様　式　Ｃ－１９、Ｆ－１９－１、Ｚ－１９　（共通）

科学研究費助成事業　　研究成果報告書

令和　２ 年　 ５ 月 ２５ 日現在

機関番号：３２６５３
研究種目：基盤研究(C)（一般）
研究期間：2016～2019
課題番号：１６Ｋ１００４１

研究課題名（和文）ミトコンドリア選択的オートファジー障害による先天性溶血性貧血の病態解析

研究課題名（英文）Pathological analysis of congenital hemolytic anemia due to mitochondrial selective autophagy disorder

研究代表者
菅野　仁（KANNO, HITOSHI）

東京女子医科大学・医学部・教授

研究者番号：７０２２１２０７

交付決定額（研究期間全体）：（直接経費）　　3,700,000円

研究成果の概要（和文）：2015-2019年の4年間に合計255例の原因未確定の溶血性貧血症例を解析した。その結果、188例（73.7%）に病型を診断し得た。病型別では、遺伝性球状赤血球症（HS)が最も多く、二番目は脱水型遺伝性有口赤血球症（DHSt）であった。定量的赤血球浸透圧抵抗試験(FCM-OF)がDHStのスクリーニング検査として有用であることを示した。
KLF1-CDA患者由来赤芽球は、正常対照と比べてγグロビン遺伝子発現が上昇、4.2タンパク遺伝子の発現低下が著明であり、KLF1遺伝子変異はヘモグロビンスイッチングの障害、赤血球膜骨格の不安定化などの複合要因により無効造血を引き起こしていることが示唆された。

研究成果の学術的意義や社会的意義
ヒト赤芽球の分化障害（無効造血）や成熟赤血球の早期細胞死（溶血）により様々な先天性貧血が発症する。我々は赤血球膜・酵素・ヘモグロビンなどの異常により発症する先天性溶血性貧血の病因解析を実施し、その74%に病因を確定出来た。本研究では無効造血や溶血の病因解析のための網羅的遺伝子解析システムを構築し、患者iPS細胞から分化した赤芽球を用いた病因解析を実施した。脱水型遺伝性有口赤血球症(DHSt)が遺伝性球状赤血球症に次いで頻度の高い先天性溶血性貧血であることを明らかにし、迅速診断法としてフローサイトメトリーを用いた定量的赤血球浸透圧脆弱性試験（FCM-OF）が有用であることを示した。

研究成果の概要（英文）：A total of 255 cases of hemolytic anemia with undetermined causes were analyzed during the four years from 2015-2019. As a result, the disease type could be diagnosed in 188 cases (73.7%). Hereditary spherocytosis (HS) was the most common type, and dehydrated hereditary stomatocytosis (DHSt) was the second. The quantitative flow-cytometric osmotic fragility test (FCM-OF) was shown to be useful as a screening test for DHSt.
In erythroblasts derived from KLF1-CDA patients, the expression of γ-globin gene was significantly increased and the expression of 4.2 protein gene was also markedly decreased in comparison with the normal control. It was suggested that ineffective erythropoiesis was caused by multiple factors responsible for hemoglobin switching and erythrocyte cytoskeleton formation.

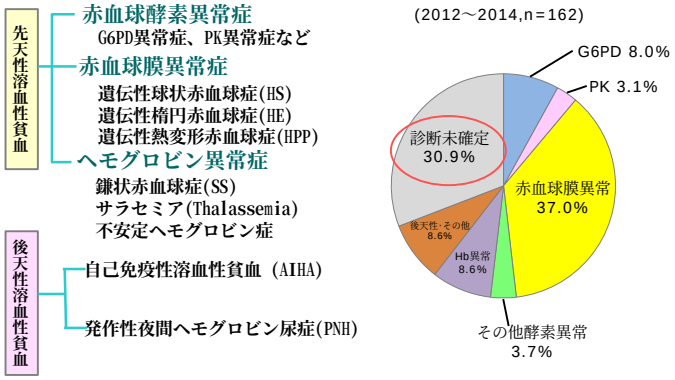
研究分野：遺伝医学

キーワード：溶血性貧血　無効造血

※科研費による研究は、研究者の自覚と責任において実施するものです。そのため、研究の実施や研究成果の公表等については、国の要請等に基づくものではなく、その研究成果に関する見解や責任は、研究者個人に帰属されます。

様　式　C－１９、F－１９－１、Z－１９（共通）

１．研究開始当初の背景



先天性溶血性貧血は主として赤血球膜、酵素およびヘモグロビンの構造異常によって生じる単一遺伝子病である。私たちは赤血球膜表面積の定量（EMA <eosin 5'-maleimide> 結合能)、赤血球浸透圧抵抗性試験（AGLT<acidified glycerol lysis time>)、赤血球酵素活性 15 種の測定、および不安定ヘモグロビンの検出（イソプロパノール不安定性試験）などを用いた溶血性貧血関連特殊検査により先天性溶血性貧血の病型診断を実施してきた。本研究開始前の 2012～2014 年の三年間で解析した 162 例の結果では、上図の通り約 30%が診断未確定になっており、診断率の向上が喫緊の課題であった。

2．研究の目的

1）　先天性溶血性貧血の病型診断率を向上するため、ミトファジー関連遺伝子 10 種を含む溶血性貧血関連遺伝子 74 種を標的とした網羅的遺伝子変異解析を導入した。

2）脱水型遺伝性有口赤血球症のスクリーニング方法として、フローサイトメトリーを用いた定量的赤血球浸透圧脆弱性試験（FCM-OF）が有用か否かを検討した。

3）　*KLF1* 変異による CDA 患者末梢血から iPS 細胞を樹立し、*KLF1* 遺伝子変異が赤芽球分化に与える影響を検討した。

3．研究の方法

1）先天性溶血性貧血症例の生化学的解析および網羅的遺伝子変異解析

溶血性貧血関連74遺伝子パネル

1	ADA	20	SPTA1	39	TFR2	58	PIGA
2	ALDOA	21	SPTB	40	SLC40A1	59	UGT1A1
3	AK1	22	ANK1	41	FTH1	60	ABCG8
4	ENO1	23	GYPC	42	ADAMTS13	61	ATP7A
5	G6PD	24	EPB41	43	C3	62	ATP7B
6	GPI	25	STOM	44	CD46	63	GATA1
7	GPX1	26	RHAG	45	CFH	64	ADORA2B
8	GSR	27	PIEZO1	46	CFI	65	ULK1
9	GSS	28	SLC2A1	47	CFHR1	66	BECN1
10	GCLC	29	KCNN4	48	CFHR3	67	PIK3C3
11	HK1	30	ABCG5	49	CFB	68	AMBRA1
12	NT5C3A	31	SEC23B	50	THBD	69	PRKAA1
13	PFKM	32	CDAN1	51	CFHR2	70	ATG9A
14	PGD	33	C15orf41	52	CFHR4	71	TBC1D5
15	PGK1	34	KLF1	53	CFHR5	72	BNIP3L
16	PKLR	35	KIF23	54	DGKE	73	BNIP3
17	TPI1	36	HFE	55	PLG	74	FUNDC1
18	EPB42	37	HFE2	56	ATP11C		
19	SLC4A1	38	HAMP	57	COL4A1		

1-17: 酵素、18-30: 膜、31-35: CDA、36-41: ヘモクロマトーシス
42: TTP、43-55: atypical HUS、56-62: その他、64-74: ミトファジー

免疫学的機序による溶血が否定された症例に関して、赤血球形態観察、赤血球酵素活性（15 種）測定、赤血球還元型グルタチオン定量、EMA 結合能測定、AGLT、イソプロパノール不安定性試験および Hb 分画・等電点電気泳動を実施し、赤血球酵素異常症・膜異常症・不安定 Hb 症の病因を検索した。

上記のスクリーニング検査で変異を同定出来なかった症例に対して、インフォームドコンセントを取得後、ミトファジー関連遺伝子 10 種(ULK1、BECN1、PIC3C3、AMBRA1、PRKAA1、ATG9A、TBC1D5、NIX 、BNIP3、FUNDC1）を含めた合計 74 種の溶血性貧血関連遺伝子パネルを用いた Target-captured sequencing（TCS）解析を実施した。具体的には患者ゲノム DNA を末梢血白血球より精製し、HaloPlex システムによりターゲット遺伝子領域を濃縮した上で、次世代シークエンシングを行った。得られたデータはソフトウェア SureCall で解析した。

2）　脱水型遺伝性有口赤血球症の迅速診断法開発

我々は口唇赤血球症の一型である脱水型遺伝性有口赤血球症（dehydrated hereditary stomatocytosis; DHSt）の迅速診断法としてフローサイトメトリーによる定量的赤血球浸透圧脆弱性試験（FCM-OF）が有用か否かを検討した。

3）　iPS 細胞から分化誘導した赤芽球系細胞を用いた遺伝性貧血症の病態解析

赤芽球分化過程に溶血性貧血関連遺伝子の発現変動を検討するため、iPS 細胞を用いた分化誘導系を確立した。末梢血単核球 より抗 CD3 抗体および IL-2 存在下で増幅した T リンパ球にセンダイウイルスを用いてリプログラミング 4 因子を導入した。得られた iPS 細胞の品質評価のために、フローサイトメトリー解析および免疫蛍光染色により多能性マーカー発現を実施した。

iPS 細胞の赤芽球への分化誘導は、次のように 2 段階の方法で行った。① 胚様体形成法により CD34 陽性未分化造血細胞を分化誘導した 。② 分離した CD34 陽性細胞をサイトカインの存在下でさらに培養し、CD235a 陽性細胞を得た。CD235a 陽性細胞の発現遺伝子を SurePrint 3G

Human GE マイクロアレイ（アジレント社）で検出し、GeneSpring GX 14.5 ソフトウェアを用いて解析した。

4. 研究成果

1）先天性溶血性貧血の病型別頻度

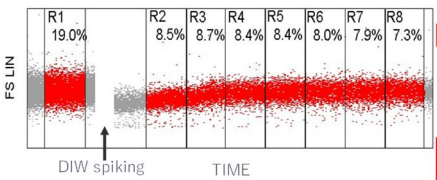
2016～2019 の 4 年間で検討した先天性溶血性貧血症例の病型別症例数を表に示す。

		2016	2017	2018	2019	合計	病型別頻度
酵素異常症	G6PD	5	4	2	4	15	8.0%
	PK	0	0	0	3	3	1.6%
	GPI	0	1	1	0	2	1.1%
	その他	2	0	0	0	2	1.1%
膜異常	HS	30	17	24	23	94	50.0%
	HE	6	0	2	2	10	5.3%
	HPP	1	0	0	0	1	0.5%
	HSt	4	7	5	7	23	12.2%
	その他	4	3	1	4	12	6.4%
Hb異常症		5	3	3	0	11	5.9%
CDA		0	0	0	0	0	0.0%
酵素･Hb複合異常		1	0	0	0	1	0.5%
酵素･膜複合異常		0	1	1	1	3	1.6%
その他		2	5	1	3	11	5.9%
診断未確定		20	16	13	18	67	26.3%
合計		80	57	53	65	255	

G6PD：グルコース-6-リン酸脱水素酵素欠乏症
PK：ピルビン酸キナーゼ欠乏性貧血
GPI：グルコースリン酸イソメラーゼ異常症
HS:遺伝性球状赤血球症
HE：遺伝性楕円赤血球症
HPP：遺伝性熱変形赤血球症
HSt：遺伝性有口赤血球症
Hb 異常症:不安定ヘモグロビン症、サラセミア
CDA：先天性赤血球形成異常性貧血

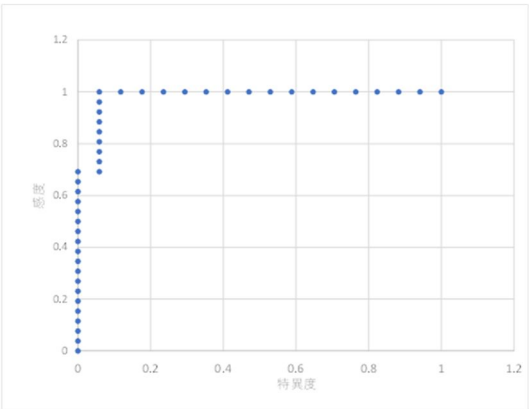
2015～2019 年の 4 年間に合計 255 例の原因未確定の溶血性貧血症例を解析し､188 例(73.7%)に病型を推定し得た（上表)。病因別では、赤血球膜異常症は 140 例（原因確定例の 74.5%)、赤血球酵素異常症 22 例（同 11.7%)、ヘモグロビン異常症 11 例（同 5.9%)、その他が 15 例（同 8.0%）であった。病型別では、遺伝性球状赤血球症 (HS)が最も多く、病因確定例の 50.0%を占め、二番目は脱水型遺伝性有口赤血球症（DHSt）の 12.2%であった。DHSt は軽症～中等症の慢性溶血性貧血と赤血球輸血非依存性の鉄過剰症が特徴的で、赤血球形態、赤血球膜表面積・赤血球浸透圧脆弱性の定量および溶血性貧血関連遺伝子パネルを用いた TCS 解析で診断が可能であるが、TCS 解析は時間が掛かり、より迅速なスクリーニング検査が必要と考えられた。

2）FCM-OF による DHSt 迅速診断法の確立



Region	Number	X-Mean	Y-Mean
R1	13557	94.9	426.1
R2	6061	352.3	360.4
R3	6182	450.1	390.5
R4	5974	549.9	409.7
R5	5962	650.8	414.6
R6	5684	752.4	416.0
R7	5625	852.0	417.5
R8	5223	951.0	419.3

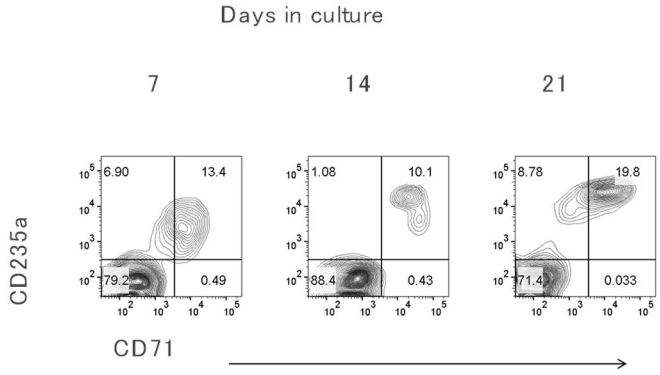
従来、低浸透圧溶液の希釈系列に赤血球を加えて、一定時間後の遠心上清の吸光度を測定することで、赤血球浸透圧脆弱性（OF）が示されていたが、低浸透圧条件下における残存赤血球数をフローサイトメーターで測定する定量的浸透圧脆弱性試験(FCM-OF)は 2009 年に発表され、遺伝性球状赤血球症(HS)、遺伝性楕円赤血球症(DHSt)の診断に応用されてきた。



今回 DHSt 症例に対して FCM-OF における残存赤血球率(%RRC*)を正常対照と比較したところ、左の ROC 曲線で示すように､p-value= 0.004662、AUC=0.9819、Cut-off 値 87.7～98.4 と有意な結果を得たため､FCM-OF が DHSt のスクリーニング検査として有用であることを明らかに出来た。

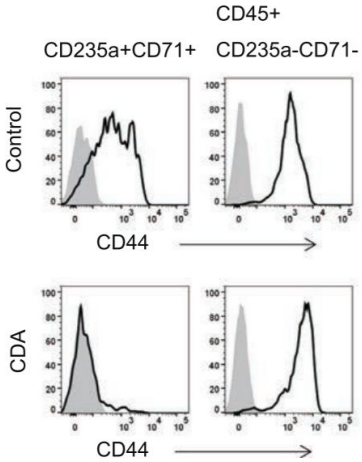
%RRC=(R7+R8)1/2/R1×1.2/2×100

3）ヒト iPS 細胞からの赤芽球分化と赤血球系細胞に発現する遺伝子の発現解析



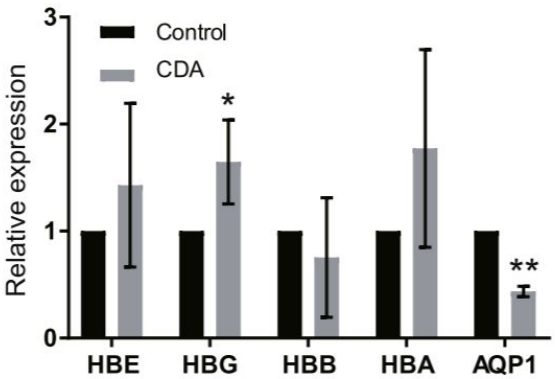
In vitro で iPS 細胞から胚様体形成を経て分化誘導した赤芽球系細胞のフローサイトメトリー解析結果を左図に示す。赤血球増幅用サプリメント含有培地で 21 日目には約 20%の CD235a(+)/CD71(+)の赤芽球を得た。

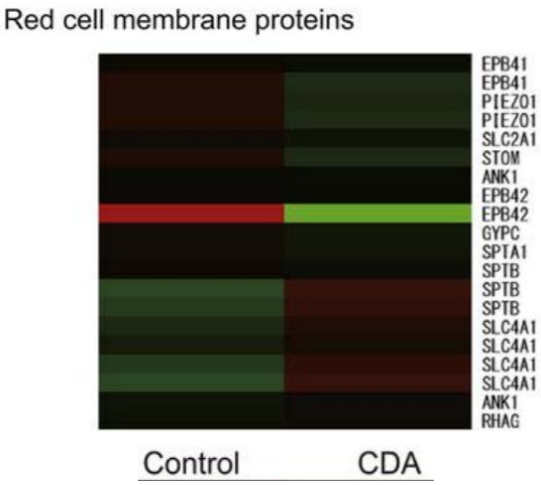
この 21 日目の培養細胞を用いてマイクロアレイ解析を実施したところ、有意の発現を確認出来たミトファジー関連遺伝子は、AMBRA1、BNIP3L、FUNDC1 および TBC1D5 の 4 種のみであった。



KLF1 遺伝子変異を有する iPS 細胞由来赤芽球の解析では、KLF1 異常による CDA 患者由来赤血球と同様に、CD44 の発現が CD235a/CD71 二重陽性細胞で認められなかった（左図）。

KLF1-CDA 患者由来の赤芽球では、正常対照と比べてγグロビン遺伝子(HBG)発現が有意に上昇していることが定量的 RT-PCR 法にて確認できた（右図）。





マイクロアレイを用いた iPS 細胞由来赤芽球の遺伝子発現解析では、赤血球膜骨格における重要なアンカータンパクである 4.2 タンパク遺伝子（*EPB42*）の発現低下が著明であった。

その他、グルタチオン還元酵素、解糖系のグルコースリン酸イソメラーゼ、および ATPase リン脂質輸送 8A1(ATP8A1)の発現低下も認められた。以上より、KLF1 遺伝子変異による CDA では胎児型から成体型へのヘモグロビンスイッチングの障害、赤血球膜骨格の不安定化、還元型グルタチオンの低下による細胞内酸化ストレスの増加、さらには解糖系障害による ATP 産生障害などの複合要因により赤芽球／赤血球の寿命短縮が生じていることが示唆された。

５．主な発表論文等

〔雑誌論文〕　計34件（うち査読付論文　31件／うち国際共著　6件／うちオープンアクセス　14件）

１．著者名 Kamatani Naoyuki、Furihata Kenichi、Taniguchi Atsuo、Fukuuchi Tomoko、Yamaoka Noriko、Kaneko Kiyoko、Kanno Hitoshi	４．巻 42
２．論文標題 In vitro enhancement of ATP in human erythrocytes from a healthy subject and two patients with thalassemia and hemoglobinopathy.	５．発行年 2018年
３．雑誌名 GOUT AND NUCLEIC ACID METABOLISM	６．最初と最後の頁 59～64
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） https://doi.org/10.6032/gnam.42.59	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 －

１．著者名 Sonoda Motoshi、Ishimura Masataka、Ichimiya Yuko、Terashi Eiko、Eguchi Katsuhide、Sakai Yasunari、Takada Hidetoshi、Hama Asahito、Kanno Hitoshi、Toki Tsutomu、Ito Etsuro、Ohga Shouichi	４．巻 108
２．論文標題 Atypical erythroblastosis in a patient with Diamond?Blackfan anemia who developed del(20q) myelodysplasia	５．発行年 2018年
３．雑誌名 International Journal of Hematology	６．最初と最後の頁 228～231
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） 10.1007/s12185-018-2424-4	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 －

１．著者名 Toki Tsutomu、Yoshida Kenichi、Wang RuNan、Okuno Yusuke、Kataoka Keisuke、Shiraishi Yuichi、Ohga Shouichi、Kuramitsu Madoka、Hamaguchi Isao、Ohara Akira、Kanno Hitoshi、Miyano Satoru、Kojima Seiji、Ishiguro Akira、Sugita Kanji、Kenmochi Naoya、Takahashi Satoru、Eto Koji、Ogawa Seishi、Ito Etsuro	４．巻 103
２．論文標題 De Novo Mutations Activating Germline TP53 in an Inherited Bone-Marrow-Failure Syndrome	５．発行年 2018年
３．雑誌名 The American Journal of Human Genetics	６．最初と最後の頁 440～447
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） 10.1016/j.ajhg.2018.07.020	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 －

１．著者名 Paola Bianchi, Elisa Fermo, Bertil Glader, Hitoshi Kanno, Archana Agarwal, Wilma Barcellini, Stefan Eber, James D. Hoyer, David J. Kuter, Serge Pissard, Eduard van Beers, Patrick G. Gallagher, David C. Rees, Richard van Wijk	４．巻 94
２．論文標題 Addressing the diagnostic gaps in pyruvate kinase deficiency: Consensus recommendations on the diagnosis of pyruvate kinase deficiency	５．発行年 2018年
３．雑誌名 American Journal of Hematology	６．最初と最後の頁 149～161
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） 10.1002/ajh.25325	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている（また、その予定である）	国際共著 該当する

1．著者名 Hamada Motoharu、Doisaki Sayoko、Okuno Yusuke、Muramatsu Hideki、Hama Asahito、Kawashima Nozomu、Narita Atsushi、Nishio Nobuhiro、Yoshida Kenichi、Kanno Hitoshi、Manabe Atsushi、Taga Takashi、Takahashi Yoshiyuki、Miyano Satoru、Ogawa Seishi、Kojima Seiji	4．巻 108
2．論文標題 Whole-exome analysis to detect congenital hemolytic anemia mimicking congenital dyserythropoietic anemia	5．発行年 2018年
3．雑誌名 International Journal of Hematology	6．最初と最後の頁 306～311
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） 10.1007/s12185-018-2482-7	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 －

1．著者名 Van Straaten Stephanie、Bierings Marc、Bianchi Paola、Kanno Hitoshi、Smiers Frans、Raymakers Reinier、Yanez Lucrecia、Sevilla Julian、van Solinge Wouter、Segovia Jose Carlos、van Wijk Richard	4．巻 103
2．論文標題 Worldwide study of hematopoietic allogeneic stem cell transplantation in pyruvate kinase deficiency	5．発行年 2018年
3．雑誌名 Haematologica	6．最初と最後の頁 e82～e86
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） 10.3324/haematol.2017.177857	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている（また、その予定である）	国際共著 該当する

1．著者名 Kamio Hidenori、Uchiyama Toshitaka、Kanno Hitoshi、Onoe Yoshiko、Saito Kayoko、Kameoka Shingo、Kamio Takako、Okamoto Takahiro	4．巻 -
2．論文標題 Association between SLCO1B1 rs4149056 and tegafur?uracil-induced hepatic dysfunction in breast cancer	5．発行年 2019年
3．雑誌名 Pharmacogenomics	6．最初と最後の頁 -
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） 10.2217/pgs-2018-0100	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている（また、その予定である）	国際共著 －

1．著者名 Kohara Hiroshi、Utsugisawa Taiju、Sakamoto Chika、Hirose Lisa、Ogawa Yoshie、Ogura Hiromi、Sugawara Ai、Liao Jiyuan、Aoki Takako、Asai Takayoshi、Doisaki Sayoko、Okuno Yusuke、Muramatsu Hideki、Ohga Shouichi、Yoshida Kenichi、Ogawa Seishi、Ito Etsuro、Kojima Seiji、Kanno Hitoshi、Tani Kenzaburo	4．巻 -
2．論文標題 KLF1 mutation E325K induces cell cycle arrest in erythroid cells differentiated from congenital dyserythropoietic anemia patient-specific induced pluripotent stem cells	5．発行年 2019年
3．雑誌名 Experimental Hematology	6．最初と最後の頁 -
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） 10.1016/j.exphem.2019.03.001	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 －

1．著者名 井島廣子、古賀正史、杉山正悟、小倉浩美、菅野 仁、陣内秀昭	4．巻 46
2．論文標題 HbA1cが偽低値をしめしたエノラーゼ、異常症合併2型糖尿病の1例	5．発行年 2018年
3．雑誌名 Diabetes Journal	6．最初と最後の頁 30～34
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） なし	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 －

1．著者名 Utsugisawa Taiju、Kobayashi Ryosuke、Isoai Ayako、Onodera Hirokazu、Matsuno Yoshihiro、Kato Michio、Kanno Hitoshi	4．巻 64
2．論文標題 EFFICACY OF CELL-FREE AND CONCENTRATED ASCITES FOR AUTOLOGOUS ALBUMIN PRODUCTS	5．発行年 2018年
3．雑誌名 Japanese Journal of Transfusion and Cell Therapy	6．最初と最後の頁 631～640
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） https://doi.org/10.3925/jjtc.64.631	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 －

1．著者名 小倉 浩美、菅野 仁	4．巻 28
2．論文標題 血球酵素とその異常．特集 赤血球造血のメカニズムとその異常－最近の進歩－	5．発行年 2018年
3．雑誌名 血液フロンティア	6．最初と最後の頁 1333-1341
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） なし	査読の有無 無
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 －

1．著者名 小倉　浩美、菅野　仁	4．巻 49
2．論文標題 特集　新生児黄疸を再び考える　各論　先天性溶血性疾患	5．発行年 2019年
3．雑誌名 周産期医学	6．最初と最後の頁 211～216
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） なし	査読の有無 無
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 －

1．著者名 西本瑛里、西久保敏也、釜本智之、石原卓、山口直子、菅野　仁、高橋幸博	4．巻 26
2．論文標題 マイクロプレート法による赤血球浸透圧抵抗試験とeosin-5-maleimideを用いた赤血球膜band3定量法が診断に有用であった新生児期に重症黄疸を発症した赤血球膜蛋白異常症の1例	5．発行年 2017年
3．雑誌名 日本産婦人科・新生児血液学会誌	6．最初と最後の頁 71-76
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） なし	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 －

1．著者名 Matsumaru S, Oguni H, Ogura H, Shimojima K, Nagata S, Kanno H, Yamamoto T	4．巻 6
2．論文標題 A novel PGK1 mutation associated with neurological dysfunction and the absence of episodes of hemolytic anemia or myoglobinuria	5．発行年 2017年
3．雑誌名 Intractable Rare Diseases Research	6．最初と最後の頁 132-136
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） 10.5582/irdr.2017.01020.	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている（また、その予定である）	国際共著 －

1．著者名 槍澤　大樹、菅野　仁	4．巻 87
2．論文標題 循環系の基礎と臨床（２）血管新生	5．発行年 2017年
3．雑誌名 東京女子医科大学雑誌	6．最初と最後の頁 5-12
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） なし	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 －

1．著者名 小倉　浩美、菅野　仁	4．巻 75
2．論文標題 貧血学-最新の診断・治療動向-V溶血性貧血　赤血球酵素異常症・不安定ヘモグロビン症	5．発行年 2017年
3．雑誌名 日本臨床	6．最初と最後の頁 472-477
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） なし	査読の有無 無
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 －

1．著者名 Ikeda Fumika、Yoshida Kenichi、Okuno Yusuke、Shiraishi Yuichi、Tanaka Hiroko、Chiba Kenichi、Muramatsu Hideki、Kanno Hitoshi、Ohga Shouichi、Ohara Akira、Kojima Seiji、Kenmochi Naoya、Miyano Satoru、Ogawa Seishi、Ito Etsuro	4．巻 102
2．論文標題 Exome sequencing identified RPS15A as a novel causative gene for Diamond-Blackfan anemia	5．発行年 2017年
3．雑誌名 Haematologica	6．最初と最後の頁 e93-e96
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） 10.3324/Haematol.2016.153932	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている（また、その予定である）	国際共著 －

1．著者名 Noguchi Jun、Kanno Hitoshi、Chiba Yuta、Ito Etsuro、Ishiguro Akira	4．巻 59
2．論文標題 Discrimination of Diamond-Blackfan anemia from parvovirus B19 infection by RBC glutathione	5．発行年 2017年
3．雑誌名 Pediatrics International	6．最初と最後の頁 838-840
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） 10.1111/ped.13284	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている（また、その予定である）	国際共著 －

1．著者名 Satoshi Sakaue, Takashi Kasai, Ikuko Mizuta, Masaya Suematsu, Shinya Osone, Yumiko Azuma, Toshihiko Imamura, Takahiko Tokuda, Hitoshi Kanno, Omar M.A. El-Agnaf, Masafumi Morimoto, Masanori Nakagawa, Hajime Hosoi and Toshiki Mizuno	4．巻 31
2．論文標題 Early-onset parkinsonism in a pedigree with phosphoglycerate kinase deficiency and a heterozygous carrier: do PGK-1 mutation contribute to vulnerability to parkinsonism?	5．発行年 2017年
3．雑誌名 NPJ Parkinsons Disease	6．最初と最後の頁 -
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） 10.1038/as41531-017-0014-4	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている（また、その予定である）	国際共著 －

1．著者名 小笠原 壽恵、川内 喜代隆、森 直樹、佐倉 宏、加藤 文代、菅野 仁、伊藤 悦朗	4．巻 58
2．論文標題 低用量prednisoloneで長期管理が可能であったDiamond-Blackfan anemiaの成人移行例	5．発行年 2017年
3．雑誌名 臨床血液	6．最初と最後の頁 917-921
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） 10.11406/rinketsu.58.917	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 －

1．著者名 Niizuma Hidetaka、Kanno Hitoshi、Sato Atsushi、Ogura Hiromi、Imaizumi Masue	4．巻 59
2．論文標題 Splenectomy resolves hemolytic anemia caused by adenylate kinase deficiency	5．発行年 2017年
3．雑誌名 Pediatr Int	6．最初と最後の頁 228-230
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） 10.1111/ped.13166	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている（また、その予定である）	国際共著 －

1．著者名 Muramatsu Hideki、Okuno Yusuke、Yoshida Kenichi、Kanno Hitoshi、Yamaguchi Hiroki、Ohga Shouichi、Manabe Atsushi、Harigae Hideo、Kunishima Shinji、Ishii Eiichi、Kobayashi Masao、Koike Kenichi、Watanabe Kenichiro、Ito Etsuro、Takata Minoru、Yabe Miharu、Ogawa Seishi、Miyano Satoru、Kojima Seiji	4．巻 19
2．論文標題 Clinical utility of next-generation sequencing for inherited bone marrow failure syndromes	5．発行年 2017年
3．雑誌名 Genetics in Medicine	6．最初と最後の頁 796-802
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） 10.1038/gim.2016.197	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている（また、その予定である）	国際共著 －

1．著者名 Ichimura Takuya、Yoshida Kenichi、Okuno Yusuke、Yujiri Toshiaki、Nagai Kozo、Nishi Masanori、Shiraishi Yuichi、Ueno Hiroo、Toki Tsutomu、Chiba Kenichi、Tanaka Hiroko、Muramatsu Hideki、Hara Toshiro、Kanno Hitoshi、Kojima Seiji、Miyano Satoru、Ito Etsuro、Ogawa Seishi、Ohga Shouichi	4．巻 105
2．論文標題 Diagnostic challenge of Diamond?Blackfan anemia in mothers and children by whole-exome sequencing	5．発行年 2017年
3．雑誌名 International Journal of Hematology	6．最初と最後の頁 515-520
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） 10.1007/s12185-016-2151-7	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている（また、その予定である）	国際共著 －

1．著者名 Sonoda Motoshi、Ishimura Masataka、Ichimiya Yuko、Terashi Eiko、Eguchi Katsuhide、Sakai Yasunari、Takada Hidetoshi、Hama Asahito、Kanno Hitoshi、Toki Tsutomu、Ito Etsuro、Ohga Shouichi	4．巻 -
2．論文標題 Atypical erythroblastosis in a patient with Diamond?Blackfan anemia who developed del(20q) myelodysplasia	5．発行年 2018年
3．雑誌名 International Journal of Hematology	6．最初と最後の頁 -
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） 10.1007/s12185-018-2424-4	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている（また、その予定である）	国際共著 －

1．著者名 van Straaten Stephanie、Bierings Marc、Bianchi Paola、Smiers Frans、Raymakers Reinier、Yanez Lucrecia、Sevilla Julian、van Solinge Wouter、Segovia Jose Carlos、van Wijk Richard	4．巻 103
2．論文標題 Worldwide study of hematopoietic allogeneic stem cell transplantation in pyruvate kinase deficiency	5．発行年 2017年
3．雑誌名 Haematologica	6．最初と最後の頁 e82-e86
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） 10.3324/Haematol.2017.177857	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている（また、その予定である）	国際共著 該当する

1．著者名 大賀　正一、石村　匡崇、槍澤　大樹、菅野　仁	4．巻 27
2．論文標題 新生児の遺伝性溶血性貧血～疾患概念の拡張～	5．発行年 2018年
3．雑誌名 日本産婦人科・新生児血液学会誌	6．最初と最後の頁 41-47
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） なし	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 －

1．著者名 中林 恭子，松田 和樹，小林 博人，小野 慎吾，岩﨑 拓也，久保田 友晶，守屋 友美，緒方 康貴，及川 美幸，木下 明美，青木 貴子，千野 峰子，岡田 真一，高源 ゆみ，青木 正弘，岡本 好雄，今野 マユミ，槍澤 大樹，小倉 浩美，菅野 仁	4．巻 64
2．論文標題 東京女子医科大学病院における静注用免疫グロブリン（IVIG）製剤の使用状況について	5．発行年 2018年
3．雑誌名 日本輸血細胞治療学会誌	6．最初と最後の頁 21-27
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） 10.3925/jjtc.64.21	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 －

1．著者名 Utsugisawa T, Uchiyama T, Toki T,Ogura H, Aoki T, Hamaguchi I, Ishiguro A, Ohara A, Kojima S, Ohga S, Ito E, Kanno H.	4．巻 59
2．論文標題 Erythrocyte glutathione is a novel biomarker of Diamond-Blackfan anemia.	5．発行年 2016年
3．雑誌名 Blood Cells, Molecules and Diseases	6．最初と最後の頁 31-36
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） 10.1016/j.bcmd.2016.03.007	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 －

1．著者名 Ichimura T, Yoshida K, Okuno Y, Yujiri T, Nagai K, Nishi M, Shiraishi Y, Ueno H, Toki T, Chiba K, Tanaka H, Muramatsu H, Hara T, Kanno H, Kojima S, Miyano S, Ito E, Ogawa S, Ohga S	4．巻 105
2．論文標題 Diagnostic challenge of Diamond-Blackfan anemia in mothers and children by whole-exome sequencing	5．発行年 2017年
3．雑誌名 Int J Hematol.	6．最初と最後の頁 515-520
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） 101007/s12185-016-2151-7	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 －

1．著者名 Imashuku S,Muramatsu H,Sugihara T,Okuno Y,Wang X,Yoshida K,Kato A,Kato K,Tatsumi Y,Hattori A,Kita S,Oe K,Sueyoshi A,Usui T,Shiraishi Y,Chiba K,Tanaka H,Miyano S,Ogawa S,Kojima S,Kanno H	4．巻 104
2．論文標題 PIEZO1 gene mutation in a Japanese family with hereditary high phosphatidylcholine hemolytic anemia and hemochtomatosis-induced diabetes mellitus	5．発行年 2016年
3．雑誌名 Int J Hematol	6．最初と最後の頁 125-129
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） 10.1007/s12185-016-1970-x	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 該当する

1．著者名 Ikeda F,Toki T,Kanezaki R,Terui K,Yoshida K,Kanno H,Ohga S,Ohara A,Kojima S,Ogawa S,Ito E	4．巻 103
2．論文標題 ALDH2 polymorphism in patients with Diamond-Blackfan anemia in Japan	5．発行年 2016年
3．雑誌名 Int J Hematol	6．最初と最後の頁 112-114
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） 10.1007/s12185-015-1891-0	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 －

1．著者名 Muramatsu H,Okuno Y,Yoshida K,Shiraishi Y,Diosaki S,Narita A,Sakaguchi H,Kawashima N,Wang X,Xu Y,Chiba K,Tanaka H,Hama A,Sanada M,Takahashi Y,Kanno H,Yamaguchi H,Ohga S,Manabe A,harigae H,Kunishima S,Ishii E,Kobayashi M,Koike K,Watanabe K,Ito E,Tanaka M,Yabe M,Ogawa S,Miyano S,Kojima S	4．巻 印刷中
2．論文標題 Clinical Utility of next-generation sequencing for inherited bone marrow failure syndromes	5．発行年 2017年
3．雑誌名 Genet Med	6．最初と最後の頁 印刷中
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） 10.1038/gim.2016.197	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスではない、又はオープンアクセスが困難	国際共著 該当する

1．著者名 Ikeda F,Yoshida K,Toki T,Uechi T,Ishida S,Nakajima Y,Sasahara Y,Okuno Y,Kanezaki R,Terui K,Kamio T,Kobayashi A,Fujita T, Sato-Otsubo A, Hiraishi Y, Tanaka H,Chiba K,Muramatsu H,Kanno H,Ohga S,Ohara A,Kojima S,Kenmochi N,Miyano S,Ogawa S,Ito E	4．巻 102
2．論文標題 Exome sequencing identified RPS15A as a novel causative gene for Diamond-Blackfan anemia	5．発行年 2017年
3．雑誌名 Haematologica	6．最初と最後の頁 e93
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） 10.3324/Haematol.2016.153932	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている（また、その予定である）	国際共著 －

1．著者名 Arashiki N, Takakuwa Y, Mohandas N, Hale J, Yoshida K, Ogura H, Utsugisawa T, Ohga S, Miyano S, Ogawa S, Kojima S, Kanno H	4．巻 101
2．論文標題 ATP11C is a major flippase in human erythrocytes and its defect causes congenital hemolytic anemia	5．発行年 2016年
3．雑誌名 Haematologica	6．最初と最後の頁 559-565
掲載論文のDOI（デジタルオブジェクト識別子） 10.3324/haematol.2016	査読の有無 有
オープンアクセス オープンアクセスとしている（また、その予定である）	国際共著 該当する

〔学会発表〕　計34件（うち招待講演　9件／うち国際学会　7件）

1．発表者名 中林 恭子、岡本 好雄、槍澤 大樹、菅野 仁
2．発表標題 当院における血液製剤使用状況の実態に関する解析
3．学会等名 第66回日本輸血・細胞治療学会総会
4．発表年 2018年

1．発表者名 千野 峰子、小野 慎吾、松田 和樹、久保田 友晶、守谷 友美、及川 美幸、木下 明美、岡田 真一、青木 正弘、中林 恭子、岡本 好雄、今野 マユミ、槍澤 大樹、小林 博人、菅野 仁
2．発表標題 胸水・腹水濾過濃縮静注法における遊離ヘモグロビン検査の重要性
3．学会等名 第66回日本輸血・細胞治療学会総会
4．発表年 2018年

１．発表者名 高源 ゆみ、稲田 紹子、木下 明美、小林 博人、菅野 仁
２．発表標題 自己活性化γδ型T細胞を用いたがん免疫療法の臨床研究支援
３．学会等名 第66回日本輸血・細胞治療学会総会
４．発表年 2018年

１．発表者名 菅野 仁
２．発表標題 液製剤使用実態調査で明らかになった血漿分画製剤の使用状況について
３．学会等名 第66回日本輸血・細胞治療学会総会（招待講演）
４．発表年 2018年

１．発表者名 菅野 仁、岡本 好雄
２．発表標題 アンケート調査からみた日本のガンマグロブリン製剤使用実態
３．学会等名 第66回日本輸血・細胞治療学会総会（招待講演）
４．発表年 2018年

１．発表者名 菅野 仁、岡本 好雄
２．発表標題 アンケート調査から見た輸血後感染症検査の実施状況
３．学会等名 第66回日本輸血・細胞治療学会総会（招待講演）
４．発表年 2018年

１．発表者名 菅野 仁
２．発表標題 血液製剤使用実態調査から分かること
３．学会等名 第66回日本輸血・細胞治療学会総会（招待講演）
４．発表年 2018年

１．発表者名 平形絢子、佐藤実紅、春日夏那子、橋本真理、田中健佑、水野隆久、河野美幸、須永康夫、田代雅彦、小倉浩美、菅野 仁
２．発表標題 新生児に重症黄疸と溶血性貧血を来した一例
３．学会等名 日本小児科学会 群馬地方会
４．発表年 2018年

１．発表者名 Taiju Utsugisawa, Toshiyuki Yamamoto, Hiromi Ogura, Takako Aoki, Yoshio Okamoto, Takahiro Kawakami, Shouichi Ohga, Akira Ohara, Etsuro Ito, Hitoshi Kanno.
２．発表標題 Pyruvate kinase deficiency in Japan: A Summary of clinical feature, laboratory data and enzymatic diagnosis
３．学会等名 The European Hematology Association（国際学会）
４．発表年 2018年

１．発表者名 菅野 仁
２．発表標題 先天性溶血性貧血の秒型診断と治療～最近のトピックス
３．学会等名 第4回北陸小児血液研究会（招待講演）
４．発表年 2018年

１．発表者名 菅野 仁
２．発表標題 先天性溶血性貧血の疫学と病型診断
３．学会等名 第17回 日本新生児黄疸管理研究会（招待講演）
４．発表年 2018年

１．発表者名 鎌谷 直之、降旗 謙一、谷口 敦夫、福内 友子、山岡 法子、金子 希代子、菅野 仁
２．発表標題 健常人とサラセミア、異常ヘモグロビン血症患者から得た赤血球におけるATP増強
３．学会等名 日本人類遺伝学会第63回大会
４．発表年 2018年

１．発表者名 小倉 浩美、青木 貴子、槍澤 大樹、岡本 好雄、川上 高弘、山本 俊至、大賀 正一、伊藤悦朗、菅野 仁
２．発表標題 乳児期の一過性溶血性貧血を呈するinfantile pyknocytosisの臨床像と検査所見
３．学会等名 第80回 日本血液学会
４．発表年 2018年

１．発表者名 青木 貴子、小倉 浩美、槍澤 大樹、山根 孝久、山本 俊至、菅野 仁
２．発表標題 遺伝子パネルシークエンスにより脱水型遺伝性有口赤血球(DHSt)と診断し得た一例
３．学会等名 日本人類遺伝学会第63回大会
４．発表年 2018年

１．発表者名 槍澤 大樹、青木 貴子、小倉 浩美、岡本 好雄、川上 高弘、山根 孝久、山本 俊至、菅野 仁
２．発表標題 先天性溶血性貧血診断における網羅的遺伝子検査の有用性
３．学会等名 第80回 日本血液学会
４．発表年 2018年

１．発表者名 岡本 好雄、槍澤 大樹、中林 恭子、千野 峰子、守屋 友美、松田 和樹、小林 博人、菅野 仁
２．発表標題 冷蔵保存腹水によるCARTの安全性と有効性
３．学会等名 第39回日本アフェレシス学会学術大会
４．発表年 2018年

１．発表者名 小林 博人、阿部 結貴、槍澤 大樹、菅野 仁
２．発表標題 腹水由来γδ型T細胞を用いた癌免疫細胞療法の開発
３．学会等名 第39回日本アフェレシス学会学術大会（招待講演）
４．発表年 2018年

１．発表者名 鎌谷直之、降旗謙一、谷口敦夫、福内友子、山岡法子、金子希代子 、菅野仁
２．発表標題 健常人とサラセミア、異常ヘモグロビン血症患者から得た赤血球におけるイノシンによるATP増強
３．学会等名 日本痛風・核酸代謝学会
４．発表年 2018年

１．発表者名 村岡倫子、岡本佳子、猪谷元浩、近藤亜矢、坂根朋子、岩瀬瑞恵、藤原倫昌、北田邦美、野島郁子、高橋伸方、荒木徹
２．発表標題 KCNN4変異による脱水型遺伝性有口赤血球症の1例
３．学会等名 第59回小児血液・がん学会学術集会
４．発表年 2017年

１．発表者名 小倉浩美、槍澤大樹、岩﨑拓也、青木貴子、岡本好雄、川上高弘、菅野　仁
２．発表標題 系統的検査による先天性溶血性貧血80症例の病型診断
３．学会等名 第79回日本血液学会学術集会
４．発表年 2017年

１．発表者名 槍澤大樹、小倉浩美、岩﨑拓也、青木貴子、岡本好雄、川上高弘、菅野　仁.
２．発表標題 Heterogeneous KCNN4 or PIEZO1 gene mutation cause dehydrated hereditary Stomatocytosis in Japan
３．学会等名 第79回日本血液学会学術集会
４．発表年 2017年

１．発表者名 Hitoshi Kanno、Rachael F.Grace, D.Mark Layton, Frederic Galacteros, D.Holmes Morton, Kevin H.M.Kuo, Sujit Sheth, Janet L.Kwiatkowski, Bruce Silver, Charles Kung, Marvin Cohen, Hua Yang, Penelope A. Kosinski, Lei Hua, Ann J. Barbier, Bertil Glader
２．発表標題 AG-348,a pyruvate kinase activator,for pyruvate kinase deficiency:Results the drive PK study
３．学会等名 第79回日本血液学会学術集会
４．発表年 2017年

１．発表者名 Tomoko Goto, Takao Togawa, Tsuyoshi Ito, Masanori Kouwaki, Hiromi Ogura, Hitoshi Kanno, Shinji Saitoh, Norihisa Koyama
２．発表標題 A patient with hereditary Pyropoikilocytosis caused by a combination of a novel in-frame deletion and a common functional but non-pathogenic allele,αLELY,in SPTA1
３．学会等名 American Society of Human Genetics（国際学会）
４．発表年 2017年

１．発表者名 Takuya Iwasaki, Taiju Utsugisawa, Hiromi Ogura, Takako Aoki, Akemi Kinoshita, Yasutaka Ogata, Yoshio Okamoto, Takahiro Kawakami, Hitoshi Kanno
２．発表標題 The Flow Cytometric Osmotic Fragility Test is an Effective Screening Test for Red Cell Membrane Disorders, Including Dehydrated Hereditary Stomatocytosis
３．学会等名 International Sciety for Laboratory Hematology（国際学会）
４．発表年 2017年

１．発表者名 槍澤　大樹、中林　恭子、松田　和樹、守屋　友美、千野　峰子、岡本　好雄、菅野　仁
２．発表標題 低温保存腹水を用いた腹水濾過濃縮再静注法(CART)の有用性の検討
３．学会等名 第65回　日本輸血・細胞治療学会総会
４．発表年 2017年

１．発表者名 高源　ゆみ、木下　明美、小林　博人、菅野　仁
２．発表標題 腹水濾過時に得られる単核球を利用したγδ型T細胞療法の開発
３．学会等名 第65回　日本輸血・細胞治療学会総会
４．発表年 2017年

１．発表者名 小野　慎吾、及川　美幸、中林　恭子、岡本　好雄、菅野　仁
２．発表標題 ABO同型クリオプレシピテート供給体制の是非に関する考察
３．学会等名 第65回　日本輸血・細胞治療学会総会
４．発表年 2017年

１．発表者名 守屋　友美、小野　慎吾、小林　博人、菅野　仁
２．発表標題 高張アルブミン製剤適正使用の推進
３．学会等名 第65回　日本輸血・細胞治療学会総会
４．発表年 2017年

１．発表者名 井島 廣子，古賀 正史，中村 倫子，松下 文美，坂本 英美，岩崎 剛，松本 理恵，陣内 冨男，梶原 敬三，稗島 州雄，杉山 正悟，小倉 浩美，菅野 仁，陣内 秀昭
２．発表標題 HbA1cが偽性低値を示したエノラーゼ異常症の1例
３．学会等名 第59回日本糖尿病学会年次学術集会
４．発表年 2016年

１．発表者名 Hiroshi Kohara, Hiromi Ogura, Takako Aoki, Chika Sakamoto, Yoshie Ogawa, Shohei Miyamoto, Hitoshi Kanno, Kenzaburo Tani
２．発表標題 Generation and Fanctional Analysis of Congenital Dyserythropoietic Anemia(CDA) Patient-Specific Induced Pluripotent Stem Cells
３．学会等名 American Society of Hematology, 58th Annual Meeting &Exposition（国際学会）
４．発表年 2016年

１．発表者名 Taiju Utsugisawa, Hiromi Ogura,Toshiyuki Yamamoto,Takako Aoki,Takuya Iwasaki,Yumiko Ondo,Takahiro Kawakami, Shinichiro Nakagawa, Shuichi Ozono, Hiroko Inada, Hitoshi Kanno
２．発表標題 The Novel missense Mutation of GATA1 Caused red Cell Adenosine Deaminase Overproduction Associated with Congenital Hemolytic Anemia
３．学会等名 American Society of Hematology, 58th Annual Meeting &Exposition（国際学会）
４．発表年 2016年

１．発表者名 岩﨑　拓也、山本　俊至、村松　秀城、奥野友介、佐藤　裕子、三井　哲夫、小野田　正志、矢野　未央、小松　博史、坂本　謙一、青木　貴子、岡本　好雄、槍澤　大樹、小倉浩美、小島　勢二、菅野　仁
２．発表標題 先天性溶血性貧血の診断におけるターゲットシークエンシングの有用性
３．学会等名 第78回日本血液学会学術集会
４．発表年 2016年

１．発表者名 Kanno H, Utsugisawa T, Ogura H
２．発表標題 Next generation sequencing in diagnosis of congenital hemolytic anemia.
３．学会等名 The 5th TSH International Symposium, Red Cell Disorders.: From Bench to Bedside（招待講演）（国際学会）
４．発表年 2016年

１．発表者名 Kanno H, Utsugisawa T, Ogura H
２．発表標題 Congenital hemolytic anemia due to red cell enzymopathies.
３．学会等名 The 5th TSH International Symposium, Red Cell Disorders.: From Bench to Bedside（招待講演）（国際学会）
４．発表年 2016年

〔図書〕　計4件

1．著者名 小倉浩美，菅野 仁	4．発行年 2016年
2．出版社 文光堂	5．総ページ数 166
3．書名 MedicalPractic 【貧血　実地医家に役立つ知識と診療の進めかた】 セミナー臨床に役立つ知識と情報 溶血性貧血の鑑別診断の進め方	

1．著者名 大賀 正一，山城 安啓，菅野 仁	4．発行年 2016年
2．出版社 科学評論社	5．総ページ数 273
3．書名 血液内科 【貧血性疾患診療の進歩】 先天性溶血性貧血の遺伝子診断	

1．著者名 小倉浩美、菅野　仁	4．発行年 2016年
2．出版社 東京医学社	5．総ページ数 140
3．書名 小児内科　【血球の増加と減少】赤血球　貧血　遺伝性貧血	

1．著者名 大賀 正一,猪股 裕紀洋,菅野 仁,田村 正徳,八重樫 伸生	4．発行年 2016年
2．出版社 メディカルレビュー社	5．総ページ数 180
3．書名 見過ごせないウイルス感染症ヒトパルボウイルスB19	

〔産業財産権〕

〔その他〕

－

６．研究組織

	氏名 （ローマ字氏名） （研究者番号）	所属研究機関・部局・職 （機関番号）	備考
研究分担者	小原　洋志 (KOHARA HIROSHI) (40528733)	東京大学・医科学研究所・特任講師 (12601)	
連携研究者	谷　憲三朗 (TANI KENZABURO) (00183864)	東京大学・医科学研究所・特任教授 (12601)	
連携研究者	槍澤　大樹 (UTSUGISAWA TAIJU) (30337133)	東京女子医科大学・医学部・講師 (32653)	
連携研究者	小倉　浩美 (OGURA HIROMI) (90211135)	東京女子医科大学・医学部・非常勤医師 (32653)	