

Pictorial Essay

回盲弁に発生した悪性リンパ腫を先進部とする 腸重積症の小児例の経験

大塩猛人, 日野昌雄, 大下正晃

国立療養所香川小児病院外科

A Case of Intussusception in Childhood Due to Malignant Lymphoma Located on Ileo-cecal Valve

Takehito Oshio, Masao Hino, Masa-aki Oshita

Department of Surgery, National Kagawa Children's Hospital

Abstract A nine-year-old boy who refused to go to school was transferred to the surgical unit due to recurrent abdominal pains over three months. His abdominal X-ray films showed mild distensions and fluid levels in the small intestine. Abdominal CT-scans revealed a mass inside the large intestine, but it was thought to be stool because of his severe constipation.

After the upper GI series, abdominal pains increased. An intussusception with leading point was diagnosed using contrast enema. Factoring in his age, the difficulty of the reduction of intussusception, and the suspected association of a tumor, an emergency laparotomy was performed. During surgery a large and firm tumor was found on the ileo-cecal valve and was thought to be malignant. The ileo-cecal valve with the tumor and 5cm of both the small and large intestine were resected and an end-to-end anastomosis was done. Histological findings showed malignant lymphoma.

The postoperative course was uneventful. Chemotherapy was administered because he was clinically diagnosed at stage II of malignant lymphoma.

Keywords Childhood, Malignant lymphoma, School refusal, Intussusception

緒 言

悪性リンパ腫が回盲弁の全周に発生し、腸重積症の先進部となった極めて稀な症例を経験したので報告する。本症例では、長期間にわたり腹痛を訴え不登校となっていたが、その原因が慢性的な消化管の通過障害であり、その診断に苦慮した。

症 例

症 例：9歳、男児。

主 訴：上腹部痛。

既往歴：父親は51歳で、41歳の高齢初産婦を母親とし、二卵性双生児の兄として帝王切開にて出生した。生来、両親に溺愛されて育ち、極めて神経質である。

原稿受付日：2000年8月10日，最終受付日：2000年9月28日

別刷請求先：〒765-8501 香川県善通寺市善通寺町2603 国立療養所香川小児病院外科 大塩猛人

家族歴：二卵性双生児の弟に異常なし。

現病歴：1999年8月11日より上腹部痛を訴え複数の病院・医師を受診し、対症療法が施行された。腹痛の原因は不明で、その後も持続して夏休み以後は不登校となった。

同年10月18日（腹痛発現後69日目）当院小児科を初診した。胃潰瘍が疑われ上部消化管透視を試みたが、少量の造影剤服用のみで以後患児の検査拒絶にあい施行できなかった。その後も腹痛があり入院を繰り返していた。なお、嘔気・嘔吐をきたしたことはなかったが、多量経口摂取、下剤投与、浣腸の施行などにて腹痛が増強していた。また、背部痛を訴え整形外科を、不登校について精神科を受診した。

11月22日（初診後35日目）腹痛発作が持続するため精査目的で外科に紹介された。

外科紹介時の現症：身長129cm、体重23.1kg、体温36.1℃、血圧120/80mmHg、胸部理学的所見異常なし。腹部所見：腹部は平坦で外見に異

常はなく、触診にて軟で、腫瘤を触れず、上腹部痛を訴えるも圧痛はなかった。

検査成績：LDHを含む血液、生化学検査、尿検査などに異常なし。CRP値は常時陽性であったが、1mg/dlを越えることはなかった。

画像検査所見：腹部単純X線写真；小児科初診6日目では、一部小腸内のガス像の拡張が認められた。外科紹介2日前では、拡張して集合した消化管ガス像があり一部に鏡面形成像が存在した。外科紹介当日では、同様に集合した消化管ガス像が存在したが鏡面形成像は消失していた（Fig.1）。腹部CT所見；少量の造影剤の服用のみで中止した消化管透視2日後に撮影された腹部CTにおいて、上行結腸と思われる部位の腫瘤様像の周囲に造影剤が存在し、その中央部にはガス像が認められた（Fig.2）。また、右



Fig. 1 Plain abdominal radiograph shows mild distensions of the small intestine

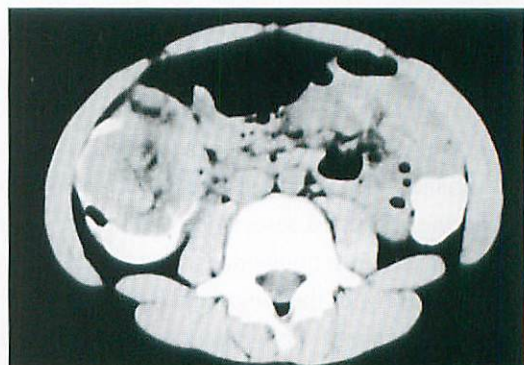


Fig. 2 Abdominal plain CT shows a mass thought to be stool inside the ascending colon

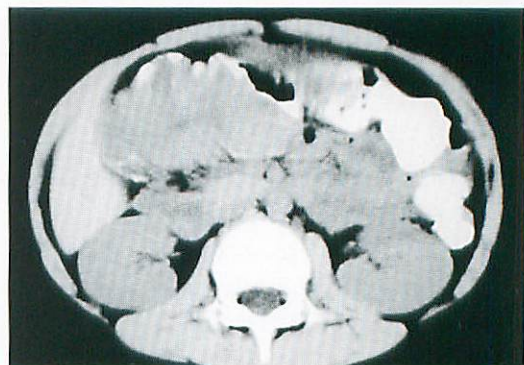


Fig. 3 CT scan at the level of the transverse colon shows a mass with contrast material and air in the peripheral colon

上腹部の横行結腸と思われる部位に連続して腫瘍様像があるが、その末梢側の結腸に造影剤およびガス像が存在した(Fig.3)。以前より便秘傾向であり、腫瘍様像は糞塊であると考えられていた。

外科紹介後の経過：長期間の腹痛の経過であり、また開腹術の既往もなく、消化管通過障害をきたす先天性疾患の存在が疑われ、患児の拒絶をおして検査を追加した。

上部消化管透視所見：胃十二指腸潰瘍の存在は明らかでなく、ガストログラフィンを含む造影剤の通過は良好で約1時間後には小腸に行きわたり、3時間後には直腸に達した。その後、腹痛が増強し嘔吐を伴ってきた。翌日、排便後に腹痛を訴え腹部X線写真にて小腸の拡張および鏡面形成像の増強が認められた。

注腸透視所見：横行結腸に先進部を有する腸重積症が認められた(Fig.4)。上行結腸途中以後は整復困難であり、年齢より腸管内腫瘍の存在が考慮され手術の方針とした。

術前診断：消化管内腫瘍を先進部とする腸重積症(腹痛発症後107日目、外科紹介後4日目)。

手術所見：全身麻酔下、右上腹部横切開にて開腹した。軽度の腹水と小腸の著明な拡張があるが、消化管の血行障害はなかった。回腸が約15cm嵌入した腸重積症であり回盲部まで容易に整復できたが、先進部は極めて硬く小児拳大の腫瘍であった。虫垂基部より盲腸に切開を加え腫瘍を露出したところ、腫瘍は一部黒色調で

回盲弁全周に及び、その中央部が陥凹して小孔があり回腸側に連続していた。回盲弁に発生した悪性腫瘍(悪性リンパ腫疑い)と診断し、回盲部・虫垂を含めて回腸および結腸をそれぞれ5cm切除し端々吻合した。腸間膜を含むリンパ節を精査したが、他に著明なリンパ節の腫脹はなかった。

病理所見：摘出標本では回盲弁の全周に及ぶ暗褐色調、 $5 \times 6 \times 2$ cmの腫瘍であり、その陥凹した回盲弁の中央部分は内腔が保たれていた(Fig.5)。組織学的にmalignant lymphoma, diffuse large cell type, Burkitt like variant, B-cellと診断された(Fig.6)。

術後経過：良好であった。Stage IIであり術後12日目から小児科に転科して化学療法が開始された。



Fig. 5 Cut section of the resected specimen shows a firm mass on the ileo-cecal valve



Fig. 4 Contrast enema shows a typical intussusception in the large intestine

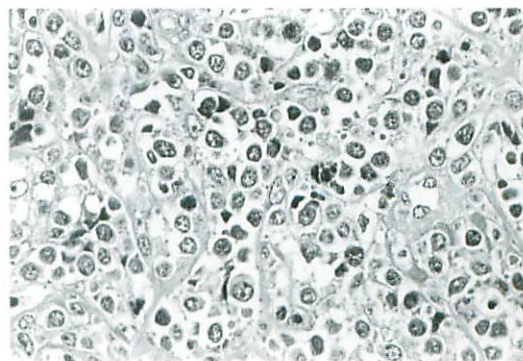


Fig. 6 Histological findings of the resected mass show malignant lymphoma

考 察

小児に発生した悪性リンパ腫による腸重積症の報告は以前より散見されているが¹⁾、極めて稀である。1980年以降に本邦にて報告掲載された症例は、われわれが調べ得た範囲内では、自験例を含めて13例であった¹⁻¹¹⁾。男児に多く発生するとされており^{4, 5)}、性別の判明した11例でも、男児7例・女児4例で男児に多かった。手術施行時の年齢は最低年齢3歳^{1, 4, 9)}から12歳¹⁰⁾であり、年長児(平均7.0歳)に発生していた。

腸重積症のうち悪性リンパ腫を先進部とする割合は低い。欧米では腹部原発の悪性リンパ腫の発生が多いとされ¹⁰⁾、Einらの報告¹²⁾では1,200例の腸重積症のうちで悪性リンパ腫は11例(0.92%)の発生率であった。一方、本邦では他の部位での悪性リンパ腫の発生が多く、腹部に原発する悪性リンパ腫は少ないとされている。われわれは小児腸重積症561例の整復のうち悪性リンパ腫は1例(0.18%)であり、塩田ら¹¹⁾は小児腸重積症701例中悪性リンパ腫1例(0.14%)の発生経験であった。

悪性リンパ腫の臨床症状として、佐々木ら⁷⁾によれば腹痛、嘔吐、下痢、発熱、腹部腫瘤、食欲不振、腹部膨満、体重減少、腸重積、下血、腹水などが挙げられているが、特有な症状は少ないとされている。

悪性リンパ腫による腸重積症の症例において、腹部症状発生より手術までの期間は症例により大きく異なっている。記載のある8例において、短期間の2~3日の2例^{6, 12)}を除けば6例は1週間以上の経過であり、うち4例^{5, 7, 9)}は1ヵ月以上の経過であった。

悪性リンパ腫による腸重積症の報告例において、術前診断は記載のある9例では7例が腸重積症で、2例が腸閉塞^{4, 9)}であった。術前に悪性リンパ腫と診断された報告例はなく、術中所見により悪性リンパ腫が疑われ、その後の病理所見により確定診断されていることが多い。山内ら¹⁰⁾の報告では腸重積症と診断した時点で

て小児例であり保存的療法を優先した。しかし、治癒せず手術した後の病理検査で悪性リンパ腫と診断され、早期の手術をすべきであったとしている。

悪性リンパ腫の腸管での発生部位は、リンパ節の多くが存在する回腸、回盲部が多いとされている^{1, 6, 10)}。今回の集計でも記載のある10件中5件が回盲部であった。重積型は腫瘍の発生部位に起因しており、回腸・結腸型が10例中6例を占めていた。

悪性リンパ腫による腸重積症の術前診断は難しいが、いわゆる乳児の特発性腸重積症と比較して異なる点として、好発年齢が年長児であり、初発症状出現よりの期間が長く⁷⁾、重篤な症例が少ないなどがある。その理由として、悪性リンパ腫による腸重積症では、年長児のため腸径に余裕があり腸管の内腔を完全に閉塞することはない¹⁾、慢性的に発生し^{3, 6)}、また自然に重積が整復されているのではないかと^{5, 6)}と考えられている。

なお、他の部位に発生した悪性リンパ腫に比して、腸重積症を伴った報告例では血液生化学検査にて異常を呈しない場合が多く、LDH値は正常範囲内^{5, 6, 10)}、CRP値は陰性⁵⁾か軽度上昇¹⁰⁾であった。われわれの症例でもLDH値は正常範囲内であり、CRP値は手術直前まで1mg/dlを越えることがなかった。

自験例では手術までに長期間を要したが、その原因として各種の要因が挙げられる。すなわち、腹痛が軽度であった。その際の腹部単純X線写真にて著明な鏡面形成像の出現がなく、また増悪傾向になかった。腹部CTにて結腸内に腫瘤像が存在していたが、2日前の経口の造影剤が末梢の肛門側に移行し、便秘であったこともあり糞塊と考えられた。血液生化学検査に悪性疾患を疑わせる異常所見がなかった。両親に溺愛され神経質で患児に負担の掛かる検査を拒絶された。また、腹痛を訴え不登校状態であったことなどがある。

一方、嘔気・嘔吐はないが、早期より多量の経口摂取、下剤投与、浣腸施行などにて腹痛が

増強していたことは消化管の通過障害の存在を示唆していた。悪性リンパ腫が回盲弁の全周に及んでいたが、硬化して中央部分に内腔の形態を保つことになり、腸重積となっても圧迫による完全な通過障害をきたすことがなかったとも考えられた。しかし、術前の上部消化管造影後の症状の増悪は、ガストログラフィンを含む造影剤に因る消化管蠕動亢進のため、硬化した回盲弁と重積した腸管の内腔の通過能力を越えたために発生したと思われる。

自験例において手術まで長期間経過した原因の一つに不登校が挙げられる。当院受診以前に複数科の医師の診察を受けていた。不登校児は腹部症状として腹痛、下痢、嘔気、嘔吐、食欲低下など多様な身体症状を訴える^{13, 14)}。しかし、不登校児のなかに器質的疾患も含まれており、それを見逃さないためには各種放射線学的検査の所見を十分に検討する必要がある。荒井¹⁵⁾は幼少時より頻発する嘔吐で小・中学とも不登校で17年間腸回転異常・腸軸捻転症が見過ごされていた症例を報告した。山登¹⁶⁾は背部痛を訴えた中学2年生で背部痛発生より不登校となり5ヵ月内科的治療を受け、その後十二指腸潰瘍穿孔にて胃切除術を施行した症例を報告した。

結 語

長期間にわたり腹痛を訴え不登校であった9歳男児で、その原因が悪性リンパ腫による腸重積症で診断に苦慮した症例を経験した。年長児の腸重積症において先進部を認める場合には、悪性リンパ腫の存在も考慮して診断と治療に当たらなければならない。

本論文の要旨は第36回日本小児放射線学会（東京）にて発表した。

●文献

- 1) 大川治夫：消化管腫瘍，消化管の悪性リンパ腫，新小児医学大系，11巻B，東京，中山書店，1980，p384-392.
- 2) 長島金二：腸重積，図説臨床小児科講座，9巻，東京，メジカルビュー社，1983，p82-89.
- 3) 田中正樹，桂 忠彦，太田 茂，他：便通障害を呈し，診断困難であったBurkitt Lymphomaの1例，小児臨 1984；39：2975.
- 4) 太田正孝，勝見正治，谷口勝俊，他：腸重積症を合併したBurkitt型リンパ腫の2例，日臨外会誌 1987；48：969-975.
- 5) 田中あゆみ，芦戸悦子，猪子香代，他：腸重積症により発見されたBurkitt lymphomaの1例と日本のBurkitt lymphoma小児報告例に関する考察，小児診療 1989；52：276-280.
- 6) 齊藤 徹，藤山純一，渡辺真央，他：腸重積の形で発症した腹部原発悪性リンパ腫の1例，山形県病医誌 1990；24：176-180.
- 7) 佐々木文章，秦 温信，真鍋邦彦，他：小児における腹部悪性リンパ腫と腹部救急外科，腹部救急診療の進歩 1991；11：717-720.
- 8) 今泉了彦：急性腹症で発生する小児がん，小児外科 1993；25：744-749.
- 9) 北原修一郎，石曾根新八，百瀬芳隆，他：小児固形腫瘍の緊急開腹症例の検討，小児外科 1993；25：750-754.
- 10) 山内希美，田辺 博，可知宏隆，他：小児に発症した小腸悪性リンパ腫による腸重積症の1例，小児外科 1997；29：1236-1239.
- 11) 塩田仁彦，古田靖彦，太津一弘：腸重積症で発症した盲腸原発悪性リンパ腫の1例，（第41回中国四国小児がん研究会抄録，2000，高松市。）
- 12) Ein SH, Stephens CA, Shandling B, et al : Intussusception due to lymphoma. J Pediatr Surg 1986；21：786-788.
- 13) 三好邦雄：学校不適応（登校拒否）と心身の疾患による不登校の鑑別，小児科 1999；40：1788-1796.
- 14) 地寄和子：不登校児の初期のシグナルと症状，小児科 1996；28：649-652.
- 15) 荒井洋志，新田幸寿，内藤真一：病歴期間17年の腸回転異常症の1例，日小外会誌 2000；36：128.
- 16) 山登敬之：不登校と鑑別すべき疾患，小児内科 1996；28：640-644.