

—症例報告—

思春期腸重積症を発症し緊急手術後に判明した回盲部悪性リンパ腫の1例

福永 遼平¹ 植田 高弘¹ 板橋 寿和¹
石木 義人² 右田 真¹ 伊藤 保彦¹

¹日本医科大学付属病院小児科

²日本医科大学付属病院救命救急科

A Case of Ileocecal Malignant Lymphoma with Pubertal Intussusception Revealed after
Emergency Surgery

Ryohei Fukunaga¹, Takahiro Ueda¹, Toshikazu Itabashi¹,
Yoshito Ishiki², Makoto Migita¹ and Yasuhiko Itoh¹

¹Departments of Pediatrics, Nippon Medical School

²Emergency and Critical Care Medicine, Nippon Medical School

Abstract

The majority of childhood intussusceptions have idiopathic causes, but 2.7% are due to an underlying disease, of which 5.5% can be attributed to malignant lymphoma. Age is an important factor in the onset of pathologically-related intussusceptions. We report a case in a 15-year-old boy who visited a prior hospital with a chief complaint of sudden-onset severe abdominal pain. Computed tomography revealed intussusception, and the patient was transferred to our hospital within several hours, where high-pressure enema reduction was performed. The ileocecum blockage could not be removed even after multiple high-pressure enemas, so emergency surgery was planned. Intraoperatively, dilation was observed at the terminal ileum, and a hard-mass tumor was palpated in the ileocecum. The ileocecal region containing the mass was excised. A diagnosis of diffuse large B-cell lymphoma was made on the basis of pathological examination, and chemotherapy was initiated. The patient has remained in remission for 2 years and is in good condition. The probability of an underlying diseases increases with age. Adolescent intussusception is often discovered due to the onset of acute abdomen and requires emergency surgery even in the absence of a prior diagnosis. The development of intussusception might be the first sign of malignant disease. In older children who have underlying diseases, as in this case, it is difficult to perform high-pressure enema reductions, even shortly after onset. In cases of intussusception in older pediatric patients, it is necessary to consider the possibility of an underlying disease and carry out early investigations accordingly.

(日本医科大学医学会誌 2020; 16: 155–159)

Key words: intussusception, malignant lymphoma, organic lesions

Correspondence to Takahiro Ueda, MD, PhD, Department of Pediatrics, Nippon Medical School, 1–1–5 Sendagi, Bunkyo-ku, Tokyo 113–8602, Japan

E-mail: yuri878t@nms.ac.jp

Journal Website (<https://www.nms.ac.jp/sh/jmanms/>)

Table 1 Laboratory data on admission

WBC	6,300 / μ L	UA	7.6 mg/dL
Neu	78.4 %	BUN	16.8 mg/dL
Lym	13.0 %	Cre	0.82 mg/dL
Blast	0.0 %	CRP	4.37 mg/dL
Hb	13.7 g/dL	ferritin	95.8 ng/mL
Plt	251,000 / μ L	sIL2-R	339 U/mL
AST	15 IU/L	PT/INR	1.07
ALT	12 IU/L	APTT	23.8 Sec
LDH	179 IU/L	Fibrinogen	410 mg/dL
CK	128 U/L	D-dimer	1.0 μ g/dL
AMY	69 U/L		
T-Bil	0.38 mg/dL		
TP	6.3 g/dL		
Alb	3.8 g/dL		

緒言

腸重積症は小児科領域では急性腹症の原因として鑑別の必要がある疾患であり、97.3%の症例は基礎疾患を持たない特発性の腸重積症であるとの報告がある¹⁾。しかし、中には基礎疾患による病的先進部を原因とした腸重積症が存在し、その中でも悪性リンパ腫による腸重積症は基礎疾患を認めた腸重積症内で5.5%の頻度であったとの報告がある¹⁾。思春期の腸重積症は急性腹症として発症し、術前診断不明のまま緊急手術を要することも少なくない。今回われわれは急性腹症を伴う腸重積症を発症し、緊急手術後に回盲部悪性リンパ腫を診断した15歳の男子を経験したので文献的に考察を加えて報告する。

症例

15歳の男子

主訴：腹痛

現病歴：入院当日、11時頃から突然の激しい腹痛を自覚し、紹介医を受診した。腹部CT検査で腸管拡張像があり急性腹症と診断され21時に当院救命センターへ紹介となった。当院でCT画像を再検討したところ、同心円状構造を認めたことにより腸重積症の診断となり、高圧浣腸整復施行目的に小児科へ紹介となった。

既往歴：特記事項なし

来院時現症：体温37.8℃、心拍数100回/min、SpO₂97% (room air)

心音：整心雑音なし 呼吸音：清 左右差なし

顔貌：苦悶様

腹部：激しい自発痛、圧痛あり 反跳痛なし 腸蠕動音亢進

血液検査：生化学検査ではCRPが4.37 mg/dLと上昇していたがLDHの上昇やその他は異常なく、血算、凝固にも異常所見はなかった。可溶性IL-2レセプター (sIL2-R) も339 U/mLと正常であった (Table 1)。

腹部造影CT検査：冠状断では結腸内に陥入した腸間膜による層状の脂肪織が認められた。回盲部に同心円状構造を認められた。いずれも腸重積に矛盾しない所見であった (Fig. 1a)。

入院後経過：発症から10時間経過した時点で5倍希釈したガストログラフィンを用いて高圧浣腸整復を施行した。横行結腸でカニ爪様の像が見られ、解除可能であったが、回盲部の閉塞部位は、高圧浣腸では複数回施行したが解除できなかった (Fig. 1b)。そのため同日緊急手術を施行した。

手術所見：

術式：回盲部切除術

術中所見：回腸末端に拡張を認め、回盲部内に腫瘤を触知した。腫瘤は硬く、手動的整復は困難であり、腫瘤を含む回盲部を切除した (Fig. 2)。

病理所見：N/C比の高い異形リンパ球が増殖しており、Starry sky細胞も認める。免疫染色ではCD20+、CD79a+、CD3+、CD5-、CD10+、CyclinD1-、bcl2+、bcl6+、MUM+、EBER-であり、Diffuse large B cell lymphomaと診断した (Fig. 3)。

治療プロトコールは日本小児白血病リンパ腫研究グループ (JPLSG) により2004年から2011年まで行わ

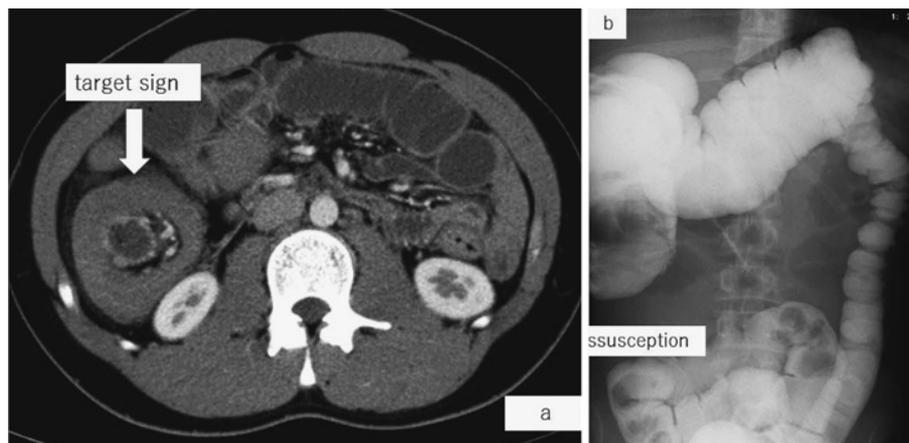


Fig. 1 abdominal enhance CT (a) and gastrografin enema (b) showing intussusception in ascending colon.

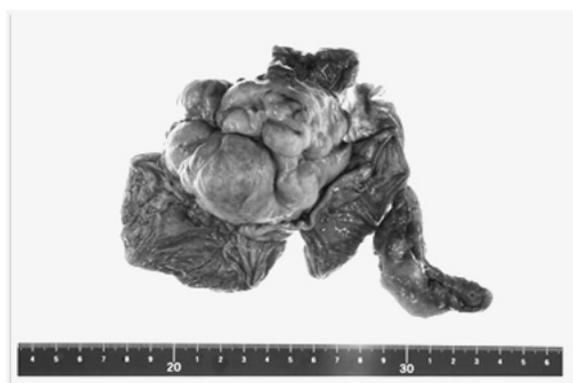


Fig. 2 Surgery method: ileocecal resection
Intraoperative finding: Dilation was observed at the terminal ileum and a tumor was palpated in the ileocecum. The mass was hard and the ileocecal region containing the mass was excised.

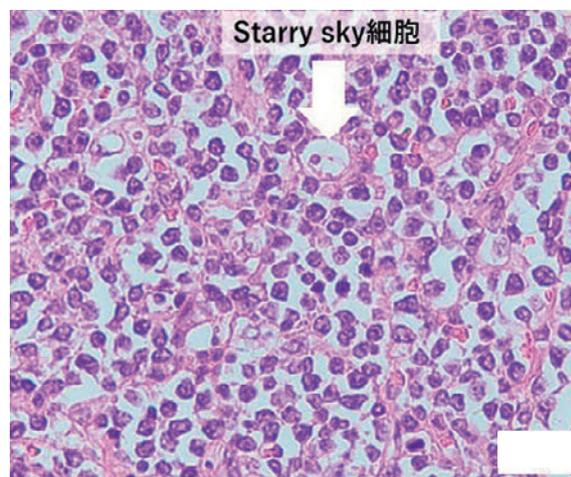


Fig. 3 Histology of the lymphoma: Starry sky appearance is evident. H-E staining.

れた臨床試験 B-NHL03 を選択した。Murphy 分類は stage II であり、腫瘍は完全摘出できていたが周辺リンパ節浸潤に関しては十分な評価がされていなかったことからグループ 2 で治療した。5 ブロックから構成される化学療法を約 4 カ月で行った。治療終了後 1 年が経過し寛解を維持している。

考 察

腸重積症を引き起こす悪性リンパ腫は B 細胞性非ホジキンリンパ腫, T 細胞性非ホジキンリンパ腫, ホジキンリンパ腫の頻度順であると報告されている²³。

小児における腸重積症は大多数が原因不明の特発性のものであるが、星野らは本邦発症の小児腸重積症の 6,681 例中 183 例 (2.7%) に基礎疾患を認めたと報告

している。内訳は Meckel 憩室が 55 例 (30.0%)、腸管重複症が 22 例 (12.0%)、若年性ポリープ 10 例 (5.5%)、悪性リンパ腫 10 例 (5.5%) であった¹。年齢と基礎疾患の関係について述べている論文は多く、基礎疾患を認めた腸重積は 0~11 カ月の腸重積の 10% 未満であったが、5~14 歳の腸重積の 60% 程度に基礎疾患を認めたとされている⁴。

小児科領域では腸重積症に対して非観血的整復法である高圧浣腸整復が施行されることが多い。調べた限りでは、基礎疾患の存在する可能性が高いと考えられる年齢の腸重積症に対する高圧浣腸整復術が禁忌であるとの報告は認めなかった。整復前のショック症状や高度の脱水症、全身状態不良例や消化管穿孔合併例、腹膜刺激症状を有する例、発症後 72 時間以上の症例は観血的整復を選択する必要があると報告されてい

Table 2 Malignant lymphoma followed by intussusception (over 10 years old)

年齢	性別	腸重積部位	初期対応	整復後再発	治療経過	診断	文献
三藤ら	13歳 男児	回腸末端から横行結腸	内視鏡的送気整復可能 生検で診断	なし	化学療法開始後、残存病変あり手術	BL	7
松土ら	29歳 男性	回盲部から上行結腸	内視鏡的注腸造影整復可能	なし	待機的手術	DLBCL	8
渡辺ら	22歳 男性	回盲部から上行結腸	右半結腸切除			BL	9
李ら	14歳 女児	回盲部	開腹生検 切除せず保存的に閉腹			DLBCL	10
岸本ら	14歳 男児	回腸結腸	回盲部手術			DLBCL	11
小倉ら	12歳 男児	回腸末端部から結腸	高压浣腸で整復不能 →開腹で整復&リンパ節生検	あり	回盲部切除術	詳細不明	12
魚谷ら	10歳 男児	上行結腸	高压浣腸で整復不能		右半結腸切除	DLBCL	13
石田ら	10歳 男児	回盲部	高压浣腸で整復可能	あり	回盲部切除術	DLBCL	14
山下ら	10歳 男児	回腸-回腸	小腸切除			DLBCL	15
三井ら	12歳 男児	回腸	高压浣腸で整復不能		回盲部切除術	BL	16

BL : Burkitt lymphoma DLBCL : diffuse large B-cell lymphoma

る⁵。一方成人における腸重積症の検討では、非観血的整復による悪性腫瘍の播種の可能性を考え、初回治療として外科的切除術が検討されるとの報告もある²。Blakelockらは基礎疾患による腸重積症、特に悪性腫瘍が関与している場合は整復できることは極めてまれであるとともに腸重積症が悪性腫瘍の最初の症状のこともであると述べている⁴。今回の症例でも、診断が発症後10時間であったため非観血的整復法をまず行った。回盲部の閉塞は複数回の整復でも解除できず緊急手術に移行した。本症例のような基礎疾患が存在する可能性のある年長児では、発症からの経過時間が短くても非観血的整復法は困難であると実感した。即座の緊急手術への移行も重要な選択肢であると思われた。一般的には腸重積発症からの経過時間が長いほど非観血的整復による整復成功率は下がり、観血的整復が必要になるとされており、高橋らの報告では発症後12時間以内の症例では92%が非観血的に整復可能であったが、発症後49時間以上経過すると、50%の症例で観血的整復術が必要であったとされている⁶。

腸重積症、悪性リンパ腫、小児というキーワードで検索した結果、10歳以上では10例の腸重積症合併例の悪性リンパ腫が報告されており、これらについて検討した (Table 2)⁷⁻¹⁶。平均年齢は14.6歳、男子が9例、女子が1例であった。初期対応としては、内視鏡的高圧浣腸を含む非観血的整復術が6例、観血的整復術が4例であった。10例中悪性リンパ腫の病理分類ではBurkitt lymphoma (BL)が3例、diffuse large B-cell lymphoma (DLBCL) 6例、詳細不明が1例であった。約半数が高圧浣腸で整復を試みており、整復できた症例が3例あったが1例で再発がおこった。Nai-Theow Ongらの報告では、後に基礎疾患が同定

された腸重積症56例のうち21例で非観血的整復術が試みられており、そのうち整復に成功したのがわずか3例でありうち2例は整復後に再発がおこったとされている¹⁷。この報告でも基礎疾患のある症例の非観血的整復は難しいことが述べられている。また、Oscar M. Navarroらの報告では非観血的整復後の腸重積再発症例の26.3%の症例で基礎疾患が同定された一方で、再発なしに治療可能であった症例の5.3%に基礎疾患が存在していたとされている¹⁸。このことは、基礎疾患があっても整復に成功したあと腸重積症の再発がおこらない症例があることも念頭において腸重積症の診療を行う必要を示唆している。

本症例では診断が入院初期に確定したためその後の化学療法は早期に始められて現在無治療生存中である。

結 語

思春期で腸重積症を発症した回盲部悪性リンパ腫を経験した。本症例のような年長児の腸重積では、急性腹症にて発症して術前診断不明なまま緊急手術を要することもある。腸重積症が最初の症状として見られることもあるので、常に基礎疾患が存在する可能性があることを念頭に置くことが重要である。

Conflict of Interest : 開示すべき利益相反はありません。

文 献

1. 星野真由美, 浅井 陽, 井上幹也ほか: 小児腸重積症の臨床的検討. 日小外会誌 2007; 43: 23-31.

2. Akbulut S: Unusual cause of adult intussusception: diffuse large B-cell non-Hodgkin's lymphoma: a case report and review. *European Review for Medical and Pharmacological Sciences* 2012; 16: 1938-1946.
3. Gupta H, Davidoff AM, Pui CH, Shochat SJ, Sandlund JT: Clinical implications and surgical management of intussusception in pediatric patients with Burkitt lymphoma. *Journal of pediatric Surgery* 2007; 42: 998-1001.
4. Blakelock RT, Beasley SW: Beasley: The clinical implications of non-idiopathic intussusception. *Pediatric Surgery Int* 1998; 14: 163-167.
5. 畑中道己, 堤 誠, 寺町昌史ほか: 腸重積症の非観血的整復時の消化管穿孔を合併した2乳児例の検討. *小児科臨床* 2007; 60: 417-421.
6. 高橋良彰, 宗崎良太, 永田公二ほか: 当科における過去10年間の腸重積症検討. *日小外会誌* 2013; 49: 904-908.
7. 三藤賢志, 上原秀一郎, 米田光宏ほか: 腸重積で発症した限局性回盲部パーキットリンパ節の13歳男児例. *日本小児血液・がん学会雑誌* 2017; 54-61.
8. 松土尊映, 石崎哲央, 榎本正統ほか: 腸重積整復後, 腹腔鏡下手術を施行した盲腸悪性リンパ腫の一例. *東医大誌* 2016; 74: 420-426.
9. 渡辺洋平, 小船戸康英, 矢澤 貴ほか: 成人回盲部原発 Burkitt リンパ腫による腸重積症の1例. *日臨外会誌* 2014; 75: 457-461.
10. 李 光鐘, 奥村健児, 大矢雄希ほか: 腸重積を伴う悪性リンパ腫を発症したSLEの一女兒例を通して一診断と外科療法における小児外科医の出番. *小外会誌* 2012; 48: 493.
11. 岸本宏志, 村上仁彦: 腸重積で発見され 45, x-y, t (8:14) (q24. 1:q32) の遺伝子転座を伴った14歳男児の Diffuse large B cell lymphoma (DLBL) の一例. *小児がん* 2011; 48: 52.
12. 小倉直人, 石田和夫: 悪性リンパ腫を先進部とした年長児腸重積症の1例. *日小外会誌* 2003; 39: 155.
13. 魚谷英之, 広川慎一郎, 長 誠司ほか: 悪性リンパ腫における腸重積症, 超音波ドップラー検査の有用性. *日小外会誌* 2002; 38: 569.
14. 石田修一, 天野芳郎, 落合二葉ほか: 腸重積を契機に診断された腹部悪性リンパ腫の3小児例: 文献的調査とともに. *日小血会* 1998; 12: 417-422.
15. 山下年成, 伊藤 寛, 全並秀司ほか: 腸重積症により発見された小児の小腸悪性リンパ腫の一例. *日小外会誌* 1998; 34: 659.
16. 三井俊朗, 縣 裕篤, 新原光喜ほか: 小腸悪性リンパ腫により腸重積症を発症した12歳男児例. *小児科臨床* 1997; 50: 949-952.
17. Ong NT, Beasley SW: The leadpoint in Intussusception. *Journal of pediatric Surgery* 1990; 25: 640-643.
18. Navarro OM, Daneman A, Chae A: Intussusception: The Use of Delayed, Repeated Reduction Attempts and the Management of Intussusceptions due to Pathologic Lead Points in Pediatric Patients. *American journal of Roentgenology* 2004; 182: 1169-1176.

(受付: 2020年1月7日)

(受理: 2020年2月10日)

日本医科大学医学会雑誌は, 本論文に対して, クリエイティブ・コモンズ表示 4.0 国際 (CC BY NC ND) ライセンス (<https://creativecommons.org/licenses/by-nc-nd/4.0/>) を採用した. ライセンス採用後も, すべての論文の著作権については, 日本医科大学医学会が保持するものとする. ライセンスが付与された論文については, 非営利目的の場合, 元の論文のクレジットを表示することを条件に, すべての者が, ダウンロード, 二次使用, 複製, 再印刷, 頒布を行うことができる.