令和3年度厚生労働科学科研費補助金
難治性疾患政策研究事業
総括研究報告書

キャッスルマン病、TAFRO症候群、類縁疾患の診療ガイドラインの策定や更なる改良に向けた国際的な総意形成を踏まえた調査研究

研究代表者　川上　純
長崎大学大学院医歯薬学総合研究科 先進予防医学共同専攻 教授

研究分担者　古賀智裕　長崎大学大学院医歯薬学総合研究科・助教
佐藤俊太朗　長崎大学病院・助教
青木定夫　新潟薬科大学薬学部・教授
中村直哉　東海大学医学部・教授
井出　眞　高松赤十字病院第二血液内科・部長
水木満佐央　大阪大学医学部附属病院・准教授
正木康史　金沢医科大学医学部・主任教授
石垣靖人　金沢医科大学総合医学研究所生命科学研究領域・教授
山田壮亮　金沢医科大学医学部・教授
金子祐子　慶應義塾大学医学部・教授
矢野真吾　東京慈恵会医科大学医学部医学科・教授
澤　直樹　虎の門病院分院腎センター内科・部長
佐藤康晴　岡山大学学術研究院保健学域・教授
岩城憲子　国立がん研究センター中央病院血液腫瘍科・医員

研究要旨
研究の効率的な遂行を目的に、項目 1.診療ハード（地域中核病院、中央病理診断センター、中央病態解析センター）の連携強化、項目 2.診療情報の難病プラットフォームへの登録、項目 3.難病における国際協調、項目 4.ガイドライン作成や患者会との協働の 4 項目を掲げ、研究を遂行した。項目 1.と項目 2.については、地域中核病院として、国際協調やガイドライン作成に必須の情報源である政策研究班の 3 つのレジストリとレジストリ-3 を基盤として令和 3 年度に実施した AMED 医師主導治験班における治験適格症例調査のレジストリ情報を、難病プラットフォームに統合する作業に着手した。難病プラットフォームは、キャッスルマン病、TAFRO 症候群、類縁疾患の診療ガイドラインの策定や更なる改良に向けた国際的な総意形成を踏まえた調査研究【RADDAR-J[77]】として内容は確定している。中央病理診断センターは診断困難例の病理診断を担当し、6 例の実績がある。中央病態解析センターは NOS タイプと TAFRO タイプにおいて異なる発現パターンを示すバイオマーカーを特定した。項目 3.については、令和 3 年 9 月開催の第一回国際キャッスルマン病シンポジウム（令和 3 年 9 月 16-17 日、WEB、一部ライブ討論）と 10 月 15 日と令和 4 年 3 月 11 日の CDCN Scientific Advisory Board（SAB）ミーティング（WEB）で情報を交換した。項目 4.についてはガイドライン作成では、臨床医が TAFRO 症候群の診療に苦慮している実態が明らかとなり、京都大学大学院医学研究科健康情報学 中山 健夫教授に入っていただき、TAFRO 症候群に対する診療ガイドラインもしくは診療参照ガイドを公開する方針となり、令和 4 年 3 月 25 日に TAFRO 症候群に対する診療ガイドラインの作成に向けての WEB 会議を実施し、CQ の大筋などを確認した。患者会との協働では、患者会員参加型の医療講演会を、WEB 形式で、令和 3 年 8 月 28 日に開催し、基本的なレクチャーに加え、患者会からの患者会白書 2020 の報告コーナーを設け、患者会からの質問も積極的に受け付け、非常に好評であった。

A.研究目的

キャッスルマン病、TAFRO 症候群、類縁疾患を包括する診療ガイドラインの作成、新たな指定難病としての TAFRO 症候群の申請、キャッスルマン病と TAFRO 症候群の診療情報の難病プラットフォームへの登録、キャッスルマン病患者会との協働、キャッスルマン病と TAFRO 症候群の研究における国際協調と国際的なガイドラインの編纂を研究目的とする。そのために以下の 4 項目：項目 1.診療ハード（地域中核病院、中央病理診断センター、中央病態解析センター）の連携強化、項目 2.診療情報の難病プラットフォームへの登録、項目 3.難病における国際協調、項目 4.ガイドライン作成や患者会との協働を掲げ、研究を遂行した。

B.研究方法

項目 1.診療ハード（地域中核病院、中央病理診断センター、中央病態解析センター）の連携強化

項目 2.診療情報の難病プラットフォームへの登録

地域中核病院として、国際協調やガイドライン作成に必須の情報源である政策研究班の 3 つのレジストリ（レジストリ-1：研究責任者 金沢医科大学 正木 康史 UMIN000011809、承認番号 金沢医科大学 E18、レジストリ-2：研究責任者 長崎大学 川上 純 UMIN000034188、承認番号 長崎大学病院 18070916-6、レジストリ-3：研究責任者 大阪大学 水木 満佐央 UMIN000035088、承認番号 大阪大学医学部附属病院 15431-3）とレジストリ-3 を基盤として令和 3 年度に実施した AMED 医師主導治験班における治験適格症例調査の情報（トシリズマブ効果不十分の特発性多中心性キャッスルマン病に対するシロリムスの医師主導治験；課題管理番号：19lk0201104h0001）のレジストリ情報を、難病プラットフォームに統合する作業に着手した。中央病理診断センターは分担研究者の中村 直哉、佐藤 康晴、山田壮亮、研究協力者の黒瀬 望がチームで担当し、中央病理診断の運用を評価した。

項目 3.難病における国際協調

国際キャッスルマン病研究ネットワーク（CDCN)との連携が重要であり、令和 3 年 9 月開催の第一回国際キャッスルマン病シンポジウム（令和 3 年 9 月 16-17 日、WEB、一部ライブ討論）と 10 月 15 日と令和 4 年 3 月 11 日の CDCN Scientific Advisory Board（SAB）ミーティング（WEB）での情報交換を中心に、研究を実施した。

項目 4.ガイドライン作成や患者会との協働

臨床医が TAFRO 症候群の診療に苦慮している実態が明らかで、京都大学大学院医学研究科健康情報学 中山 健夫教授に入っていただき、TAFRO 症候群に対する診療ガイドラインもしくは診療参照ガイドの作成を計画した。患者会との協働では、患者会員参加型の医療講演会を、WEB 形式での開催を計画した。

（倫理面への配慮）

厚労政策研究班が担当するキャッスルマン病における難病プラットフォーム（キャッスルマン病、TAFRO 症候群、類縁疾患の診療ガイドラインの策定や更なる改良に向けた国際的な総意形成を踏まえた調査研究【RADDAR-J[77]】）であるが、これに統合する本研究チームのレジストリ-1[新規疾患；TAFRO症候群の疾患概念確立のための多施設共同後方視的研究（UMIN000011809、承認番号 金沢医科大学E183、研究責任者正木 康史 金沢医科大学血液免疫内科学）]、レジストリ-2[キャッスルマン病/TAFRO症候群およびその関連疾患におけるバイオマーカー解析（UMIN000034188、承認番号 長崎大学病院18070916-6、研究責任者川上 純 長崎大学医歯薬学総合研究科リウマチ・膠原病内科学）]、レジストリ−3[キャッスルマン病の疫学診療実態調査に関する研究（UMIN000035088、承認番号 大阪大学医学部附属病院15431-3、研究責任者水木 満佐央 大阪大学医学部附属病院化学療法部/血液・腫瘍内科）]とAMED医師主導治験班における治験適格症例調査のレジストリ情報から情報を得た。

C．研究結果

項目 1.診療ハード（地域中核病院、中央病理診断センター、中央病態解析センター）の連携強化

項目 2.診療情報の難病プラットフォームへの登録

地域中核病院として、国際協調やガイドライン作成に必須の情報源である政策研究班の 3 つのレジストリ（レジストリ-1：研究責任者 金沢医科大学 正木

康史 UMIN000011809、承認番号 金沢医科大学 E18、レジストリ-2：研究責任者 長崎大学 川上 純 UMIN000034188、承認番号 長崎大学病院 18070916-6、レジストリ-3：研究責任者 大阪大学 水木 満佐央 UMIN000035088、承認番号 大阪大学医学部附属病院 15431-3）とレジストリ-3 を基盤として令和 3 年度に実施した AMED 医師主導治験班における治験適格症例調査の情報（トシリズマブ効果不十分の特発性多中心性キャッスルマン病に対するシロリムスの医師主導治験；課題管理番号：19lk0201104h0001）のレジストリ情報を、難病プラットフォームに統合する作業に着手した。難病プラットフォームは、キャッスルマン病、TAFRO 症候群、類縁疾患の診療ガイドラインの策定や更なる改良に向けた国際的な総意形成を踏まえた調査研究【RADDAR-J[77]】として内容は確定し、中央倫理委員会（京都大学）の承認は取得し、各施設の承認申請待ちである。それでまだ登録は 0 例であるが、登録予定である 500 例以上の症例分布と情報は既に得られており、登録する診療情報と生体試料の収集システムは構築された。すなわち、難病プラットフォームレジストリの登録症例の画像や生体試料の管理は、中央病態解析センターが担当し、RADDAR-J[77]に併設するリポジトリとして、長崎大学医歯薬学総合研究科生体試料室に設置した。中央病理診断センターは診断困難例の病理診断を担当し、6 例の実績がある。また、今までのレジストリ研究から、TAFRO 症候群と特発性多中心性キャッスルマン病[特に not otherwise specified（NOS）タイプ]の差異が明らかとなった。具体的には、中央病態解析センターにおけて、TCZ 治療前後患者血清の網羅的血清タンパク質解析から iMCD の活動性に関連するものとして Insulin-like growth factor binding protein-1（IGFBP-1）の有用性を見出し、それを ELISA で確認した。昨年度に述べたゲノム解析の成果は論文にまとめ、今年度は RNA シークエンスにおいて、NOS タイプと TAFRO タイプにおいて、遺伝子発現パターンが異なることを明らかとした。そこで、厚生労働省健康局難病対策課と意見交換（令和 3 年 10 月 9 日）も踏まえ、TAFRO 症候群を新たな指定難病としての申請を目指す方針となった。

項目 3.難病における国際協調

国際キャッスルマン病研究ネットワーク（CDCN)との連携が重要であり、令和 3 年 9 月開催の第一回国際キャッスルマン病シンポジウム（令和 3 年 9 月 16-17 日、WEB、一部ライブ討論）と 10 月 15 日と令和 4 年 3 月 11 日の CDCN Scientific Advisory Board（SAB）ミーティング（WEB）での情報交換を中心とした。AB においては、治療薬の探索、IL-6 阻害薬に効果不十分例の治療法、診断と病態評価に重要なバイオマーカーをトップ 3 とする CQ を共有した。次回の SAB は令和 4 年 6 月 10 日に WEB での開催が予定され、より具体的な活動方針が決定される計画である。

項目 4.ガイドライン作成や患者会との協働

ガイドライン作成では、京都大学大学院医学研究科健康情報学 中山 健夫教授に入っていただき、TAFRO 症候群に対する診療ガイドラインもしくは診療参照ガイドを公開する方針となった。令和 4 年 3 月 25 日に TAFRO 症候群に対する診療ガイドラインの作成に向けての WEB 会議を実施し、CQ の大筋などを確認した。患者会との協働では、患者会員参加型の医療講演会を、WEB 形式で、令和 3 年 8 月 28 日に開催し、基本的なレクチャーに加え、患者会からの患者会白書 2020 の報告コーナーを設け、患者会からの質問も積極的に受け付け、非常に好評であった。令和 3 年度には患者会からキャッスルマン病＆TAFRO 症候群患者白書 2020 が刊行されたが、この内容も診療ガイドラインに反映させる予定である。

今までのレジストリ研究から、TAFRO 症候群と特発性多中心性キャッスルマン病[特に not otherwise specified（NOS）タイプ]の差異が明らかとなった。そこで、上述のように、厚生労働省健康局難病対策課と意見交換（令和 3 年 10 月 9 日）も踏まえ、TAFRO 症候群を新たな指定難病としての申請を目指す方針となり、申請に必要な書類を準備中である。

D．考察

上述の4つの項目に関する研究で、キャッスルマン

病、TAFRO症候群、類縁疾患を包括する診療ガイドラインの作成（TAFRO症候群の診療ガイドラインを編纂する方向）、新たな指定難病としてのTAFRO症候群の申請（診療ガイドラインを編纂し準備する）、キャッスルマン病とTAFRO症候群の診療情報の難病プラットフォームへの登録（リポジトリも併設、登録は0例であるが、登録予定である500例以上の症例分布と情報は既に得られている）、キャッスルマン病患者会との協働（WEB形式での患者会員参加型の医療講演会、キャッスルマン病＆TAFRO症候群患者白書2020のガイドラインへの反映）、キャッスルマン病とTAFRO症候群の研究における国際協調と国際的なガイドラインの編纂（CDCNとのコラボレーション）が、十分に達成可能と考えられた。

E．結論

上述の4つの項目に関する研究は順調に進捗している。令和4年度も今までの方針を堅持し、難病プラットフォームへの登録を推進し、キャッスルマン病患者会と協働し（WEB形式での患者会員参加型の医療講演会を予定）、TAFRO症候群の診療ガイドラインの編纂と指定難病への申請を準備し、CDCNとのコラボレーションで国際的コンセンサスの醸成を目指す。

F．健康危険情報

特記すべき事項なし

G．研究発表

1) 論文発表

1. **Masaki Y**, Arita K, Sakai T, Takai K, **Aoki S**,Kawabata H. Castleman disease and TAFRO syndrome. Annals of Hematology. 2022; 101(3): 485-490.
2. Sumiyoshi R, **Koga T**, Furukawa K, Umeda M, Yamamoto K, Mori R, **Kawakami A**. A case of tocilizumab-refractory idiopathic multicentric Castleman's disease successfully treated with sirolimus. Clin Immunol. 2021 Dec;233:108887.
3. Endo Y, **Koga T**, Ubara Y, Sumiyoshi R, Furukawa K, **Kawakami A**. Mediterranean Fever gene variants confer susceptibility to and modify clinical phenotypes of idiopathic multicentric Castleman disease. Clin Exp Immunol. 2021 Oct; 206(1): 91-98.
4. Kawabata H, Fujimoto S, Sakai T, Yanagisawa H, Kitawaki T, Nara K, Hagihara M, Yamamoto H, Tanimizu M, Kato C, Origuchi T, Sunami K, Sunami Y, Masunari T, Nakamura N, Kobayashi M, Yamagami K, Miura K, Takai K, **Aoki S**, Tsukamoto N, **Masaki Y**. Correction to: Patient's age and D-dimer levels predict the prognosis in patients with TAFRO syndrome. Int J Hematol. 2021; 14(2): 301-302.
5. Fujimoto S, Kawabata H, Sakai T, Yanagisawa H, Nishikori M, Nara K, Ohara S, Tsukamoto N, Kurose N, **Yamada S**, Takai K, **Aoki S**, **Masaki Y**. Optimal treatments for TAFRO syndrome: a retrospective surveillance study in Japan. Int J Hematol. 2021; 113: 73-80.
6. Pierson SK, Shenoy S, Oromendia AB, Gorzewski AM, Langan Pai RA, Nabel CS, Ruth JR, Parente SAT, Arenas DJ, Guilfoyle M, Reddy M, Weinblatt M, Shadick N, Bower M, Pria AD, **Masaki Y**, Katz L, Mezey J, Beineke P, Lee D, Tendler C, Kambayashi T, Fosså A, van Rhee F, Fajgenbaum DC. Discovery and validation of a novel subgroup and therapeutic target in idiopathic multicentric Castleman disease. Blood Advances. 2021; 5(17): 3445-3456.
7. Kawabata H, Fujimoto S, Sakai T, Yanagisawa H, Kitawaki T, Nara K, Hagihara M, Yamamoto H, Tanimizu M, Kato C, Origuchi T, Sunami K, Sunami Y, Masunari T, Nakamura N, Kobayashi M, Yamagami K, Miura K, Takai K, **Aoki S**, Tsukamoto N, **Masaki Y**. Patient's age and D-dimer levels predict the prognosis in patients with TAFRO syndrome. Int J Hematol. 2021; 114(2): 179-188.
8. Shirai Y, Fukue R, **Kaneko Y**, Kuwana M. Clinical Relevance of the Serial Measurementof Krebs von den Lungen-6 Levels in Patients with Systemic Sclerosis-Associated Interstitial Lung Disease. Diagnostics (Basel). 2021 Oct;11(11): 2007.
9. Gion Y, Doi M, Nishimura Y, Ikeda T, Nishimura MF, Sakamoto M, Egusa Y, Nishikori A, Fujita A, **Iwaki N**, **Nakamura N**, Yoshino T, **Sato Y**. PD-L1 expression is associated with the spontaneous regression of patients with methotrexate-associated lymphoproliferative disorders. Cancer Med. 2021 Nov; 11(2): 417-432.
10. Nishikori A, Nishimura MF, Nishimura Y, Notohara K, Satou A, Moriyama M, Nakamura S, **Sato Y**. Investigation of IgG4-positive cells in idiopathic multicentric Castleman disease and validation of the 2020 exclusion criteria for IgG4-related disease. Pathol Int. 2021 Nov; 72(1): 43-52.
11. Nishimura MF, Nishimura Y, Nishikori A, Maekawa Y, Maehama K, Yoshino T, **Sato Y**. Clinical and pathological characteristics of hyaline-vascular type unicentric Castleman disease: a 20-year retrospective analysis. Diagnostics. 2021; 11(1): 2008.
12. Nishimura Y, Fajgenbaum DC, Pierson SK, **Iwaki N**, Nishikori A, Kawano M, **Nakamura N**, Izutsu K, Takeuchi K, Nishimura MF, Maeda Y, Otsuka F, YoshizakiK, Oksenhendler E, van Rhee F, **Sato Y**. Validated international definition of the thrombocytopenia, anasarca, fever, reticulin fibrosis, renal insufficiency, and organomegaly clinical subtype (TAFRO) of idiopathic multicentric Castleman diseas

e. Am J Hematol. 2021 Jul; 96(10): 1241-1252.
13. Tosaki T, Okabe M, Suzuki T, Shimizu A, Koike K, Tsuboi N, Kawamura T, Ohashi R, **Yano S**, Yokoo T. Membranous nephropathy with thrombotic microangiopathy-like lesions successfully treated with tocilizumab in a patient with idiopathic multicentric Castleman disease. CEN CaseRep. 2021 May;10 (2):265-272.
14. Nishikori A, Nishimura Y, Shibata R, Ohshima K, Gion Y, Ikeda T, Nishimura MF,Yoshino T,**Sato Y**. Upregulated expression of activation-induced cytidine deaminasein ocular adnexal marginal zone lymphoma with IgG4-positive cells. Int. J. Mol. Sci. 2021; 22: 4083.
15. Matsuo T, Tanaka T, **Sato Y**, Kataoka H,Uka M, Ennishi D, Yano T. Follow-up with serum IgG4-monitoring in 8 patients with IgG4-relateddisease diagnosed by a lacrimal gland mass. J Clin Exp Hematop. 2021; 61(1): 10-21.
16. Saito-Takatsuji H, Yoshitomi Y, **Ishigaki Y**, Yamamoto S, Numata N, Sakai Y, Takeuchi M, Tomosugi N, Katsuda S, Yonekura H, Ikeda T.Protective Effects of Collagen Tripeptides in Human Aortic Endothelial Cells by Restoring ROS-Induced Transcriptional Repression. Nutrients. 2021; 13(7): 2226.
17. Kawanami T, Kawanami-Iwao H, Takata T, **Ishigaki Y**, Tomosugi N, Takegami T, Yanagisawa H, Fujimoto S, Sakai T, Fujita Y, Yamada K,Mizuta S, Kawabata H, Fukushima T, Hirose Y,**Masaki Y**. Comprehensive analysis of protein-expression changes specific to immunoglobulin G4-related disease. Clin Chim Acta. 2021; 523: 45-57.
18. 正木康史, 藤本信乃, 柳澤浩人, 坂井知之, 川端浩. Castleman病の診断と治療. 血液内科. 2021; 82(1): 107-111.
19. 正木康史, 坂井知之. Castleman病とその周辺疾患. Medical Practice. 2021; 38(11): 1705-1707.

2) 学会発表

1. 中山祐樹, 水野裕基, 大庭悠貴, 井熊大輔, 山内真之, 諏訪部達也, 星野純一, 乳原善文, 澤 直樹, 河野 圭, 佐々木秀悟, 鈴木康大, 中元秀友,佐藤康晴, 大橋健一. 悪性腎硬化症様の小動脈病変を呈したTAFRO症候群の若年女性例. 第66回名古屋腎病理研究会. 口頭. 名古屋. 2021/12/5.
2. Nishimura M, Nishimura Y, Nishikori A, **Sato Y**. Pulmonary manifestations of IgG4-related disease and plasma cell type idiopathic multicentricCastleman disease: A proposal for new differential diagnostic approach. The 4th international symposium on IgG4-related disease. 口頭. 福岡.2021/12/2-12/4.
3. Nishikori A, Nishimura M, Nishimura Y, Notohara K, Satou A, Moriyama M, Nakamura S, **Sato Y**. Investigation of IgG4-positive cells in idiopathic multicentric Castleman disease and validation of the 2020 exclusion criteria for IgG4-related disease. The 4th international symposium on IgG4-related disease. 口頭. 福岡.2021/12/2-12/4.
4. 藤田 梓, 江草侑厘安, 錦織亜沙美, 祇園由佳, 吉野 正, 佐藤康晴. リンパ節細胞診におけるフローサイトメトリーの活用. 第60回日本臨床細胞学会秋期大会. 口頭. 鳥取. 2021/11/21.
5. 錦織亜沙美, 前川倖希奈, 前濱かんな, 祇園由佳, 吉野 正, 佐藤康晴. 特発性多中心性キャッスルマン病を知る. 第60回日本臨床細胞学会秋期大会. 口頭. 鳥取. 2021/11/20.
6. Yanyan Han, Igawa T, **Sato Y**, Yoshino T. Hemosiderin Deposition in Lymph Nodes of Patients with Plasma Cell Type Castleman Disease. 第67回日本病理学秋期特別総会. ポスター. 岡山. 2021/11/4.
7. 中村有香, 石垣靖人. 電子顕微鏡下におけるヒト細胞内のmRNAタンパク質構造のイメージング. 第94回日本生化学会大会. ポスター. WEB. 2021/11/3-11/5.
8. 住吉玲美, 古賀智裕, 川上 純. TAFRO型特発性多中心性castleman病におけるmTORを中心とした活性化経路の特徴. 第2回シロリムス新作用研究会. 口頭. WEB. 2021/10/23.
9. 佐藤康晴. 涙腺および唾液腺領域における IgG4関連疾患の病理学的鑑別. 第29回日本シェーグレン症候群学会学術集会. 口頭. WEB. 2021/9/25.
10. 横山あき, 黒田柚, 内山孝由, 青木定夫. Comparison of the clinical manifestations of TAFRO syndrome with and without lymphadenopathy. 第83回日本血液学会. ポスター. WEB. 2021/9/23-9/25.
11. 正木康史. Castleman病とその周辺疾患について.日本リウマチ学会中部支部学術集会第32回中部リウマチ学会. 口頭. WEB. 2021/9/17.
12. **Kawakami A**. Management of Castleman disease. The 1st International Symposium on Castleman Disease. 口頭. WEB. 2021/9/16-9/17.
13. **Koga T**. Auto-inflammatory disease-related gene variantas in patients with idiopathic multicentric Castleman disease. The 1st International Symposium on Castleman Disease. 口頭. WEB. 2021/9/16-9/17.
14. **Yano S**. Epidemiology of multicentric Castleman disease in Japan. The 1st International Symposium on Castleman Disease. 口頭. WEB. 2021/9/16.
15. **Masaki Y**. Related disease on Castleman disease ; TAFRO syndrome. The 1st International Symposium on Castleman Disease. 口頭. WEB. 2021/9/16.
16. Uchiyama T, Yokoyama A, **Aoki S**. Differencesin the pathophysiological features of TAFRO syndrome in the presence or absence of lymphadenopathy. The 1st International Symposium on Castleman Disease. ポスター. WEB. 2021/9/16.
17. Momoki M, **Yano S**. A successful treatment of cyclosporine A as second-line therapy in TAFRO syndrome with hyperbilirubinemia. The 1st International Symposium on Castleman Disease. ポスター. WEB. 2021/9/16.
18. Mizuno H, Hoshino J, **Sawa N**, Ubara Y. Histopathological Analysis of Renal Dysfunction in Castleman disease. The 1st International Symposium on Castleman Disease. ポスター. WEB. 2021/9/16.
19. Mizuno H, Hoshino J, **Sawa N**, Ubara Y. Analysis of clinicopathological changes of renal dysfunction due to TAFRO syndrome. The 1st International Symposium on Castleman Disease. ポスター. WEB. 2021/9/16.
20. 錦織亜沙美, 西村 碧, フィリーズ, 西村義人, 祇園由佳, 佐藤康晴, 吉野 正. 抗カルジオリピン抗

体陽性であったTAFRO症状を呈するリンパ節病変の3症例. 第61回日本リンパ網内系学会総会. ポスター. 岡山. 2021/6/24-6/26.

21. 西村 碧, フィリーズ, 井川卓朗, 西村義人, 吉野正, 佐藤康晴. 形質細胞型特発性多中心性キャッスルマン病およびIgG4関連疾患における肺病変の臨床組織学的検討. 第61回日本リンパ網内系学会総会. 口頭. 岡山. 2021/6/24-6/26.
22. Sumiyoshi R, **Koga T**, **Kawakami A**. Serum proteomics reveals insulin-like growth factor binding proteins-1 as biomarkers for idiopathic multicentric castleman,s disease. European E‐Congress of Rheumatology. ポスター. WEB. 2021/6/2-6/5.

3) 書籍

1. 古賀智裕, 住吉玲美, 川上 純. キャッスルマン病の病因・病態. キャッスルマン病, TAFRO症候群. フジメディカル出版. P13-19. 2022年.
2. 水木満佐央. キャッスルマン病の疫学, 発生率, 統計的事項 1)全国調査. キャッスルマン病, TAFRO症候群. フジメディカル出版. P20-24. 2022年.
3. 正木康史, 川端 浩, 川野充弘, 岩城憲子, 鈴木律朗. キャッスルマン病の疫学, 発生率, 統計的事項 2)定点観測（石川県）. キャッスルマン病, TAFRO症候群. フジメディカル出版. P25-28. 2022年.
4. 佐藤康晴. キャッスルマン病の病理. キャッスルマン病, TAFRO症候群. フジメディカル出版. P29-35. 2022年.
5. 正木康史, 黒瀬 望, 川端 浩. キャッスルマン病の関連疾患 4)その他の疾患 腫瘍, 膠原病. キャッスルマン病, TAFRO症候群. フジメディカル出版. P134-141. 2022年.
6. 青木定夫. TAFRO症候群の定義, 概念. キャッスルマン病, TAFRO症候群. フジメディカル出版. P144-149. 2022年.
7. 石垣靖人, 中村有香. TARFO症候群の病因解明に向けて. キャッスルマン病, TAFRO症候群. フジメディカル出版. P150-154. 2022年.
8. 黒瀬 望, 山田壮亮. TAFRO症候群の病理-リンパ節病変-. キャッスルマン病, TAFRO症候群. フジメディカル出版. P155-159. 2022年.
9. 黒瀬 望, 山田壮亮. TAFRO症候群の検査成績 2)リンパ節外病変 ①TAFRO症候群の病理-骨髄病変-. キャッスルマン病, TAFRO症候群. フジメディカル出版. P168-170. 2022年.
10. 古賀智裕, 住吉玲美, 川上 純. キャッスルマン病およびTAFRO症候群の病因・病態探索に向けた試み. キャッスルマン病, TAFRO症候群. フジメディカル出版. P212-216. 2022年.
11. 矢野真吾. 本邦のキャッスルマン病の診療体制. キャッスルマン病, TAFRO症候群. フジメディカル出版. P221-225. 2022年.
12. 井出 眞. 国際キャッスルマン病研究組織(CDCN). キャッスルマン病, TAFRO症候群. フジメディカル出版. P226-231. 2022年.
13. 正木康史, 上田祐輔, 柳澤浩人, 在田幸太郎,坂井知之. XI. 縦隔疾患Castleman病. 別冊 日本臨床 領域別症候群シリーズNo.21呼吸器症候群（第３版）―その他の呼吸器疾患を含めて―. 日本臨床社. p195-198. 2021年.
14. 佐藤康晴. 第Ⅱ編・第13章・造血器・リンパ組織. 細胞診鑑別 アトラス. 医歯薬 出版. xiii, p410. 2021年6月.

H．知的財産権の出願・登録状況
（予定を含む。）

1. 特許取得
なし

2. 実用新案登録
なし

3.その他
なし