

Extensive morphological and immunohistochemical characterization in myotubular myopathy

メタデータ	言語: jpn 出版者: 公開日: 2014-06-19 キーワード (Ja): キーワード (En): 作成者: 七字, 美延 メールアドレス: 所属:
URL	http://hdl.handle.net/10470/30645

様式 (6)

学 位 審 査

学 位 番 号	甲 第 583 号	氏 名	七 字 美 延
審 査 委 員 会	主 査 教 授	永 田 智	
<p>論文審査の要旨 (400 字以内)</p> <p>当該研究では、X 染色体連鎖性ミオチューブラーミオパチー(XLMTM)に罹患した新生児の筋組織に生ずる病理学的経過を明らかにするため、骨格筋生検組織の形態学所見をそれぞれの修正週数と生検時の週数に従い再評価し、外側広筋および三角筋の組織所見、筋組織の各発生過程を検討した。その結果、ヒトでは、修正 34 週から生後 3 ヶ月の乳児において、正常な筋発達は認められず、細胞骨格網の無秩序、T 管の増加、筋小胞体など膜分画の全体的な局在異常が認められた。XLMTM の動物モデルでは、遺伝子治療で筋障害が改善することが報告されているが、ヒトでは胎生期に既に筋病変を生じている可能性があることより、胎児遺伝子治療の必要性をもはじめて示唆した貴重な検討であり、学位授与にふさわしい臨床的意義を有するものと判断される。</p> <p>本要旨は当該論文が第二次審査に合格した後の 1 週間以内に学務部医学部大学院課へご提出下さい。(本学学会雑誌に公表) [学校教育法学位規則第 8 条]</p>			