

AMCoR

Asahikawa Medical College Repository <http://amcor.asahikawa-med.ac.jp/>

診断病理 (2003.01) 20巻4号:318~321.

HIV関連唾液腺疾患(HIV-related salivary gland disease)の1例

柳内充, 及川賢輔, 小林博也, 佐藤啓介, 木村昭治, 三代
川齊之, 小川弥生, 立野正敏

HIV 関連唾液腺疾患 (HIV-related salivary gland disease)

の 1 例

柳内 充¹ , 及川賢輔¹ , 小林博也¹ , 佐藤
啓介¹ , 木村昭治² , 三代川斉之³ , 小川弥
生⁴ , 立野正敏¹

(¹ 旭川医科大学病理学第二講座 , ² 同看護学
科 , ³ 同病理部 , ⁴ 市立札幌病院病理)

症例報告

別冊請求先 : 〒 078-8510 旭川市緑ヶ丘東 2 条
1 丁目 1 - 1 旭川医科大学病理学第二講座

立野正敏

A case of HIV-associated salivary gland disease.

Mitsuru Yanai¹, Kensuke Oikawa¹, Hiroya Kobayashi¹, Keisuke
Sato¹, Syoji Kimura², Naoyuki Miyokawa³, Yayoi Ogawa⁴ and
Masatoshi Tateno¹,

¹Department of Pathology, ²Nursing and ³Surgical Pathology
Asahikawa Medical College

⁴Department of Pathology, Sapporo City General Hospital

要旨

49才男性の右耳下腺に発生した HIV-associated salivary gland disease(HSD) の一例を報告する。患者は血友病 A の既往があり、血液製剤の投与により抗 HIV 抗体が陽性化していた。3年前から右耳下腺の無痛性腫脹があり、切除された。肉眼的に剖面では粘調性の液体を入れた多発性の嚢胞があり、充実性の部分は白色均一であった。組織学的に多層化を示す扁平上皮あるいは基底細胞様上皮でおおわれた嚢胞があり、上皮内にリンパ球の浸潤を認めた。周囲には腫大し胚中心の拡大したリンパ濾胞の増生をみとめた。濾胞間に上皮成分が索状あるいは網状構造をとって増生していた。上皮成分、リンパ球に細胞異型、構造異型はみられず HIV-associated salivary gland disease と診断した。術後経過は良好で再発などはみられていない。HIV感染者の少ない本邦では稀な疾患で低分化扁平上皮癌、悪性リンパ腫、Sjögren 症候群などの鑑別が問題になると思われた。

キーワード : HIV-associated salivary gland disease,
cysts, lymphoepithelial lesion

はじめに

HIV感染者には系統的リンパ節腫大，悪性リンパ腫や Sjogren 症候群類似の病変など多彩な病変が認められることがわかってきた．唾液腺に嚢胞を伴うリンパ球の上皮内浸潤

(Lymphoepithelial lesion) を特徴とする

HIV-associated salivary gland disease(HSD)¹⁾ は HIV 感染者に比較的特異的で低分化扁平上皮癌，悪性リンパ腫， Sjögren 症候群との鑑別が問題となる疾患である．今回われわれは典型的と思われる HSD の一例を経験したので報告する．

症例

患者：51才、男性

既往歴：血友病 A．血液製剤の使用で抗 HIV 抗体が陽性化した．

経過：約 3 年前に右耳下腺の腫大に気付いた．増大傾向がみとめられたため CT、MRI 検査を施行したところ右耳下腺部に径 6 cm の球形の腫瘍が認められ（図 1，図 2），右耳下腺

切除術を施行した。

肉眼所見：被膜を有する径 60x60x35mm の腫瘤で、断面では粘調性の液体を入れた多発性の嚢胞があり、それ以外の部分は充実性で白色均一であった（図 3）。

術後経過：術後 6 ヶ月、経過は良好で再発はみられない。

組織所見

摘出された組織は薄い被膜を有し周囲との境界明瞭な腫瘤であり辺縁部に唾液腺組織の残存があり、唾液腺から発生した病変であった（図 4）。中心部には拡張した嚢胞状の腔があり内腔に好酸性均一な粘液の貯留がみられた。内腔をおおう上皮は多層化を示す扁平上皮あるいは基底細胞からなり、リンパ球の強い浸潤を来し、上皮としての構造が不明瞭になっていた（図 5）。上皮を構成する細胞に異型性はなく、基底膜構造はリンパ球浸潤のため不明瞭となっていたが、明らかな浸潤像

はみられなかった． 嚢胞以外の部分は tingible macrophage を多数含む胚中心の拡大した大型のリンパ濾胞の増生があり，濾胞間には索状あるいは網状構造をとる上皮成分の増生があり，リンパ球の強い浸潤をともなっていた（図 6）． 鍍銀染色ではリンパ濾胞構造は保たれ，免疫染色では L26 陽性の B 細胞と，UCHL1 陽性の T 細胞が，それぞれ本来の構造を保ち認められた（図 7）． 免疫グロブリンの軽鎖の検討ではカッパ鎖，ラムダ鎖両方を有するリンパ球がほぼ同数存在した． ケラチン染色では嚢胞をおおう上皮が陽性で，濾胞間に樹枝状に増生する上皮成分がケラチン弱陽性であった（図 8）． 以上の組織から HIV-associated salivary gland disease (Multiple lymphoepithelial cysts of the parotid gland) と診断した． EB ウイルスの病因的関与を調べる目的で，パラフィン切片による EBER を in situ hybridization で検討したが陰性であった．

考案

HIV-associated salivary gland disease(HSD)は1987年Morrisら²⁾によって報告されて以来多くの報告がみられる。HIV感染者の多い欧米諸国では頻度が高く、Ihrerら³⁾はAIDS剖検88例のうち5例(6%)にlymphoepithelial lesionがみられ3例(3%)にHSD類似の病変がみられたと報告している。Ramirez-Amadorら⁴⁾は12年間の1000例におよぶ検索でHSDは1.7%にみられたと報告しているが唾液腺の詳細な検討が進めば症例は増加すると思われる。HSDではリンパ濾胞の著しい増生に加えて、リンパ球の上皮内浸潤が高度にみられることからMALTリンパ腫などの悪性リンパ腫との鑑別が問題になるが、濾胞構造の破壊はなく、浸潤するリンパ球に異型性が見られない点、辺縁帯に見られるような胞体の明るいcentrocyte like cellが見られない点や免疫グロブリン軽鎖に偏移がないことが鑑別となる。MALTリンパ腫のcentrocyte like cellは免疫染色でbcl-2が陰性という報告もみられ⁵⁾鑑別

に役立つ可能性がある。一般の唾液腺に存在しないような上皮細胞の増生や不規則な構造がみられ、リンパ球浸潤により基底膜構造が不明瞭になり、低分化扁平上皮癌との鑑別も問題になる。しかし癌にみられる細胞異型はなくケラチンの免疫染色でも浸潤像はみられない点が癌との鑑別点となった。高度のリンパ球浸潤と上皮成分が島状に残存する所見からは Sjögren 症候群との異同が問題になる。臨床的に口腔乾燥症状はなく、Sjögren 症候群にみられるリウマチ因子、抗 SS-A/B 抗体は陰性である。組織学的に Sjögren 症候群の上皮細胞は筋上皮としての性格を有するが、HSD の増殖する上皮はむしろ基底細胞としての性格を有する事が鑑別点といわれている⁶⁾。

HIV 感染者において唾液腺の腫大を認めた場合には悪性リンパ腫、唾液腺腫瘍の可能性のほか HSD も念頭において診断に当る必要がある。また、本症例のように嚢胞形成を伴うリンパ球浸潤の強い唾液腺病変をみたときには

HSDの可能性も考慮してHIVについての血清学的な検討も必要である。HIVの剖検例が増加することが予想されるが普段検索することの少ない唾液腺についても検討する必要がある。

文 献

1. Ellis GL and Auclair PL. Tumors of the salivary glands.
Atlas of tumor pathology. 3rd series. Fascicle 17.
Washington D.C.: Armed Forces Institute of Pathology,
1996; 430-433.
2. Morris MR, Moore DW, Shearer G. Bilateral multiple benign
lymphoepithelial cysts of the parotid gland. Otolaryngol
Head Neck Surg 1987; 97: 87-90.
3. Ihrler S, Zietz C et al. HIV-related parotid
lymphoepithelial cysts. Virchow Arch 1996; 429: 139-147.
4. Ramirez-Amador V, Esquivel-Pedraza L, Sierra-Madero J et
al. The changing clinical spectrum of human
immuno-deficiency virus (HIV)-related oral lesions in
1000 consecutive patients: a 12-year study in referral
center in Mexico. Medicine (Baltimore) 2003; 82: 39-50.
5. Chetty R. HIV-associated lymphoepithelial cysts and
lesions: morphological and immunohistochemical study of
the lymphoid cells. Histopathology 1998; 33: 222-229.
6. Mandel L and Reich R. HIV parotid gland lymphoepithelial
cysts. Oral Surg Oral Med Pathol 1992; 74: 273-278.

図の説明

図 1 :MRI の画像所見 右耳下腺の部分に径 6 cm の腫瘍がみられ内部は嚢胞状をしめす。

図 2 :CT の画像所見 右耳下腺に多発嚢胞形成を伴う腫瘍があり，左耳下腺にも軽度ながら嚢胞形成を認める。

図 3 :肉眼所見 断面では大小の嚢胞があり，それ以外は白色充実性である。

図 4 :好酸性の広い胞体を有する細胞からなる唾液腺構造が一部に残存する。周囲には腫大したリンパ濾胞の増生をみとめる。(HE 染色、40 倍)

図 5 :嚢胞の上皮は多層化を示す扁平上皮からなり，リンパ球の浸潤が強い。(HE 染色、100 倍)

図 6 :濾胞間には索状あるいは網状を呈する上皮成分の増生が著明だがリンパ球の上皮内浸潤が高度で構造が不明瞭となる。(HE 染色、100 倍)

図 7 : 免疫染色 L26 陽性の B 細胞領域 (右)
と UCHL-1 陽性の T 細胞領域 (左) が明瞭に分か
れている . (酵素抗体法 , 20 倍)

図 8 : 免疫染色 上皮成分は抗ケラチン抗体
陽性で上皮内にリンパ球の浸潤が高度にみら
れた . (酵素抗体法 , 40 倍)

HIV-associated salivary gland disease の 1 例 (柳 内 ほ

か)

図 1

HIV-associated salivary gland disease の 1 例 (柳 内 ほ

か)

図 2

HIV-associated salivary gland disease の 1 例 (柳 内 ほ

か)

図 3

HIV-associated salivary gland disease の 1 例 (柳 内 ほ

か)

図 4

HIV-associated salivary gland disease の 1 例 (柳 内 ほ

か)

図 5

HIV-associated salivary gland disease の 1 例 (柳 内 ほ

か)

図 6

HIV-associated salivary gland disease の 1 例 (柳 内 ほ

か)

図 7

HIV-associated salivary gland disease の 1 例 (柳 内 ほ

か)

図 8

