

耳下腺腫瘍として紹介された HIV 関連症候群 ; Diffuse infiltrative lymphocytosis syndrome の一例

留守卓也 渡部涼子 新井智之
小野健一 晝間清 三橋敏雄
がん感染症センター都立駒込病院 耳鼻咽喉科・頭頸部腫瘍外科

A case of diffuse infiltrative lymphocytosis syndrome was presented as bilateral parotid tumors

Takuya TOMEMORI, Ryoko WATANABE, Tomoyuki ARAI

Kenichi ONO, Kiyoshi HIRUMA, Toshio MITSUHASHI

Otorhinolaryngology, Head and Neck Tumor Surgery, Tokyo Metropolitan Cancer and Infectious Diseases Center Komagome Hospital

Over 17,000 patients and carriers are living with HIV in Japan, and approximately 1/3 of them are in Tokyo. Diffuse infiltrative lymphocytosis syndrome (DILS) is characterized by bilateral salivary gland enlargement and xerostomia specified with lymphocyte infiltration caused by HIV infection. As for the case report, we showed 61-years-old male who was introduced for bilateral parotid tumors, histologically diagnosed as Warthin's tumor. Further examination revealed xerostomia, dental caries and, interestingly, volume reductions of tumors after introduction of Highly Active Anti-Retroviral Therapy (HAART), so that he was re-diagnosed as DILS. During observation period, parotid tumors were significantly reduced coincident with a decrease of HIV-RNA copy number caused by HAART.

Numerous terms have been used to describe lymphocytic parotid enlargement in HIV patients, but pathogenesis and proper treatment are still unknown. Observation is sometimes reasonable treatment for these symptoms, so we should keep in mind that parotid tumors, especially Warthin's tumor, are sometimes confused with these HIV-related salivary gland diseases.

はじめに

当院は東京都における HIV 治療の基幹病院であり、当科においても多くの HIV 患者を診察している。HIV 感染例では咽喉頭や頭頸部に数々の特徴的な所見をみるため、一般的な疾患との鑑別診断が必要である。今回、我々は、HIV 関連症候群の一つである Diffuse infiltrative lymphocytosis syndrome (DILS) を経験した。同疾患は、HIV 感染に伴って、唾液腺の腫大と唾液分泌減少を示し、血中 CD8 陽性細胞高値を特徴とする HIV 関連症候群の一つである。これまでの報告例に若干の考察を加え発表する。

症例提示

症 例：61 歳，男性

主 訴：両耳下部腫脹

既往歴：虫垂炎（10 歳）アメーバ赤痢（52 歳）

生活歴：喫煙 18 本/日×35 年 アルコール ビール 2 本/日

家族歴：特記すべきことなし。離婚歴あり。同居男性あり。

現病歴：2007 年頃より無痛性の両耳下部腫脹を認めていた。

2008/12/08 他院にて精査中に、保健所での自主検査にて HIV 陽性判定

2009/01/08 他院での精査を中断し、当院感染症科受診

2009/08/18 某大学病院にてワルチン腫瘍の診断手術予定であったが、術前検査で HIV 感染が発覚し中止

2009/09/01 当院にて HAART (Highly Active Anti-Retroviral Therapy) 開始

2009/12/07 前医より手術依頼をうけ当科紹介受診

初診時の所見：173cm/61kg。体温 36.5 度。血圧 130/57。脳・運動・感覚神経系は異常なし。胸部・腹部・四肢所見は異常なし。聴診所見は異常なし。頸部・腋窩・鼠径リンパ節腫脹なし。局所所見としては、右耳下部に 2.0 × 3.0cm，左耳下部に 4.0

× 2.5cm の弾性軟の腫瘤を認めた。可動性は良好で圧痛は認めなかった。咽頭発赤を認め、口腔内は乾燥していた。齲歯を多数認め、口腔カンジダ所見も陽性であった。

血液検査所見：WBC 3700 (N 41.7, Ly 48.5, Mo 7.9, Eos 1.6, Bas 0.3), CRP 0.1, RBC 394, Hb 13.2, Ht 37.9, Plt 16.7, TP 8.2, Alb 3.9, Na 140, Cl 106, K4.1, P 3.1, Cre 0.6, UN 12, UA 7.1, AST 21, ALT 13, LDH 168, ALP 136, γ GTP 39, Glu 91

血清免疫学的検査所見：HBsAg (+), HCV (-), 梅毒 (-), HIV-RNA 120000 copy/ml, CD4 387/μl (正常値 344 ~ 1289), CD8 1340/μl (正常値 110 ~ 1066)

画像所見：MRI 所見を Fig.1 に示す。両耳下腺内に複数の腫瘤を認め、造影後には辺縁部のみの増強効果を認めた。前医での唾液腺シンチグラム検査では両耳下腺に 99mTc の集積を認めた。

病理学的検査：前医での細胞診検査では Class II で、多数のリンパ球と異型性の乏しい上皮細胞を認めワルチン腫瘍に矛盾せずとのコメントであった。



Fig. 1 MRI MRI showed multiple tumorous formations in both parotid glands.

初診後の経過：手術依頼としての紹介であったが、HAART 開始後から腫瘍が縮小したとの訴えがあり、画像検査での比較を行ったところ、腫瘍は明らかに縮小していた (Fig.2)。以上の精査結果から、HIV associated lymphadenopathy を強く疑ったが、口腔内乾燥症状の合併などから

DILSと診断するに至った。近日中の手術の必要性はないと判断し、本人と相談の上、外来にて経過観察を続けることとなった。その後、HAARTによるHIV-RNA copy数の減少とともに、腫瘍はさらに縮小した。現在も再増殖なく外来にて経過観察中である。

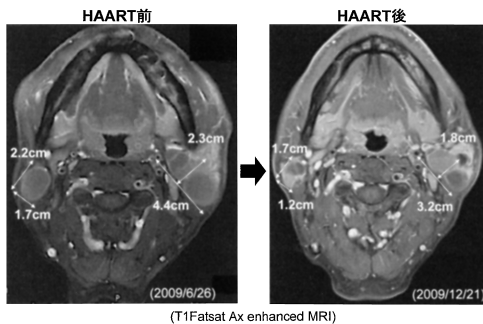


Fig. 2 Tumor reduction after introduction of HAART MRI showed significant tumor reduction.

考 察

当院は東京都におけるHIV治療の基幹病院であり、当院感染症科では過去25年間で約2000人、現在は約1000人の患者を定期観察し、毎年100人前後の新患患者を診察している。Fig.3に2010年8月現在の全国および東京都での患者・感染者数を示す。これによると、全国の新規HIV感染者・患者の報告数の約1/3が都に集中し、さらにそのうちの1/3が当院を受診していることになる。当科では2005年から2009年までの過去5年間で計103人を診察している。多くは上気道感染やアレルギー性疾患および感覚器障害の症例であるが、腫瘍性疾患も少なくない。

今回の報告は耳下腺腫脹をきたすHIV関連疾患の症例であった。HIV感染に伴い耳下腺腫脹を示す頻度は1~10%¹⁾と報告されており、比較的高頻度であるにも関わらず、定義および疾患名は多様で統一されていない(Fig.4)。一般に嚢胞形成の報告が多く、Daveらは形態学的にワルチン腫瘍との鑑別が重要であると報告している⁴⁾。治療についても、手術や硬化療法もしくは経過観察など様々な報告がみられ、現状では一定の見解

を得ていない。

DILSはFig.4に示すようにHIV感染に伴って唾液腺の腫大と唾液分泌減少を示すHIV関連疾患である。病理学的には唾液腺腫大領域にリンパ球浸潤を認めることが特徴である。本症例では画像上はbenign lymphoepithelial cystを疑ったが、充実性腫瘍の混在と口腔内乾燥症状、および前医細胞診でのリンパ球浸潤の所見からDILSと診断した。当科では、すでに縮小傾向がみられていたことから経過観察の方針としたが、今後HIV感染の病勢によっては再腫脹の可能性もあり、治療法を再考することも念頭に置いて、慎重に経過観察を続けていく予定である。

全国の患者・感染者報告

区分	平成22年3月29日~22年6月27日 (平成22年第13週~第25週)			累積報告数		
	男性	女性	合計	男性	女性	合計
患者	125	4	129	4,920	622	5,542
感染者	248	15	263	9,997	2,053	12,050
合計	373	19	392	14,917	2,675	17,592

東京都の患者・感染者報告

区分	平成22年3月29日~22年6月27日 (平成22年第13週~第25週)			累積報告数		
	男性	女性	合計	男性	女性	合計
患者	31	2	33	1,409	124	1,533
感染者	78	3	81	4,154	463	4,617
合計	109	5	114	5,563	587	6,150

(2010/8/20発行 東京都福祉保険局エイズニュースレター 平成22年第2四半期版より転載)

Fig. 3 Most recent report of HIV patients in Japan and Tokyo
17,592 patients and carriers are living with HIV in Japan in 2010. Approximately 1/3 of them are in Tokyo.

- HIV related salivary gland disease; HIV関連唾液腺疾患2)
- Benign lymphoepithelial cyst ; 耳下腺リンパ上皮性嚢胞3)
- Persistent generalized lymphadenopathy4)
- Cystic lymphoid hyperplasia4)
- HIV-associated lymphadenopathy4)
- **Diffuse infiltrative lymphocytosis syndrome**
- HIV(+), Salivary gland enlargement (with lymphocyte infiltration), and Xerostomia5)
- Benign lymphoepithelial lesion which may arise from an autoimmune-mediated response4)

Fig. 4 Various names for describing parotid enlargement in HIV patients
Numerous terms have been used to describe these symptoms.

ま と め

我々は両耳下腺腫瘍を合併したHIV感染症を経験した。前医ではワルチン腫瘍と診断されたが、口腔乾燥と多発する多房性の画像所見よりDILSと診断した。HAART治療に伴い、腫瘍は著明

に縮小した。

HIV 感染症は当科領域に多彩な症状を示すことはよく知られている。本邦の HIV 感染者は増加の一途をたどっており、当科的に特徴的な所見についての理解がより一層必要である。耳下腺腫脹、特にワルチン腫瘍と診断される場合においても、今回の症例のように HIV 感染の可能性を念頭に置いて診察することが重要だと思われた。

参 考 文 献

- 1) Morales-Aguirre JJ, et al : Parotid cysts in children infected with human immunodeficiency virus: report of 4 cases. Arch Otolaryngol Head Neck Surg. 131 : 353-5, 2005.
- 2) 宮本真理子, 他 : HIV 関連唾液腺疾患の 2 症例. 日耳鼻感染症研究会誌. 28 : 97-99, 2010.
- 3) 福元 晃, 他 : 耳下腺多発嚢胞により診断しえた HIV 感染症の 1 例. 耳喉頭頸. 81 : 109-112, 2009.

- 4) Dave SP, et al : The benign lymphoepithelial cyst and a classification system for lymphocytic parotid gland enlargement in the pediatric HIV population. Laryngoscope. 117 : 106-13, 2007.
- 5) Reveille JD : Rheumatic manifestations of human immunodeficiency virus infection. Kelley's Textbook of Rheumatology. 103 : 1747-1760, 2008.

連絡先 : 留守卓也

〒 113-8677

東京都文京区本駒込 3-18-22

東京都立駒込病院 耳鼻咽喉科・頭頸部腫瘍外科

TEL 03-3823-2101 FAX 03-3824-1552

E-mail tomemori@cick.jp