

## 症例報告 (第18回若手奨励賞受賞論文)

### リウマチ様関節炎に対する免疫抑制療法中に発症した成人 T 細胞性白血病／リンパ腫の 1 例

山口 純代<sup>1)</sup>, 中村 信元<sup>2)</sup>, 住田 智志<sup>1)</sup>, 前田 悠作<sup>2)</sup>, 大浦 雅博<sup>2)</sup>,  
高橋 真美子<sup>2)</sup>, 岩佐 昌美<sup>2)</sup>, 原田 武志<sup>2)</sup>, 藤井 志朗<sup>2)</sup>, 三木 浩和<sup>3)</sup>,  
賀川 久美子<sup>2)</sup>, 岸 潤<sup>4)</sup>, 安倍 正博<sup>2)</sup>

<sup>1)</sup>徳島大学病院卒後臨床研修センター

<sup>2)</sup>徳島大学大学院医歯薬学研究部血液・内分泌代謝内科学分野

<sup>3)</sup>徳島大学病院輸血・細胞治療部

<sup>4)</sup>徳島大学大学院医歯薬学研究部呼吸器・膠原病内科学分野  
(平成29年11月6日受付) (平成29年11月7日受理)

症例は64歳，女性。X年4月，下腿浮腫と発熱，両側手首，手指，膝の関節痛が出現した。RF (－)，抗核抗体 (－)，抗CCP抗体 (－) でRS3PE症候群としてプレドニゾロンで治療されたが難治性であった。X+2年2月に右頸部リンパ節が急速に増大し，4月のPET/CTでは両側頸部，腋窩，鼠径リンパ節に異常集積を認め紹介された。LDH 547U/l, sIL-2R 34200U/l, 抗HTLV-1抗体 (+)，頸部リンパ節生検でCD2, 3, 4, 25陽性, CD7, 20, 30陰性の異型リンパ球の増殖あり，サザンブロットでHTLV-1プロウイルスDNAのモノクローナルな組み込みを認め，成人 T 細胞白血病／リンパ腫 (ATLL)，リンパ腫型と診断した。関節炎の原因としてHTLV-1感染の関与ならびに免疫抑制療法によるHTLV-1キャリアからのATLL発症への関与が考えられた。

成人 T 細胞白血病／リンパ腫 (adult T-cell leukemia/lymphoma: ATLL) は，Human T-lymphotropic Virus type-I (HTLV-1) によって発症する血液悪性腫瘍で，九州・沖縄地方を主とする西南日本に多発する。HTLV-1感染は，ATLL以外にも脊髄症，ぶどう膜炎，細気管支肺胞症，関節症などをきたすとされている。今回，血清学的陰性関節リウマチ様関節炎で発症し，関節痛に対する免疫抑制療法中にATLLを発症した症例を経験し

たので報告する。

#### 症 例

患者：64歳，女性

主訴：頸部の腫脹，嗄声，呼吸困難

現病歴：X年4月に下腿浮腫と発熱，両側手首，手指，膝の関節痛が出現し前医を受診した。RF (－)，抗核抗体 (－)，抗CCP抗体 (－) でRS3PE症候群と診断された。プレドニゾロン (PSL) 15mg 内服で改善したが，関節痛は減量中に両下肢，右手指の痛みの再燃が見られた。その後リウマチ性多発筋痛症と診断されPSLを増量されるも難治性で症状の寛解・増悪を繰り返していた。X+1年5月のCTでは明らかなリンパ節腫脹は見られなかったが，X+2年2月に右頸部リンパ節腫脹を自覚した。CTで両側頸部，腋窩，鼠径リンパ節腫脹が認められ，急激に増大した。同年4月のPET-CTでは腫大したリンパ節に異常集積亢進を認め，嗄声や呼吸困難も出現したため紹介された。

入院時現症：身長 149.0cm, 体重 54.85kg (1ヵ月で3kg減少), 血圧 148/82mmHg, 脈拍 111/分, 体温 36.2℃。顔面 浮腫あり，結膜 貧血・黄疸なし，扁桃

表1. 入院時検査所見

<尿>		<血液化学>		<免疫血清>	
蛋白 (-), 潜血 (-)		T-bil	0.8 mg/dl	CRP	0.38 mg/dl
<末梢血>		AST	45 U/l	$\beta$ 2MG	1.76 mg/l
Hb	13.2 g/dl	ALT	69 U/l	sIL2R	34200 U/ml
RBC	$403 \times 10^4/\mu\text{l}$	LDH	784 U/l	RF	(-)
Ht	37.1 %	ALP	333 U/l	抗核抗体	(-)
WBC	$12900/\mu\text{l}$	$\gamma$ -GTP	141 U/l	抗 CCP 抗体	(-)
neutro	89.0 %	TP	6.5 g/dl	<ウイルス>	
eosino	0.0 %	Alb	3.3 g/dl	HTLV-1 Ab	(+)
baso	0.0 %	UA	5.2 mg/dl	<骨髄検査>	
mono	8.0 %	BUN	22 mg/dl	明らかな異常細胞なし	
lymph	3.0 %	Cr	0.71 mg/dl		
Plt	$33.6 \times 10^4/\mu\text{l}$	Na	142 mEq/l		
<凝固検査>		K	4.2 mEq/l		
PT	11.4 sec	Cl	104 mEq/l		
APTT	32.9 sec	Ca	9.2 mg/dl		
fib	449 mg/dl	P	3.4 mg/dl		

腫大なし，胸部 呼吸音・心音正常，腹部肝脾触知せず，下腿浮腫なし。表在リンパ節 両側頸部，腋窩，鼠径に母指頭大のリンパ節を複数触知した。皮膚 皮疹や皮下腫瘍なし，四肢関節の腫脹，変形なし。

検査所見（表1）：PSL内服による好中球優位の白血球増多がみられた。また，肝逸脱酵素の上昇がみられ，特にLDHが高値（784U/l）であった。可溶性IL-2Rも著明に高値（34200U/l）で，抗HTLV-1抗体陽性であった。骨髄検査では明らかな腫瘍の浸潤はみられなかった。X線では，手指関節の骨びらんや骨棘はみられなかった。FDG-PET/CTでは両側頸部，鎖骨上窩，腋窩，左背側皮下，腹腔内，傍大動脈領域～腸骨領域，鼠径部に多数の腫大したリンパ節を認め，非常に強いFDGの集積を伴っていた（Fig1.）。

生検組織所見（右頸部リンパ節）：大小さまざまな異型細胞がびまん性に増殖し，免疫染色ではCD4（+），CD8（-），CD3（+），CD25（+），CD20（-），CD30（-），TIA1（-）であった（Fig2.）。サザンブロットではHTLV-1のプロウイルスのモノクローナルな組み込みが検出された。

### 臨床経過

全身的なリンパ節腫脹を認め，末梢血には異常リンパ

球がみられないこと，抗HTLV-1抗体陽性，およびリンパ節生検検体でHTLV-1のモノクローナルな組み込みを認めたことから，ATLL，リンパ腫型と診断した。初回化学療法としてmLSG15療法（VCAP-AMP-VECP：vincristine, cyclophosphamide, adriamycin, prednisolone-adriamycin, ranimustine, prednisolone-vindesine, etoposide, carboplatin, prednisolone）を行った。治療開始後1ヵ月程でリンパ節腫脹は縮小し，右頸部に数

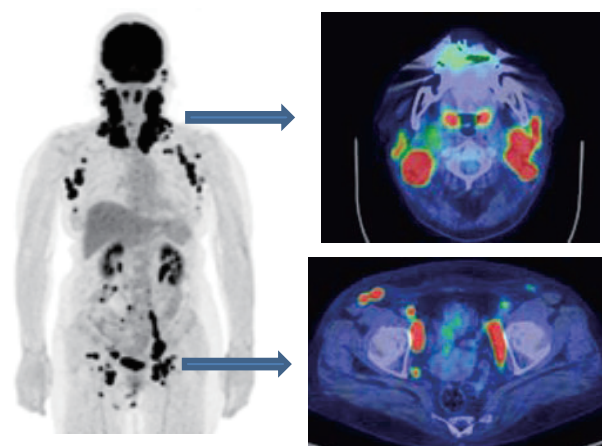


Fig1. FDG-PET/CT

両側頸部，鎖骨上窩，腋窩，腹腔内，傍大動脈領域～腸骨領域，鼠径部に著明な集積を伴うリンパ節腫脹が多数みられた。

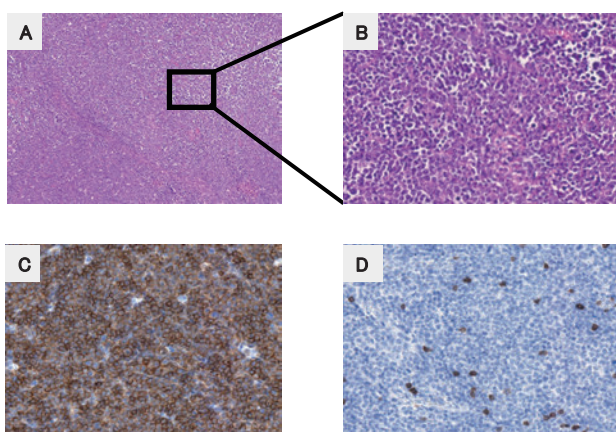


Fig 2. 病理学的検査 (右頸部リンパ節)  
 大小さまざまな異型リンパ球がびまん性に増殖しており (A, B), 免疫染色では CD4陽性 (C), CD8陰性 (D)であった。その他, CD3, CD25は陽性を示した。(A×5, B, C, D×20)

mm, 右鼠径に 1 cm 程度となり部分寛解と考えられた。初診時, 高値を示した LDH, sIL-2R はともに低下し, 関節痛も軽快した (Fig 3.)。その後, 臍帯血移植を行

うも再発し, X+2年10月に死亡した。

考 察

ATLL は1977年に初めて報告され<sup>1)</sup>, 1979年にその原因ウイルスである HTLV-1が同定された<sup>2)</sup>。HTLV-1は CD4陽性 T 細胞に感染する全長約 9 kb の δ-レトロウイルスに分類されるウイルスで, 感染者は全世界に1000-3000万人, そのうち日本では約108万人と推定されている。高浸淫地域としては, 赤道アフリカおよび南部アフリカ, イラン, ニューギニア, カリブ海沿岸, 南米, 日本の九州, 南西諸島, 四国から紀伊半島の太平洋沿岸, 隠岐, 伊豆半島, 東北地方の太平洋沿岸などが知られている<sup>3)</sup>。母乳や性行為, 輸血で感染するため, 現在は母児感染の予防のため授乳制限の指導が行われている。また, HTLV-1は ATLL のみならず, 脊髄症, ぶどう膜炎, 気管支肺胞症, 関節症などをきたすとされ, さまざまな症状で種々の診療科を受診する可能性がある<sup>3)</sup>。

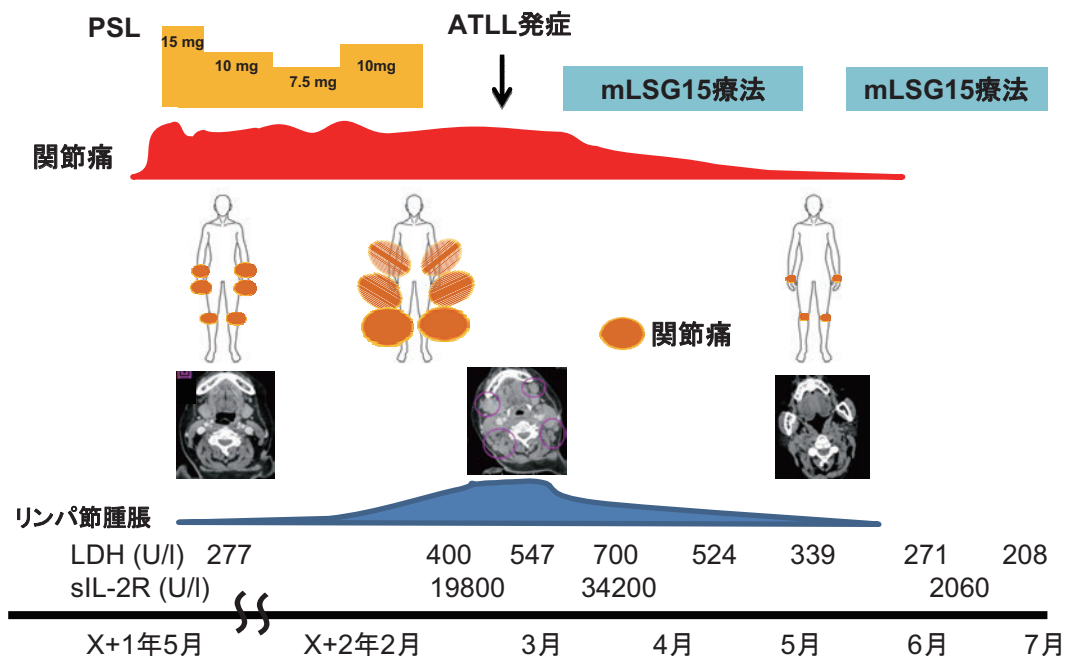


Fig 3. 臨床経過  
 ATLL が発症する前から関節の出現あり, PSL は十分な効果が得られていない状態が持続していた。関節痛の初発より25ヵ月後に頸部リンパ節の出現があり, HTLV-1陽性が発覚し, ATLL リンパ腫型と診断した。mLSG15療法を行い, リンパ節腫脹は軽快し, LDH や sIL-2R も低下し, 関節痛も軽快傾向となった。

本例はリウマチ様関節炎に対する免疫抑制療法開始25ヵ月後に ATLL が発症したが HTLV-1 キャリアに対する免疫抑制療法中に ATLL を発症した症例は、検索しうる限り10例存在した<sup>4-13)</sup> (表2)。年齢は32歳から70歳、男性が4例、女性が6例で、基礎疾患は腎移植後が4例、リウマチを含む膠原病が4例、膿疱性乾癬が1例、脊椎関節炎が1例だった。免疫抑制薬としてシクロスポリンが使用されたのが5例、プレドニゾロンが7例、アザチオプリンやミゾリビンが4例、抗リウマチ薬が2例(重複投与あり)だった。そのうち、腎移植症例はすべ

て男性、それ以外6例すべてが女性であり、そのうち5例が関節痛を呈していた。ATLLの病型は8例が急性型で、免疫抑制開始からATLL発症までは、3週間から10年と幅広く、ATLL発症後は種々の化学療法が行われるも予後不良で5例は1年以内に死亡していた。本症例も関節痛を呈した女性で、免疫抑制療法としてPSLを投与中にATLLの発症をきたしており、予後は6ヵ月と不良で過去の症例と共通点が多かった。

本例ではATLL発症時に初めてHTLV-1感染が発覚したが、臨床経過から考えてATLL発症前にみられた

表2. HTLV-1キャリアに対する免疫抑制療法中にATLLを発症した症例報告

引用文献	年齢・性	基礎疾患	関節痛	免疫抑制	ATLL発症まで	ATLLの病型	治療	転帰
4	43歳, 男性	糖尿病 腎移植後	なし	CyA, PSL	2年6ヵ月	急性型	不明	不明
5	32歳, 男性	糸球体腎炎 腎移植後	なし	CyA, MZR PSL	2ヵ月	急性型	CHOP	1年後も生存
6	61歳, 男性	IgA腎症 腎移植後	なし	CyA, AZA, PSL	9ヵ月	リンパ腫型	CHOP様	5日後死亡
7	43歳, 男性	腎移植後	なし	CyA, AZA, PSL	10年	急性型	CHOP	5ヵ月で死亡
8	67歳, 女性	膿疱性乾癬	なし	CyA	3週間	急性型	不明	1年後も生存
9	68歳, 女性	混合性 結合織病	あり	PSL	1年	急性型	種々の 化学療法	10ヵ月後に死亡
10	57歳, 女性	全身性エリテ マトーデス	あり	AZA, PSL	8年	急性型	CHOP様	3日後死亡
11	63歳, 女性	全身性エリテ マトーデス	あり	PSL	4年7ヵ月	急性型	多剤併用化 学療法	3ヵ月で死亡
12	69歳, 女性	脊椎関節炎	あり	adalimumab	2年3ヵ月	慢性型	INF- $\alpha$ zidovudine	16ヵ月後に寛解
13	70歳, 女性	関節リウマチ	あり	TCZ MTX	6年	急性型	mLSG15	9ヵ月後に寛解
本症例	64歳, 女性	リウマチ様 関節痛	あり	PSL	2年1ヵ月	リンパ腫型	mLSG15	6ヵ月で死亡

表2 abbreviation

CyA : cyclosporineA

PSL : prednisolone

MZR : mizoribine

AZA : azathiopurine

TCZ : tocilizumab

MTX : methotrexate

INF- $\alpha$  : interferon- $\alpha$

CHOP : cyclophosphamide, adriamycin, vincristine, and prednisolone

mLSG15 : VCAP+AMP+VECP

(vincristine+cyclophosphamide+adriamycin+prednisolone)

+ (Adriamycin, ranimustine, prednisolone)

+ (vindesine, etoposide, carboplatin, prednisolone)

関節痛は HTLV-1 関連関節症と考えられた。1980年代に ATLL に関節症が合併した例が初めて報告され<sup>14-16)</sup>、以後 HTLV-1 キャリアにおいても関節症の発症がみられ、患者の滑膜細胞から HTLV-1 が検出され HTLV-1 関連関節症が提唱された<sup>17,18)</sup>。症状は関節リウマチと類似し、身体所見上は鑑別が困難で組織学的にも滑膜細胞の増生がみられる点で共通しているが、関節リウマチと比べて罹患期間の割に関節破壊が軽微であるとされる<sup>19)</sup>。HTLV-1 感染自体は関節リウマチとの関連が明らかにならないとする報告もある<sup>20,21)</sup>一方で、HTLV-1 による関節症発症の詳細な分子機序は明らかではないが、滑膜細胞に感染した HTLV-1 の *tax* 遺伝子が滑膜細胞の増殖を惹起させると報告されている<sup>19)</sup>。さらに、Kato らは 4 人の HTLV-1 関連関節症患者の滑膜細胞に浸潤した T 細胞を検討したところ、24.9% の T 細胞が HTLV-1 の *env* 蛋白を認識していたことから、*env* 蛋白が重要な役割を果たしていると推察している<sup>23)</sup>。HTLV-1 関連関節症に対する治療法は確立されておらず、関節リウマチに準じた免疫抑制療法が試されているのが現状である。長崎県で女性のリウマチ患者と健常人で HTLV-1 感染率を調査した症例対照研究では、リウマチ患者では 113 人中 23 名 (20.4%)、健常人では 19796 人中 822 名 (4.2%) が HTLV-1 に感染しており、HTLV-1 感染による慢性炎症と関節リウマチの発症との関係性が疑われている<sup>22)</sup>。しかし、HTLV-1 キャリアのなかでも関節症を呈する例や関節リウマチを合併する例は、正確な疫学は報告されていないがごく一部と考えられている。

HTLV-1 キャリアに腎移植を行い、移植後に免疫抑制剤を投与した多数例の検討では、免疫抑制療法を行っても ATLL の発症はほとんどみられなかったとする報告が散見される<sup>24-26)</sup>。したがって、関節症を呈する HTLV-1 キャリアに免疫抑制療法を行っても全例に ATLL が発症するわけではないと考えられる。しかし、本症例のように免疫抑制療法中に ATLL を発症した症例報告がみられるため、免疫抑制療法を行う際には、HTLV-1 感染の有無、リンパ節腫脹や末梢血中の異常リンパ球の有無、ATLL の病変としての皮疹の出現の有無などに対して注意深い観察が必要である。HTLV-1 キャリアや HTLV-1 関連関節症に対する免疫抑制療法についてはまだまだ不

明な点が多く、今後さらに症例を集積する必要がある。

## 結 語

HTLV-1 関連関節症に対する免疫抑制療法中に ATLL を発症した症例を経験した。難治性の血清学的陰性の多発関節症の原因として HTLV-1 感染症を念頭におく必要がある。また、HTLV-1 キャリアに対する免疫抑制療法の際は ATLL の発症に注意すべきである。

## 謝 辞

本症例の病理学的診断を行っていただいた、徳島大学病院 病理部の常松貴明先生、常山幸一先生、上原久典先生に深謝いたします。

## 文 献

- 1) Uchiyama, T.Y.J., Sagawa, K., Takatsuki, K., Uchino, H.: Adult T-cell leukemia: clinical and hematologic features of 16 cases. *Blood*, 50(3): 481-492, 1977
- 2) Gallo, R.C.: The discovery of the first human retrovirus: HTLV-1 and HTLV-2. *Retrovirology*, 2: 17, 2005
- 3) 内丸薫: HTLV-1 関連疾患の疫学. 日内会誌, 106(7): 1370-1375, 2017
- 4) Zanke, B.W., Rush, D.N., Jeffery, J.R., Israels, L.G.: HTLV-1 T cell lymphoma in a cyclosporine-treated renal transplant patient. *Transplantation*, 48(4): 695-697, 1989
- 5) Tsurumi, H., Tani, K., Tsuruta, T., Shirato, R., *et al.*: Adult T-cell leukemia developing during immunosuppressive treatment in a renal transplant recipient. *Am. J. Hematol.*, 41(4): 292-294, 1992
- 6) Jenks, P.J., Barrett, W.Y., Raftery, M.J., Kelsey, S.M., *et al.*: Development of human T-cell lymphotropic virus type I-associated adult T-cell leukemia/lymphoma during immunosuppressive treatment following renal transplantation. *Clin. Infect. Dis.*, 21(4):

- 992-993, 1995
- 7) Ichikawa, Y., Iida, M., Ebisui, C., Fujio, C., *et al.*: A case study of adult T-cell lymphoma in a kidney transplant patient. *Transplant. Proc.*, **32**(7) : 1982-1983, 2000
  - 8) 幸田公, 竹内常, 新村眞: シクロスポリンによる膿疱性乾癬治療中に紅色局面で診断された成人 T 細胞リンパ腫の 1 例. *臨床皮膚科*, **58**(7) : 569-571, 2004
  - 9) Fujiwara, H., Nakamura, D., Kukita, T., Hamada, H., *et al.*: Immunosuppressive treatment for mixed connective tissue disease may facilitate the development of adult T cell leukemia/lymphoma in a HTLV-I carrier. *Intern. Med.*, **45**(5) : 297-301, 2006
  - 10) Fritsch-Stork, R.D., Leguit, R.J., Derksen, R.H.: Rapidly fatal HTLV-1-associated T-cell leukemia/lymphoma in a patient with SLE. *Nat. Rev. Rheumatol.*, **5**(5) : 283-287, 2009
  - 11) Shimamoto, Y., Nomura, S., Ishii, K., Shimizu, M., *et al.*: Adult T-cell leukemia after immunosuppressive therapy for systemic lupus erythematosus. *Int. J. Hematol.*, **89**(1) : 128-129, 2009
  - 12) Bittencourt, A.L., Oliveira, P.D., Bittencourt, V.G., Carvalho, E.M., *et al.*: Adult T-cell leukemia/lymphoma triggered by adalimumab. *J. Clin. Virol.*, **58**(2) : 494-496, 2013
  - 13) Nakamura, H., Ueki, Y., Saito, S., Horai, Y., *et al.*: Development of adult T-cell leukemia in a patient with rheumatoid arthritis treated with tocilizumab. *Intern. Med.*, **52**(17) : 1983-1986, 2013
  - 14) Haynes, B.F., Miller, S.E., Palker, T.J., Moore, J.O., *et al.*: Identification of human T cell leukemia virus in a Japanese patient with adult T cell leukemia and cutaneous lymphomatous vasculitis. *Proc. Natl. Acad. Sci. USA*, **80**(7) : 2054-2058, 1983
  - 15) Harden, E.A., Moore, J.O., Haynes, B.F., Leukemia-associated arthritis: identification of leukemic cells in synovial fluid using monoclonal and polyclonal antibodies. *Arthritis Rheum.*, **27**(11) : 1306-1308, 1984
  - 16) Taniguchi, A., Takenaka, Y., Noda, Y., Ueno, Y., *et al.*: Adult T cell leukemia presenting with proliferative synovitis. *Arthritis. Rheum.*, **31**(8) : 1076-1077, 1988
  - 17) Ijichi, S., Matsuda, T., Maruyama, I., Izumihara, T., *et al.*: Arthritis in a human T lymphotropic virus type I (HTLV-I) carrier. *Ann. Rheum. Dis.*, **49**(9) : 718-721, 1990
  - 18) Kitajima, I., Yamamoto, K., Sato, K., Nakajima, Y., *et al.*: Detection of human T cell lymphotropic virus type I proviral DNA and its gene expression in synovial cells in chronic inflammatory arthropathy. *J. Clin. Invest.*, **88**(4) : 1315-1322, 1991
  - 19) Hasunuma, T., Sumida, T., Nishioka, K.: Human T cell leukemia virus type-I and rheumatoid arthritis. *Int. Rev. Immunol.*, **17**(5-6) : 291-307, 1998
  - 20) Bailer, R. T., Lazo, A., Harisdangkul, V., Ehrlich, G. D., *et al.*: Lack of evidence for human T cell lymphotropic virus type I or II infection in patients with systemic lupus erythematosus or rheumatoid arthritis. *J. Rheumatol.*, **21**(12) : 2217-2224, 1994
  - 21) Sebastian, D., Nayiager, S., York, D.Y., Mody, G.M.: Lack of association of Human T-cell lymphotropic virus type 1 (HTLV-1) infection and rheumatoid arthritis in an endemic area. *Clin. Rheumatol.*, **22**(1) : 30-32, 2003
  - 22) Eguchi, K., Origuchi, T., Takashima, H., Iwata, K., *et al.*: High seroprevalence of anti-HTLV-I antibody in rheumatoid arthritis. *Arthritis. Rheum.*, **39**(3) : 463-466, 1996
  - 23) Kato, T., Asahara, H., Kurokawa, M.S., Fujisawa, K., *et al.*: HTLV-I env protein acts as a major antigen in patients with HTLV-I-associated arthropathy. *Clin. Rheumatol.*, **23**(5) : 400-409, 2004
  - 24) Naghibi, O., Nazemian, F., Naghibi, M., Ali Javidi, D.B.: Prognosis of HTLV-1 positive renal transplant recipients in Iran. *Saudi J. Kidney Dis. Transpl.*, **22**(4) : 670-674, 2011
  - 25) 山内淳, 八木下尚, 安藤仁, 佐藤知, *et al.*: Human T-lymphotropic virus type I 感染者における腎移植の影響. *日本臨床腎移植学会雑誌*, **1**(1) : 55-60, 2013

- 26) Nakamura, N., Tamaru, S., Ohshima, K., Tanaka, M., *et al.*: Prognosis of HTLV-I-positive renal transplant recipients. *Transplant. Proc.*, 37(4) : 1779-1782, 2005

## *Development of adult T-cell leukemia/lymphoma during immunosuppressive therapy for human T-cell leukemia virus type 1 associated arthropathy*

*Sumiyo Yamaguchi<sup>1)</sup>, Shingen Nakamura<sup>2)</sup>, Satoshi Sumida<sup>1)</sup>, Yusaku Maeda<sup>2)</sup>, Masahiro Oura<sup>2)</sup>, Mamiko Takahashi<sup>2)</sup>, Masami Iwasa<sup>2)</sup>, Takeshi Harada<sup>2)</sup>, Shiro Fujii<sup>2)</sup>, Hirokazu Miki<sup>3)</sup>, Kumiko Kagawa<sup>2)</sup>, Jun Kishi<sup>4)</sup>, and Masahiro Abe<sup>2)</sup>*

<sup>1)</sup>*The post-graduate Education Center, Tokushima University Hospital, Tokushima, Japan*

<sup>2)</sup>*Department of Hematology, Endocrinology and Metabolism, Institute of Biomedical Sciences, Tokushima University Graduate School, Tokushima, Japan*

<sup>3)</sup>*Division of Transfusion Medicine and Cell Therapy, Tokushima University Hospital, Tokushima, Japan*

<sup>4)</sup>*Department of Respiratory Medicine and Rheumatology, Institute of Biomedical Sciences, the University of Tokushima Graduate School, Tokushima, Japan*

### SUMMARY

A 64-year-old woman presented with lower leg edema, fever, and bilateral joint pain, involving the wrists, fingers, and knees, in April 201X. Serological test results were negative for rheumatoid factor, antinuclear antibody, and anti-cyclic citrullinated peptide antibody. A diagnosis of remitting seronegative symmetrical synovitis with pitting edema syndrome, a type of seronegative rheumatoid arthritis, was made and prednisolone was administered. The joint pain was refractory to prednisolone therapy. In February, 201X+2, the patient presented with right cervical lymphadenopathy. The CT scan revealed swelling of the cervical, axillary, and inguinal lymph nodes bilaterally and rapidly enlarged. In April, 18F-fluorodeoxyglucose PET/CT scan showed an abnormal collection in the enlarged lymph nodes. The patient subsequently developed hoarseness with dyspnea and attended our department. Blood test results showed high levels of lactate dehydrogenase (547 U/L) and soluble interleukin-2 receptor (34200 IU/L) and were positive for anti-human T-cell leukemia virus type 1 (HTLV-1) antibody. Biopsy of the right cervical lymph node showed proliferation of abnormal lymphoid cells positive for CD3, CD4, and CD25 and negative for CD7. Monoclonal integration of HTLV-1 proviral DNA was detected in the lymph node. A diagnosis of adult T-cell leukemia/lymphoma (ATLL), lymphoma type was made. The pain involving multiple joints was attributed to HTLV-1 associated arthropathy. Immunosuppressive therapy for HTLV-1 carrier status may have played a role in the development of ATLL.

Key words : Adult T-cell leukemia/lymphoma, HTLV-1, rheumatoid arthritis, immunosuppressive therapy