日消外会誌 22（10）：2469～2472，1989年

回盲部腸重積で発症した小児 Burkitt 型リンパ腫の１例

北九州市立若松病院外科
伊藤　隆康　　吉田　順一　　岸川　英樹

INTUSSUSCEPTION DUE TO BURKITT'S TYPE LYMPHOMA IN AN 8-YEAR-OLD BOY

Takayasu ITO, Junichi YOSHIDA and Hideki KISHIKAWA
The Departments of Surgery Wakamatsu Municipal Hospital

索引用語：バーキット型リンパ腫，悪性リンパ腫，小児腸重積

はじめに

腸重積は小児，とりわけ生後６か月以内の乳児に発生頻度が高い．このうち95％は特発性のものであるが残りの５％は，メッケル憩室・良性腫瘍やリンパろ胞過形成などが原因となっている[1]．そして年長になるにつれ器質的疾患が原因となる率が増加してくる[2]．今回，回腸のバーキット型リンパ腫が先進部となり，腸重積を合併した症例を経験したので報告する．

症　例

患者：８歳，男子．

主訴：腹痛・嘔吐・右下腹部腫瘤．

既往歴：２歳の時風疹．

家族歴：特記すべきことなし．

現病歴：1988年４月19日ころより，腹痛・嘔吐が出現．近医受診し，治療により一時軽快するも７日後再び症状出現，５月２日当院小児科に紹介され入院した．入院後も症状が持続し，腹部Ｘ線写真にて鏡面像が認められ，computed tomography（CT）にて腸重積を疑われ，外科転科となった．

入院時現症：身長120cm，体重21kg．顔色不良．眼瞼結膜に貧血を認めたが，眼球強膜に黄疸はなかった．胸部にも特記すべき所見は認めなかった．腹部は平担で，右下腹部に直径4cm，弾性軟の可動性の腫瘤を触れたが圧痛・筋性防御はなかった．その他，肝・脾は触知せず，表在リンパ節の腫大も認められなかった．

入院時検査所見：軽度の貧血と便潜血陽性を認めた以外，特記すべき異常所見はなかった（**表１**）．

胸部Ｘ線写真：特記すべき所見はなかった．

表１　入院時検査成績

検尿	蛋白	−	血液生化学	
	糖	−	CH-E	0.44 ⊿pH
検便	便潜血	＋	γ-GTP	6 mu/ml
			LAP	90 GR
末梢血			T.P.	6.0 g/dl
	WBC	8,600 /mm³	BUN	2.6 mg/dl
	RBC	397×10⁴ /mm³	Creat.	0.5 mg/dl
	Hb.	10.5 g/dl	Uric Acid	3.7 mg/dl
	Ht.	30.9 %	Na	138 mEq/l
	Plt.	46.8×10⁴ /mm³	K	4.4 mEq/l
			Cl	102 mEq/l
EBV-VCA			Ca	4.6 mEq/l
	IgG	160 倍	T.Bil	0.4 mg/dl
	IgM	10 倍以下	GOT	16 U
	IgA	10 倍以下	GPT	4 U
			ALP	8.0 KAU
			LDH	457 U

腹部Ｘ線写真：上腹部に鏡面像を認めた．

CT 所見：右腎の外下方に約5cm の軟部組織性の腫瘤を認めた．その内部には線状の低吸収域がみられ，重積を生じた腸管が示唆された．また，この腫瘤の前内方にも2～3cm 大の２個の腫瘤を認め，リンパ節腫大が疑われた（図１）．

逆行性大腸造影所見：上行結腸に，カニばさみ様の陰影欠損を認めた（図２左）．用手的に重積を整復すると，回腸末端より10cm 口側に，類円形の腫瘤陰影を認めた（図２右）．

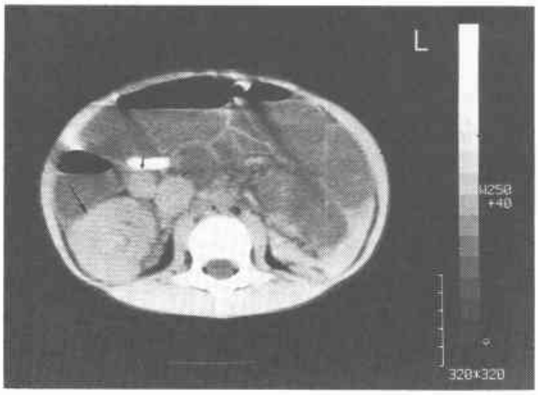
以上の所見より，回腸腫瘤が先進部となって腸重積を生じたものと診断し，５月20日手術を施行した．

手術所見：下腹部正中切開にて開腹すると腹腔内に少量の漿液性腹水がみられた．回腸末端部に回腸・回腸型の腸重積を認め，これを用手的に整復すると回腸

<1989年５月８日受理>別刷請求先：伊藤　隆康
〒812　福岡市東区馬出３－１－１　九州大学医学部第１生化学教室

末端より10cm口側に隆起性の腫瘤を触知し，その漿膜側にえくぼ形成がみられた．腫瘤近傍の1群リンパ節には，著明に腫大し灰白色を呈する3個のリンパ節を認め，肉眼的に明らかな転移と思われた．その他の腸間膜や傍大動脈リンパ節には全体的に軽度の腫大を認めるのみであった(図3)．そこで，口側は腫瘤より10cm離して回腸を切離し，2群までのリンパ節郭清を含めた右結腸切除を行い，回腸結腸の端端吻合を施行した．なお，後腹膜，肝臓や，その他の腹腔内臓器に浸潤や転移を認めなかった．

図1　腹部CT所見：腹側に液の充満した腸管がみられる．右外下方に約5cm軟部組織性腫瘤があり(→)，内部に線状の丸いlow densityを伴っており，回盲部腸重積を示唆する．またこのmassの前内方に2～3cm大の2個のmassが認められる(→)．



摘出標本肉眼所見：回腸末端に近い粘膜側に5cm×4cmの茸状に隆起した境界明瞭な腫瘤を認め，周囲には腫大したリンパろ胞が散在してみられた（図4）．

病理組織所見：円形ないし卵円形の核を有する胞体に乏しい中型の細胞が密に増生し，その間に組織片を貪食した組織球が散在性に認められ，いわゆる'starry sky'像を呈しており，バーキット腫瘍と診断された(図5)．またリンパ節転移は1群の，肉眼的に転移陽性であった3個にのみ認められた．なお，腹水細胞診はClass IIであった．

術後経過：術後経過良好で13日目にドレーン抜去し，化学療法目的で，15日目の6月4日に九州大学医学部小児科へ転院となった．化学療法は導入・強化療法としてcyclophosphamide, methotrexate, predonineにvincristine, adriamycinを加えた多剤療法を終え，維持療法に移っているが，術後6か月目の現在のところ再発の兆しはない．

考　察

小児における腸重積は年長児，とくに6歳以上では器質的疾患が原因となる率が高くなる[2]．この中で悪性リンパ腫が原因疾患となるのは比較的まれではあるが，小腸に腫瘤を形成して，これが先進部となって腸重積を合併してくる場合がある．Schuhらは[2]，2歳から15歳までの111例の腸重積症例の検討を行い28例（25%）に器質的疾患を認めたが，うち3例（2.7%）が悪性リンパ腫であった．3例とも1週間以上の病悩期間があり，体重減少や腹部腫瘤を認め，全例に外科

図2　注腸造影：上行結腸での腸重積による陰影欠損（左）と，用手整復後の回腸末端より約10cm口側の腫瘤陰影（右）．

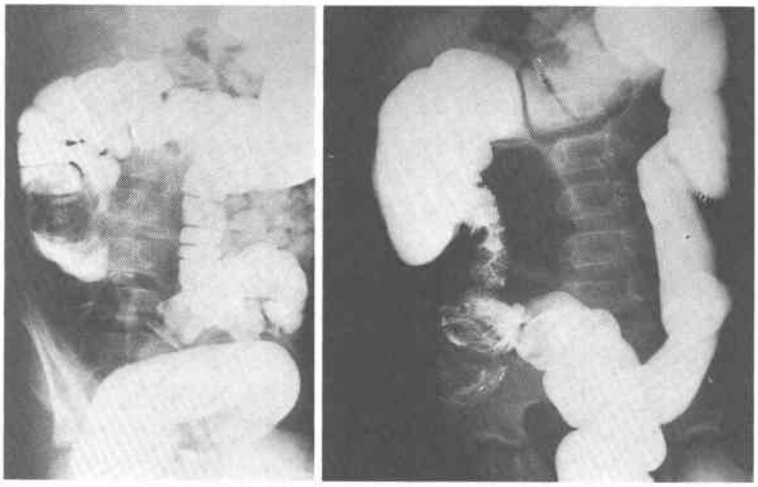


図3　術中所見：回腸末端部での回腸・回腸型の腸重積（➡）と，転移を思わせる3個のリンパ節（→）．

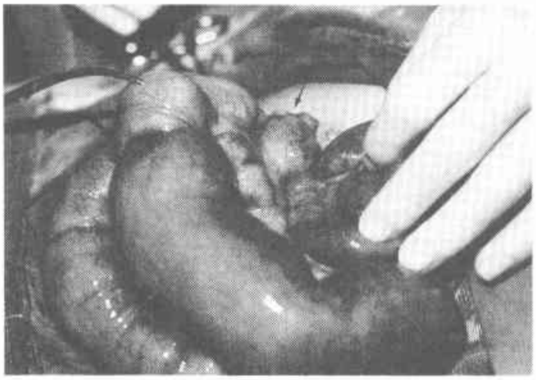


図4　切除標本：回腸末端（左側）より10cm口側の粘膜面に，直径5cm×4cmの隆起性病変を認める．周囲のリンパろ胞は腫大している．

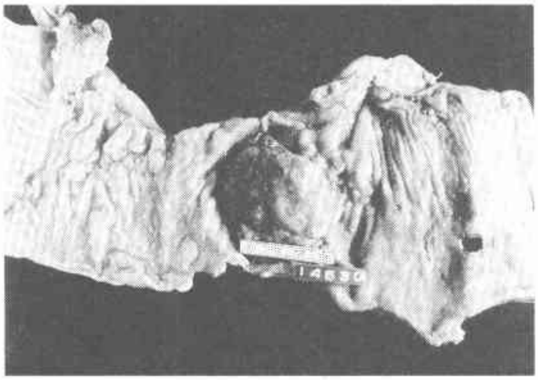
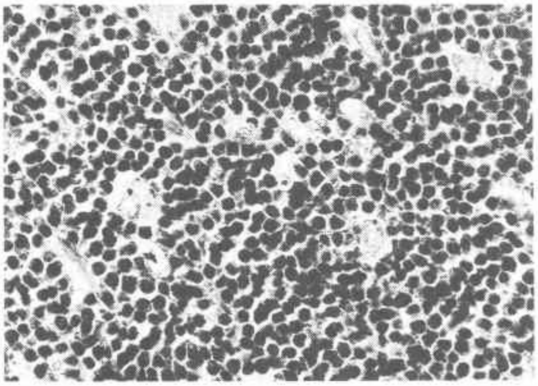


図5　病理組織所見：未分化なリンパ系細胞が密に増殖し，その間に組織片を貪食した組織球が存在し，starry sky像を呈する．（Hematoxylin-Eosin染色，520×）



治療が行われたが2例が死亡した．また，Einら[3]は1,200例の小児腸重積症例のうち，11例（0.9%）に悪性リンパ腫を認めたが，これは腸重積の原因となった器質的疾患の17%を占めており，やはり，1週間以上の腹痛，体重減少および腹部腫瘤を特徴的な臨床像とした．8例が術後数か月後に死亡したが，3例には腸切後に放射線療法や化学療法が行われ，それぞれ20年，6年，10か月の生存をみた．

ところで，バーキット腫瘍は悪性リンパ腫の中でもきわめてまれである．本症は1958年バーキット[4]により，アフリカのウガンダ地方で小児の下顎骨に特異的に発生する肉腫として初めて報告された．組織像としては未分化なリンパ球系細胞が密に増生する中に，胞体に富む大きな貪食細胞が散在する，いわゆる'starry sky'像を特徴的所見とした．

その後，バーキット腫瘍は各国でも報告されている．北米では消化管，とりわけ小腸に多いようで，Wagmeisterら[5]は2例の腸重積例を含む5例の本症の報告の中で，アフリカ例では12歳以下の小児に多く，主に下顎骨を侵すが，北米の症例では16歳から18歳に多く主として腹部を侵すと記載している．また，Al-Bahraniら[6]はイラクにおける18年間の小腸悪性リンパ腫37例を検討し，13例にバーキット型リンパ腫を認めた．その肉眼的特徴として，回腸末端あるいは回盲部に限局性に発育し，浅い潰瘍を伴う茸状の隆起性腫瘤を形成し，腸重積で発症することが多いことをあげた．またEBウイルス（EBV）抗体価の上昇は検査した5例全例にみられ，13例の平均生存期間は14か月と述べている．

一方，太田ら[7]は1987年，本邦におけるバーキット腫瘍73例を集計し検討を行っている．それによると10歳以下が49.3%と約半数を占めており，発生部位としては顎部54.8%・腹部41.1%と顎部に多い傾向がみられた．EBV抗体価陽性率は4.1%で，アフリカでの81.3%に比べかなり低い．白血病化が43.8%に起こっており，十分な化学療法にもかかわらず6か月以内に57.5%が死亡し予後はかなり不良であった．

本症に対する治療としては，外科治療・放射線・化学療法による集学的治療が重要である．化学療法ではcyclophosphamideを中心としたvincristine，methotrexate，predonisolone併用を初めとする．各種の多剤併用療法により，寛解例も報告されている[8]．

われわれの症例では，開腹時に遠隔転移や周囲への浸潤は認められず，肉眼的，組織学的にも治癒切除が

行われた．現在も化学療法を続行中で，今のところ再発の兆しはないが今後とも厳重な経過観察が必要である．

おわりに

われわれは8歳男子の回盲部の腸重積に対して手術を施行した．原因となった回腸の腫瘍は，組織学的にバーキット型リンパと診断された．本症は本邦ではいまだまれな疾患であるので，症例を報告するとともにその臨床的特徴につき言及した．

稿を終えるにあたり，ご指導を賜りました北九州市立若松病院小児科志方　出先生，九州大学医学部第2病理名越真先生に深謝いたします．

文　献

1) Nanni G, Bertoncini M, Garbini A et al: Primary lymphoblastic lymphoma of the ileocecal valve. NY State J Med 83 : 240—242, 1983
2) Schuh S, Wesson DE: Intussusception in children 2 years of age or older. Can Med Assoc J 136 : 269—272, 1987
3) Ein SH, Stephens CA, Shandling B et al: Intussusception due to lymphoma. J Pediatr Surg 21 : 786—788, 1986
4) Burkitt DP: A sarcoma involving the jaws in African children. Br J Surg 46 : 218—223, 1958
5) Wagmeister R, Roth JA, Knapp RE et al: Burkitt's lymphoma presenting with intestinal intussusception. J Med Soc NJ 76 : 841—844, 1979
6) Al-Bahrani Z, Al-Mondhiry H, Al-Saleem T et al: Primary intestinal lymphoma in Iraqi children. Oncology 43 : 243—250, 1986
7) 太田正孝，勝見正治，谷口勝俊ほか：腸重積を合併したBurkitt型リンパ腫の2例．日臨外医会誌 48 : 969—975, 1987
8) Ziegler JL: Chemotherapy of Burkitt's lyphoma. Cancer 30 : 1534—1540, 1972