

## 回腸異所性胃粘膜により繰り返し腸重積症をきたした1乳児例

<sup>1</sup>東京女子医科大学東医療センター外科<sup>2</sup>東京女子医科大学医学部外科学（第2）講座・小児外科診療部門（指導：世川 修教授）<sup>3</sup>東京女子医科大学東医療センター小児科<sup>4</sup>東京女子医科大学病理診断科

ツチヤ	マサヨシ	セガワ	オサム	カワシマ	ショウコ	ヤスダ	ユウキ
土屋	晶義 <sup>1,2</sup>	・世川	修 <sup>1,2</sup>	・川島	章子 <sup>1,2</sup>	・安田	祐希 <sup>3</sup>
スギハラ	シゲタカ	ヤマモト	トモコ	ナリタカ	ヨシヒコ	カメオカ	シンゴ
杉原	茂孝 <sup>3</sup>	・山本	智子 <sup>4</sup>	・成高	義彦 <sup>1</sup>	・亀岡	信悟 <sup>2</sup>

(受理 平成26年10月14日)

## Recurrent Intussusceptions of Infancy Caused by Heterotopic Gastric Mucosa in the Ileum

Masayoshi TSUCHIYA<sup>1,2</sup>, Osamu SEGAWA<sup>1,2</sup>, Shoko KAWASHIMA<sup>1,2</sup>, Yuki YASUDA<sup>3</sup>,  
Shigetaka SUGIHARA<sup>3</sup>, Tomoko YAMAMOTO<sup>4</sup>, Yoshihiko NARITAKA<sup>1</sup> and Shingo KAMEOKA<sup>2</sup><sup>1</sup>Department of Surgery, Tokyo Women's Medical University Medical Center East<sup>2</sup>Division of Pediatric Surgery, Department of Surgery II, Tokyo Women's Medical University<sup>3</sup>Department of Pediatrics, Tokyo Women's Medical University Medical Center East<sup>4</sup>Department of Surgical Pathology, Tokyo Women's Medical University

A 9-month-old boy presented with recurrent episodes of intussusception that were reduced using gastrografin enema at 5 months and 7 months, respectively. To investigate possible structural lesion, he underwent a small intestine contrast study, which revealed polypoid mass with a central depression in the distal ileum. While waiting for a laparoscopic operation, he had the third episode of intussusception, which was reduced using gastrografin enema. However, in 2 hours, he had another episode of intussusception, leading to an emergency laparotomy. The identified leading point located in the sigmoid colon. The ileo-ileo-colic intussusception was reduced using Hutchinson's maneuver. There was a palpable flat mass on the antimesenteric side, located 25 cm proximal to the ileocecal valve. There was no Meckel's diverticulum. A 2.5 cm segment of ileum was resected and an end-to-end anastomosis was performed. A microscopic examination revealed gastric mucosa including fundic gland with rugose type.

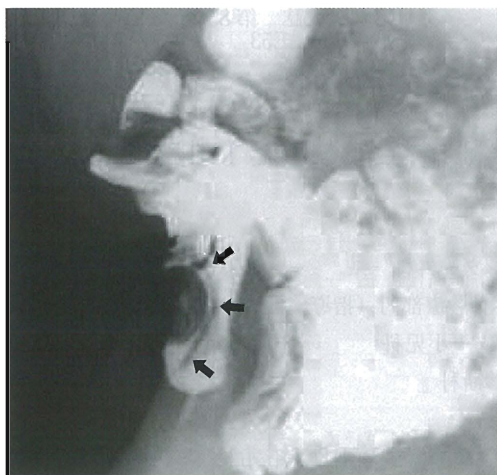
Despite a high index of suspicion for structural lesion, the patient could not help having an emergency operation, instead of scheduled less invasive treatment. Heterotopic gastric mucosa should be included as an underlying cause of recurrent intussusceptions, in the age group carrying a high incidence of intussusception. A thorough intraoperative investigation for finding heterotopic gastric mucosa is warranted.

**Key Words:** heterotopic gastric mucosa, intussusception, infancy, ileum

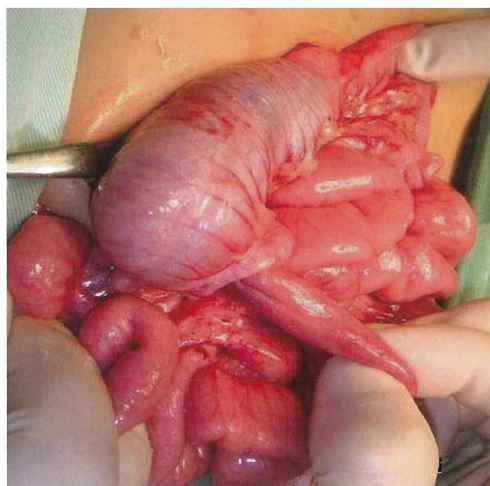
## 緒 言

小児腸重積症は乳児期から2歳までに好発し、多くは特発性であり、先進部に器質的疾患を有するも

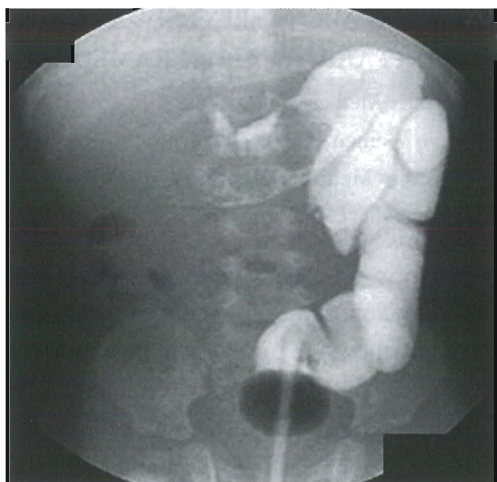
のは2～12%とされている<sup>1)</sup>。好発期であっても反復する場合や好発期を過ぎた症例では、先進部の器質的疾患を考える必要がある。その原因としては、



**Fig. 1** Small intestine contrast study  
The polypoid mass with a central depression (arrows) located in the distal ileum, in the right lower abdomen.



**Fig. 3** Intraoperative findings  
Note an ileo-ileo-colic intussusception, which was reduced using Hutchinson's maneuver.



**Fig. 2** Gastrografin enema  
Note the leading point of intussusception in small intestine reaches in the transverse colon.

Meckel 憩室, 小腸ポリープ, 悪性リンパ腫が多く, Meckel 憩室を伴わない異所性胃粘膜による腸重積症は非常に稀である. 今回我々は, 回腸異所性胃粘膜が原因で, 繰り返し腸重積症をきたした1乳児例を経験したので報告する.

### 症 例

患者: 9 ヶ月, 男児.

主訴: 間歇的腹痛, 不機嫌.

家族歴・既往歴: 特記すべきことなし.

現病歴: 5 ヶ月時と7 ヶ月時に腸重積症を発症し, いずれも高圧注腸にて整復された. 2 回目の注腸整復の際, 先進部が回盲弁を通過した後, 小腸-小腸重積が解除されるのに時間を要した. そのため, 先

進部の器質的疾患を疑い小腸造影を行ったところ, 右下腹部遠位小腸において中心に陥凹を伴う隆起性病変を示唆する透亮像を認め(Fig. 1), 腹腔鏡手術を予定した. 手術待機中に3 回目の腸重積症再発を疑う間歇的腹痛と不機嫌を認め来院した.

現症: 体重 7.7 kg, 体温 38.1°C, 心拍数 92/分, 血圧 90/50 mmHg, 呼吸数 28 回/分, 腹部は膨満なく軟. 右上腹部に腫瘤を触知. 腸蠕動音は減弱.

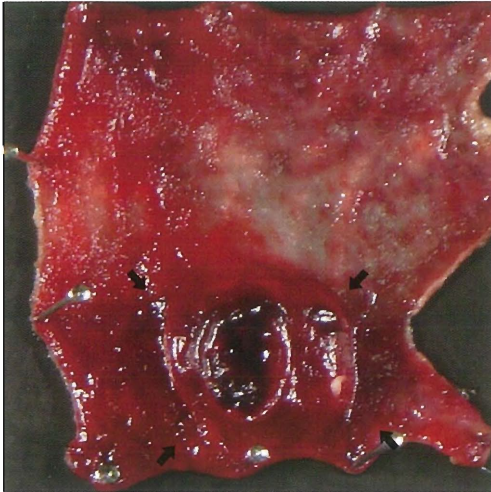
血液生化学検査: RBC  $454 \times 10^4/\mu\text{L}$ , Hb 11.9 g/dl, Ht 34.9%, WBC  $18,360/\mu\text{L}$  (NEUT 63.7%, LYMPH 33.0%, MONO 2.6%, EOS 0.5%, BASO 0.2%), Plt  $38.9 \times 10^4/\mu\text{L}$ , TP 5.9 g/dL, Alb 4.3 g/dL, BUN 9.7 mg/dL, Cre 0.19 mg/dL, AST 34 IU/L, ALT 13 IU/L, ALP 777 IU/L,  $\gamma$ -GTP 10 IU/L, Na 138 mEq/L, K 3.9 mEq/L, Cl 106 mEq/L, CRP 0.04 mg/dL. 月齢から考えると, 好中球優位の白血球数上昇を認めており, 急性炎症の存在を示していた.

腹部エックス線単純撮影: 全体的に消化管ガスは少なく, 右下腹部にわずかな小腸ガスを認めた.

腹部超音波検査: 上行結腸, 横行結腸に target sign を認めた. 先進部に low echoic mass を認めた.

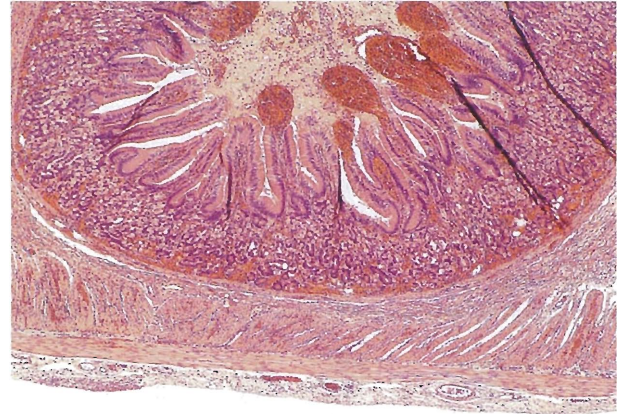
注腸造影: 先進部の器質的疾患は判明しており, 同日緊急手術の方針であったが, 手術までの待機時間中の腸管壊死を防ぐ目的で注腸整復を施行した. 横行結腸に重積腸管の先進部を認めた(Fig. 2). 高圧注腸の際, 遠位小腸で造影剤の流入が止まったが, その後近位小腸まで流入した.

来院後経過: 非観血的整復後入院としたが, 入院後2 時間で再度腸重積症を認め, 全身状態やや不良



**Fig. 4** Surgical specimen

Note a flat polypoid mass with a central depression (arrows) in the ileum.



**Fig. 5** Histopathological findings

A microscopic examination shows presence of gastric mucosa including fundic gland in the mass, accompanied by acute inflammation and hemorrhage.

であったため、緊急開腹手術を施行した。

**手術所見：**右下腹部横切開で開腹した。先進部がS状結腸まで達する回腸-回腸-結腸重積であり(Fig. 3)、Hutchinson手技で整復した。小腸全体を検索すると、回盲弁から25cm口側回腸の腸間膜対側に弾性硬の平坦な腫瘤を触知した。Meckel憩室は認めず、漿膜側に形態の変化を認めなかった。明らかな卵黄血管遺残は認めなかった。腫瘤部分を含む回腸2.5cmを切除し、端々吻合を施行した。

**病理組織所見：**肉眼的に2.0×1.5cmの中心に、陥凹を伴う隆起性病変を認めた(Fig. 4)。組織学的には胃底腺を含む異所性胃粘膜であり、強い出血と炎症細胞の浸潤が認められた(Fig. 5)。

**術後経過：**腸管蠕動の回復を待ち、術後5日目に経口摂取を開始し、その後経過は良好で術後13日目に退院した。術後3年半経過した現在、再発なく元気に過ごしている。

## 考 察

小児腸重積症において、先進部に器質的病変を有するものは2~12%とされている<sup>1)</sup>。原因としてMeckel憩室、小腸ポリープ、悪性リンパ腫などが多い。頻度は少ないが、Meckel憩室や重複腸管を伴わない異所性胃粘膜も腸重積症の原因となる。

異所性胃粘膜の成因は、胎児期の胃組織の転位・浸潤性遊走・腸粘膜の変異や異形成<sup>2)</sup>、卵黄腸管由来<sup>3)</sup>が考えられている。好発部位としては、口腔から直腸までの消化管全域と胆道系であり、原始腸管のどの部位でも可能性がある<sup>2)</sup>とされている。また、成人例を含めると、空腸異所性胃粘膜による腸重積症

の報告が散見され、発生部位として空腸と回腸で有意差はなく、腸間膜側と対側でも有意差はない<sup>4)</sup>。Chandrakamol<sup>5)</sup>は回腸の異所性胃粘膜は卵黄腸管の変異によるとし、その発生部位は腸管の発生段階で転位するため、腸間膜側か対側かは問題ではないと述べている。組織型としては、先天性のものは胃底腺の像を示し、後天性に変異・異形成をきたしたものは幽門腺の像を示す<sup>6)</sup>。異所性胃粘膜の肉眼的分類は、腸管壁内腫瘤型(rugose型およびpolyp型)と腸管壁外腫瘤型(nodular型)にわけられる。小児における異所性胃粘膜の症状は、ほとんどが腸重積症か出血で、まれに潰瘍穿孔がある。腸重積症の場合には、反復例や好発期以外での発症例において、異所性胃粘膜を含めた先進部の器質的疾患を疑う必要がある。反復する小腸出血に対し、制酸剤を使用して出血が止まる場合には、異所性胃粘膜に起因した出血が考えやすい。一方、81歳で潰瘍穿孔を起こした異所性胃粘膜が、組織学的には胃底腺像を示し先天性と考えられることより<sup>6)</sup>、一生無症状で経過することも考えられる。一般的に異所性胃粘膜を術前に診断するのは困難であるが、超音波検査、小腸造影、<sup>99mTcO<sub>4</sub></sup>シンチグラフィーが有用であるとされている。治療は病変部の切除である。

回腸異所性胃粘膜による腸重積症は、小児では現在までに英文で8例、和文で10例(自験例含む)が報告されているのみである(Table 1)<sup>4)5)7)-19)</sup>。回腸異所性胃粘膜による腸重積症の好発年齢は学童期であるが、乳幼児や成人でもみられる。好発年齢以降の腸重積症は器質的疾患を疑うが、乳児から2歳までの好発期に腸重積症を繰り返す例にも注意が必要で

**Table 1** Summary of intussusception in childhood caused by heterotopic gastric mucosa in the ileum

No.	Author	Reported year	Age	Operation times	Examination to diagnose PL	Emergency operation	Gross appearance	Distance from ICV	Vitelline vascular remnants
1	Taylor <sup>5)</sup>	1927	17 m	0	-	Death	Rugose	25 cm	N/A
2	Soule <sup>7)</sup>	1959	6 y	1	-	+	Polyp	12 cm	N/A
3	Soule <sup>7)</sup>	1959	11 y	1	-	+	Polyp	45 cm	N/A
4	Katsube <sup>8)</sup>	1974	6 y	1	-	+	Polyp	30 cm	N/A
5	Doberneck <sup>9)</sup>	1976	8 y	1	-	+	Rugose	30 cm	N/A
6	Kuze <sup>10)</sup>	1980	6 y	3	-	+	Rugose	40 cm	N/A
7	Tsukamoto <sup>11)</sup>	1984	7 y	1	Small intestine contrast study	Scheduled	Rugose	65 cm	Absent
8	Tsunoda <sup>12)</sup>	1987	2 y	2	-	+	Rugose	30 cm	N/A
9	Turck <sup>13)</sup>	1990	4 y	3	-	+	Polyp	40 cm	N/A
10	Erez <sup>14)</sup>	1991	3 m	1	-	+	Polyp	80 cm	N/A
11	Hasegawa <sup>15)</sup>	1993	13 y	2	-	+	Rugose	80 cm	N/A
12	Kawate <sup>4)</sup>	1996	13 m	1	-	+	Nodular	80 cm	N/A
13	Sato <sup>16)</sup>	1997	6 y	2	Contrast enema	Scheduled	Rugose	40 cm	Present
14	Sato <sup>16)</sup>	1997	6 y	1	-	+	Rugose	30 cm	Present
15	Elemen <sup>17)</sup>	2009	4 y	3	-	+	Rugose	50 cm	N/A
16	Hatanaka <sup>18)</sup>	2009	4 y	2	-	+	Rugose	70 cm	N/A
17	Takahashi <sup>19)</sup>	2013	9 y	1	CT after contrast enema	Urgent	Rugose	50 cm	Present
18	our case	2015	9 m	1	Small intestine contrast study	+	Rugose	25 cm	Absent

PL: pathological lesion, ICV: ileocecal valve, CT: computed tomography, N/A: not available.

-: examination to diagnose PL was not done, +: emergency operation was done.

ある。小児回腸異所性胃粘膜による腸重積症の発症例のうち、腸重積症の好発期に発症した例は18例中5例であり、うち1例は死亡例である。死亡例は、手術は施行されず輸血療法を行っていたが、消化管出血の持続により出血死し、剖検により異所性胃粘膜が関連した出血死と判明した。18例中4例は術前に先進部の器質的疾患が同定されていたが、回腸異所性胃粘膜の術前診断には至らなかった。4例のうち、症例7では、7歳時に2度腸重積症を発症し、注腸整復時は明らかな器質的病変は指摘されなかったが、好発期を過ぎた症例であり、小腸造影を行い回腸に腫瘤陰影を認めた。症例13では、2歳時に1回、4歳時に2回、6歳時に4回目の腸重積症を発症し、6歳時の注腸整復時に回腸に腫瘤陰影を認めた。症例17では9歳時に初回の腸重積症を発症し、入院経過観察中に4度の再発を認めた。4回目の整復後に造影剤を満たした状態でCTを撮影したところ回腸に腫瘤性病変を認めた。自験例では、5ヵ月時、7ヵ月時に腸重積症を発症し、7ヵ月時の整復の際に、小腸-小腸重積が解除されるのに時間を要したため、器質的疾患を疑い小腸造影を施行し、回腸に腫瘤陰影を認めた。この4例のように、好発期以外で腸重積症を発症したり、好発期内であっても反復する場合には、異所性胃粘膜を含めた先進部の器質的疾患の

存在を考える必要がある。また整復時に長時間を要したり、先進部に透亮像が認められた場合にも、同様に先進部に器質的疾患が存在する可能性が高い。異所性胃粘膜の場合、腸重積症を発症している状態での超音波検査は有用であるが、腸重積症を発症していない状態では超音波検査での描出は困難であり、小腸造影、<sup>99m</sup>TcO<sub>4</sub>シンチグラフィが有用と考える。

1死亡例を除く17例中14例が緊急手術を施行されており、そのうち非観血的整復を行わず手術を選択した例が7例（自験例含む）で、非観血的に整復できず手術に至った例が7例であった。他の3例のうち2例は待機的手術が施行され、残りの1例は非観血的整復施行後、CTにて器質的疾患を指摘し準緊急手術が施行された。この1例のみ腹腔鏡補助下手術が施行された。肉眼的分類は18例中、平坦隆起型のrugose型が12例と多く、polyp型が5例、nodular型は1例のみであった。rugose型は漿膜面の変化に乏しく、漿膜側からの触診では、触知できても腫大したパイエル板との判別は困難であり、注意が必要である。rugose型では12例中6例（50%）で、初回手術時または2回目手術時にパイエル板と判断して切除しなかった例<sup>10)</sup>や血管性紫斑病と判断した例<sup>15)</sup>、触知せず異所性胃粘膜を認識できなかった

た例<sup>16)</sup>などがあり、2回以上手術を施行されている。症例9では polyp 型であるが、初回と2回目には気付かれず3回目の手術時に術中内視鏡で病変を同定している。異所性胃粘膜を認識するポイントの1つとして、卵黄血管遺残の存在が挙げられる。佐藤ら<sup>16)</sup>は、病変部がパイエル板腫大に類似していたが卵黄血管遺残と思われる血管に気付き、切除を選択している。卵黄血管遺残を認めた例は3例あり、異所性胃粘膜の回盲弁からの距離はそれぞれ30 cm (6歳)、40 cm (6歳)、50 cm (9歳)と、比較的回盲弁に近い部位に卵黄血管遺残を認めていた。卵黄血管遺残について記載している例が少なく、その存在が異所性胃粘膜を肯定する要因にはなるが、存在しないことで異所性胃粘膜は否定できない。

本症例では、乳児期に繰り返し腸重積症を発症した。注腸整復時に器質的疾患を疑い、小腸造影にて病変部を指摘できたため待機的に腹腔鏡手術を予定したが、4回目を発症した際に全身状態不良となり、腹腔鏡は断念し緊急開腹手術を施行した。術中所見として、回盲弁から25 cm 口側回腸の腸間膜対側に腫瘤を触知した。卵黄血管遺残は認めなかったが、術前に器質的疾患を指摘できていたため病変部を切除した。近年、腸重積症に対する腹腔鏡下整復術の報告<sup>20)~22)</sup>が散見されるが、視診のみならず直接接触診することや、パイエル板との判別が難しい場合には、腸管を切開し直視下観察もしくは術中内視鏡観察を行うことが必要であると考えられる。

### 結 論

今回我々は、回腸異所性胃粘膜により繰り返し腸重積症をきたした1乳児例を経験した。好発期であっても繰り返す場合には、先進部の器質的疾患としての異所性胃粘膜も考慮すべきである。また、腸重積症に対する腹腔鏡手術は低侵襲かつ有用であるが、原因として異所性胃粘膜の存在も念頭に置き、好発期内の反復例や好発期以外での発症例の場合には、直接接触診することや直視下観察、術中内視鏡といった複合的な検索が重要である。

開示すべき利益相反状態はない。

### 文 献

- 1) Reijnen JA, Joosten HJ, Festen C: Intussusception in child 5-15 years of age. *Br J Surg* **74**: 692-693, 1987
- 2) Gray S: Heterotopic gastric mucosa in other organs. *In Embryology for Surgeons*, pp123-124, WB Saunders, Philadelphia (1972)
- 3) Chandrakamol B: Gastric heterotopia in the ileum causing hemorrhage. *J Pediatr Surg* **13**: 484-487, 1978
- 4) 川手裕義, 石曾根新八, 大倉充久ほか: 小腸の異所性胃粘膜による腸重積症の1例. *日小外会誌* **32**: 702-707, 1996
- 5) Tayler AL: The epithelial heterotopias of the alimentary tract. *J Pethol Bacteriol* **30**: 415-449, 1927
- 6) Yamada K, Terada R, Touyama H et al: Perforated peptic ulcer of the jejunum with ectopic gastric mucosa. *Acta Medica Nagasakiensia* **54**: 45-48, 2009
- 7) Soule EH, Hallenbeck GA: Polypoid gastric heterotopia of the jejunum and ileum causing subacute intestinal obstruction. *Surg Gynecol Obstet* **108**: 282-288, 1959
- 8) Katsube Y, Lebhar NH, Noto AC et al: Heterotopic gastric mucosa of ilum causing acute intussusception. *Conn Med* **38**: 156-158, 1974
- 9) Doberneck RC, Deane WM, Antoine JE: Ectopic gastric mucosa in the ileum: A cause of intussusception. *J Pediatr Surg* **11**: 99-100, 1976
- 10) 久瀬 弘, 磯本 徹, 堀谷喜公ほか: 腸重積症をきたした回腸異所性胃粘膜の1例. *小児外科* **12**: 1681-1684, 1980
- 11) 塚本能英, 鮎田昌貴, 桜井厚二ほか: 回腸異所性胃粘膜による腸重積の1例. *三重医* **28**: 152-155, 1984
- 12) 角田ゆう子, 八塚正四, 岡松孝男ほか: 回腸異所性胃粘膜が原因となった腸重積症の1例. *日小外会誌* **23**: 938-944, 1987
- 13) Turck D, Bonneville M, Gottrand F et al: Intraoperative endoscopic diagnosis of heterotopic gastric mucosa in the ileum causing recurrent acute intussusception. *J Pediatr Gastroenterol Nutr* **11**: 275-278, 1990
- 14) Erez I, Kovalivker M, Lew S et al: Ectopic gastric mucosa in a polyp causing ileo-ileo intussusception: A case report of a three-month-old baby. *Eur J Pediatr Surg* **1**: 118-120, 1991
- 15) 長谷川景子, 伊藤泰雄, 葦澤融司ほか: メッケル憩室を伴わない回腸異所性胃粘膜症の1例. *日小外会誌* **29**: 1287-1291, 1993
- 16) 佐藤恭久, 戸谷拓二, 渡辺泰宏ほか: パイエル板腫大に類似した小腸異所性胃粘膜による腸重積症の2例. *日小外会誌* **33**: 832-836, 1997
- 17) Elemen L, Oz F, Erdogan E: Heterotopic gastric mucosa leading to recurrent intussusceptions: Report of a case. *Surg Today* **39**: 444-447, 2009
- 18) 畑中政博, 石丸由紀, 田原和典ほか: 小児腸重積症再発例の検討: 特に好発年齢を過ぎた再発例について. *日小外会誌* **45**: 193-198, 2009
- 19) 高橋正貴, 渡邊稔彦, 田中秀明ほか: 術前に回腸腫瘍を疑われた, 異所性胃粘膜を先進部とした腸重積症の1例. *日小外会誌* **49**: 225-230, 2013
- 20) 園田真理, 佐藤正人, 服部健吾ほか: 小児腸重積に対する腹腔鏡下手術症例の検討. *日腹部救急会誌* **31**: 63-66, 2011
- 21) 神保教広, 内田広夫, 田中裕次郎ほか: 腸重積症に対する腹腔鏡下整復術の有用性. *日小外会誌* **49**: 25-28, 2013
- 22) 大割 貢, 米倉竹夫, 山内勝治ほか: 単孔式腹腔鏡下整復術を施行した小児腸重積症の3例. *日小外会誌* **49**: 256-260, 2013