the JSTCT HLA working group.	Br J Haematol	199	392-400	2022年

Kawahara Y, Ishimaru S, Tanaka J, Kako S, Hirayama M, Kanayama M, Ishida H, Sato M, Kobayashi R, Kato M, Goi K, Saito S, Koga Y, Hashii Y, Kato K, Sato A, Atsuta Y, Sakaguchi H.	Impact of KIR-ligand mismatch on pediatric T-cell acute lymphoblastic leukemia in unrelated cord blood transplantation.	Transplant Cell Ther.	28	598e1-598e8	2022年
Sakaguchi H, Yoshida N.	Recent advances in hematopoietic cell transplantation for inherited bone marrow failure syndromes.	Int J Hematol	116	16-27	2022年
Ishida H, Kato M, Kawahara Y, Ishimaru S, Najima Y, Kako S, Sato M, Hiwatarashi M, Noguchi M, Kato K, Koh K, Okada K, Iwasaki F, Kobayashi R, Igarashi S, Saito S, Takahashi Y, Sato A, Tanaka J, Hashii Y, Atsuta Y, Sakaguchi H, Imamura T.	Prognostic factors of children and adolescents with T-cell acute lymphoblastic leukemia after allogeneic transplantation.	Hematol Oncol	40	457-468	2022年
Maemura R, Sakaguchi H, Yoshida N, Yamashita D, Sajiki D, Murase N, Yasuda T, Ito T, Hama A.	Pediatric Philadelphia chromosome-positive B-lymphoblastic lymphoma with testicular relapse: A case report.	Pediatr Blood Cancer.	69	E29528	2023年
Ohirai Y, Asada H, Hamada T, Kawada JI, Kimura H, Arai A, Ohshima K, Ohgas S, Iwatsuki K; Committee for Guidelines for the Management of Chronic Active EBV Disease and Related Disorders (the MHLW Research Team in Japan)	Diagnostic and disease severity determination criteria for human herpesvirus 8 (HHV-8) infection and severe disorders and severe mosquito bite allergy	J Dermatol	50(7)	e198-e205	2023年

Moriya K, Nakano T, Honda Y, Tsumura M, Ogishi M, Sonoda M, Nishitani-Isa M, Uchida T, Hibi M, Mizoguchi Y, Ishimura M, Izawa K, Asano T, Kakuta F, Abukawa D, Rinchai D, Zhang P, Kambe N, Boussfiha A, Yasumi T, Boisson B, Puel A, Casanova JL, Nishikomori R, Ohga S, Okada S, Sasahara Y, Kure S	Human RELA dominant-negative mutations underlie type I interferonopathy with autoinflammation and autoimmunity	J Exp Med	220(9):	e20212276	2023年
Sonoda M, Ishimura M, Ogata R, Oda H, Ohga S	Split Immunological Reconstitution in a NEMO-Deficient Male with Incontinentia Pigmenti and Immunodeficiency	J Clin Immunol	43(8):	1743-1746	2023年
Okawada JI, Itou Y, Ohshima K, Yamada M, Kataoka S, Muramatsu H, Sawada A, Wada T, Imadome KI, Arai A, Iwatsuki K, Ohga S, Kimura H; Committee for Guidelines for the Management of Chronic Active EBV Disease, Related Disorders (the MHLW Research Team in Japan).	Updated guidelines for chronic active Epstein-Barr virus disease	Int J Hematol	118(5)	568-576	2023年
Fujiyoshi J, Inoue H, Sawano T, Mushimoto Y, Motomura Y, Nishiyama K, Kakumura M, Koga Y, Ochiai M, Sakai Y, Tajiri T, Ohga S	Critical diseases in neonates after discharge home from birth hospital: A retrospective study from a tertiary hospital in Japan	Early Hum Dev	186	105869	2023年

Yada Y, Matsumoto M, Inoue T, Baba A, Higuchi R, Kawai C, Yanagisawa M, Kitterama D, Ohgasura S, Kurosaki T, Baba Y	STIM-mediated calcium influx regulates maintenance and selection of germinal center B cells	J Exp Med	221(1)	e20222178	2024年
Sonoda M, Ishimura M, Inoue H, Eguchi K, Ochiai M, Sakai Y, Doi T, Suzuki K, Inoue T, Mizukami T, Nakamura K, Takada H, Ohga S	Non-conditioned cord blood transplantation for infection control in athymic CHARGE syndrome	Pediatr Blood Cancer	71(3)	e30809	2024年
Ishimura M, Eguchi K, Sonoda M, Tanaka T, Shiraishi A, Sakai Y, Yasumi T, Miyamoto T, Voskoboinik I, Hashimoto K, Matsumoto S, Ozono S, Moritake H, Takada H, Ohga S.. Int J Hematol. 2024 May;119(5):592-602	Early hematopoietic cell transplantation for familial hemophagocytic lymphohistiocytosis in a regional treatment network in Japan	Int J Hematol			2024年 Online ahead of print
Park S, Sonoda M, Eguchi K, Shunichi A, Kinoshita K, Semba Y, Ishimura M, Ohga S	Epstein-Barr virus monitoring for preemptive re-hematopoietic cell transplantation in CD3δ-deficient siblings	Pediatr Blood Cancer			2024年 in press
Uemura, Y, Oshima, K, Fuseya, A, Hosokai A, Ohashi A, Kanno M, Arai A.	Aortitis after administration of pegfilgrastim to a healthy donor for peripheral blood stem cell collection	Int J Hematol	118	772-775	2023年
新井文子	EBV陽性リンパ増殖性疾患の診断と管理	臨床血液	64 (8)	764-771	2023年
Yotsuyanagi T, Tomita N, Saiki Y, Uchida A, Uemura Y, Suzuki Y, Hirakawa T, Kato M, Nakamura N, Arai A.	Leukemic-phase mucosa-associated lymphoid tissue lymphoma	Int J Hematol	118(6)	758-765	2023年

新井文子	Epstein-Barrウイルス と血液疾患：最近の話題を中心に	血液内科	87(6)	638-643	2023年
Nishio M, Saito M, Yoshimori M, Kumaki Y, Ohashi A, Susaki E, Yonese I, Sawada M, Arai A.	Clinical significance of anti-Epstein-Barr virus antibodies in systemic chronic active Epstein-Barr virus disease	Front Microbiol.	8;14	1320292	2024年
Misaki Y, Minakata D, Ibe T, Gomyo A, Yoshimura K, Kimura S, I, Nakamura Y, Kawamura M, Kawamura S, Takeshita J, Yoshino N, Matsumi S, Akahoshi Y, Tamaki M, Kusuda M, Kamada K, Wada H, Kawamura K, Saito M, Terasako-Saito K, Tanihara A, Hatano K, Nakasone H, Imadome KI, Wada H, Kako S, Oshiro H, Tanaka A, Kanda Y.	Chronic active Epstein-Bar virus infection complicated by pulmonary artery hypertension	Infect Chemother	29(2)	212-218	2023年
Tanaka A, Kawaguchi T, Imadome KI, Hara S	[Epstein-Barr virus-associated lymphoproliferative disorders after BNT162b2 mRNA COVID-19 vaccination]	Rinsho Ketsu	64(4)	277-282	2023年

Kameda K, Yanagita R, Miyatake Y, Carreras J, Higuchi H, Murayama H, Ishida T, Ito A, Iida S, Fukuhara N, Harigae H, Fujioka Y, Takahashi N, Wada H, Ishida F, Nakazawa H, Ishihara R, Murakami Y, Tagawa H, Matsuura T, Nakagawa S, Iwabuchi S, Hashimoto S, Imadome KI, Nakamura N, Ishizawa K, Kanda Y, Ando K, Kotani A	Hepatic niche leads to aggressive natural killer cell leukemia proliferation through transferrin-transferrin receptor lax	Blood				2023年 Online ahead of print
Yoshida M, Morita K, Fukushima H, Jona M, Nishikawa M, Yatomi Y, Kishino Y, Iwasaki A, Ushiku T, Imadome KI, Honda A, Maki H, Kurakawa M	Development of Epstein-Barr virus-associated lymphoproliferative disorder and hemophagocytic lymphohistiocytosis during long-term lenalidomide maintenance therapy in multiple myeloma	Int J Hematol	117(5)	769-773		2023年
Yamada M, Fukuda A, Ogura M, Shimizu S, Uchida H, Yanagi Y, Ishikawa Y, Sakamoto S, Kasahara M, Imadome KI	Early Detection of Epstein-Barr Virus as a Risk Factor for Chronic High Epstein-Barr Viral Load Carriage at a Living-donor-dominant Pediatric Liver Transplantation Center	Transplantation	107 (6)	1322-1329		2023年
Miyoshi Y, Kise T, Morita K, Okada H, Imadome KI, Tsuchida N, Maeda A, Uchiyama Y, Kirino Y, Matsumoto N, Yokogawa N	Long-term remission of VEXAS syndrome achieved by a single course of CHOP therapy. A case report.	Mod Rheumatol Case Rep				2023年 Online ahead of print
Konishi S, Ono R, Tanaka M, Imadome KI, Nakazawa Y, Kanegane H, Hasegawa D	Cytokine-based disease monitoring in refractory HLH with primary EBV infection.	Pediatr Int	65(1)	e15590		2023年

Tokuda Y, Yamada M, Fukuda A, Shoji K, Sakamoto S, Uchida H, Ishiguro A, Imadome KI, Kasahara M	No Additional Risk of Ampicillin Rash Among Pediatric Liver Transplant Recipients With Concurrent Epstein-Barr Virus Infection	Pediatr Infect Dis J			2023年 Online ahead of print
Inaba Y, Miyazono A, Imadome KI, Aratake S, Okamoto Y	A successful treatment for chronic active Epstein-Barr virus disease with Nephrotic Syndrome	CEN Case Rep			2023年 Online ahead of print
Tsushima T, Masuda SI, Yoda N, Kainuma S, Kimeda C, Kovino S, Tanaka K, Matsuo K, Shimoji S, Kimura K, Arai H, Utsu Y, Imadome KI, Aotsuka N	Clinical characteristics and outcomes of Epstein-Barr virus viral load after allogeneic hematopoietic stem cell transplantation	Ann Hematol	103(3)	935-946	2024年
Sato K, Watanabe R, Ito I, Imadome KI, Sumi M, Kobayashi H	Successful Treatment of Epstein-Barr Virus Reactivation-associated Transverse Myelitis Following Herpes Zoster with Intravenous Rituximab in a Cord Blood Transplant Recipient.	Intern Med			2024年 Epub ahead of print
Iguchi A, Uchiyama T, Fujimori K, Gocho Y, Saikaguchi H, Deguchi T, Tomizawa D, Imadome KI, Onodera M, Matsumoto K	HLA-haploidentical T-cell receptoralpha1alphabeta T/B-cell-depleted stem cell transplantation for Fanconi anemia	Int J Hematol	119(3)	334-337	2024年
今留謙一	ヘルペスウイルスと皮膚疾患 EBウイルス関連疾患を中心として	日本小児皮膚科学会雑誌	42(1)	3-8	2023年
田中茜, 川口岳晴, 今留謙一, 原暁	BNT162b2 mRNA COVID-19ワクチン接種後に発症したEBウイルス関連リンパ増殖性疾患	臨床血液	64(4)	277-282	2023年

佐藤千明, 中井雄大, 犬塚亮, 柴田英介, 渡谷岳行, 今留謙一, 加藤元博, 阿部修	【胸部の最新画像情報2023】22q11.2欠失症候群を背景とした慢性活動性Epstein-Barrウイルス感染症に両肺の多発結節を認めた1例	臨床放射線	68 (1)	27-32	2023年
Mizuta M, Inoue N, Shimizu M, et al.	Distinct roles of IL-18 and IL-1 β in murine model of macrophage activation syndrome.	J Allergy Clin Immunol	152(4)	940-948	2023年
Sakumura N, Yokoyama T, Usami M, et al.	CD169 expression on monocytes as a marker for assessing type I interferon status in pediatric inflammatory diseases.	Clin Immunol	250	109329	2023年
Noguchi K, Ikawa Y, Takenaka M, et al.	Protocol for a high titer of BaEV-Rless pseudotyped lentiviral vector: Focus on syncytium formation and detachment.	J Virol Methods	314	114689	2023年
○Inoue T, Watabe D, Akasaka K, Sasaki T, Sasahara Y, Asano H	Refractory atopic dermatitis in a child with hypomorphic mutation in <i>XIAP</i> gene and low serum IgG.	J Dermatol.	50(11)	e363-365	2023年

Moriya K, Nakan o T, Honda Y, T sumura M, Ogish i M, Sonoda M, Nishitani M, Uc hida T, Hibi M, Mizuochi Y, Is himura M, Izawa K, Asano T, Ka kuta F, Abukawa D, Rinchai D, Zhang P, Kambe N, Bousfiha A, Yasumi T, Nishi komori R, Rinch ai D, Zhang P, Puel A, Casanov a JL, Ohga S, O kada S, Sasahar a Y, Kure S	Dominant negative mutations in human <i>RELA</i> underlie a type I interferonopathy with autoinflammation and autoimmunity.	J Exp Med.	220	e20212276	2023年
Yamaguchi M, Ho riba K, Haruta K, Takeuchi S, Suzuki T, Torii Y, Kawabe S, W ada S, Ikeyama T, Ito Y, Ogi T, Kawada JI.	Utility of nanopore sequencing for detec ting pathogens in br onchoalveolar lavage fluid from pediatri c patients with resp iratory failure.	J Clin Virol3 Plus		100154	2023年
Okono A, Wakam atsu M, Umezawa Y, Muramatsu H, Fujiwara H, Tomomasa D, Ino ue K, Hattori K, Mitsui T, Ta kada H, Minegis hi Y, Takahashi Y, Yamamoto M, Mori T, Kanega ne H	Successful treatment of DOCK8 deficiency by allogeneic hemat opoietic cell transp lantation from alter native donors	Int J Hemato l	118(4)	519-525	2023年
Okumagai N, Fu nato Y, Wakamat su M, Muramatsu H, Mizuno H	Japanese siblings wi th cartilage-hair hy poplasia exhibiting different severity	Pediatr Int	65(1)	e15557	2023年

○Tsumura Y, Muramatsu H, Tetsuka N, Imaizumi T, Sato K, Inoue K, Motomura Y, Cho Y, Yamashita D, Sajiki D, Maemura R, Yamamori A, Imai M, Wakamatsu M, Narita K, Kataoka S, Hamada M, Taniguchi R, Nishikawa E, Narita A, Nishio N, Kojima S, Hoshino Y, Takahashi Y	A Japanese retrospective study of non-tuberculous mycobacterial infection in children, adolescents, and young adult patients with hematologic-oncologic diseases	Haematologica			2023(Online ahead of print)
○Kanegane H, Endo A, Okada S, Ohnishi H, Ishimura M, Nishikomori R, Imai K, Nonoyama S, Muramatsu H, Wada T, Kuga A, Sakamoto K, Russo-Schwarzbaum S, Chu LH, McCoy B, Li Z, Yell L	Pharmacokinetics, safety, and efficacy of 20% subcutaneous immunoglobulin (Ig20G) administered weekly or every 2 weeks in Japanese patients with primary immunodeficiency diseases: a phase 3, open-label study	Immunotherapy	A4(1)	ltae001	2024年
Kurashige R, Kurashige M, Okada Y, Higuchi K, Yuda S, Hino A, Miyamura T, Ichii M, Fukushima K, Honma K, Takeuchi M, Yokota T, Ishikawa J, Sawada A, Shibayama H, Hosen N, Morii E	Differentiating between Epstein-Barr virus-positive lymphoid neoplasm relapse and post-transplant lymphoproliferative disorder after sex-mismatched hematopoietic stem cell transplantation	Am J Surg Pathol	48(4)	395-405	2024年

Yoji Hirai	Diagnostic and disease severity determination criteria for hydroa vacciniforme lymphoproliferative disorders and severe mosquito bite allergy	The Journal of Dermatology	50(7)	198-205	2023年
------------	---	----------------------------	-------	---------	-------