

儿童回盲部Burkitt淋巴瘤并发肠套叠1例并文献复习

臧子琪^{1,2}, 李昕雨^{1,3}, 弥杰², 张桓瑜², 姜忠², 董蓓^{1,2*}

¹青岛大学, 医学部, 山东 青岛

²青岛大学附属医院, 小儿外科, 山东 青岛

³青岛大学附属医院, 肝胆胰脾外科, 山东 青岛

收稿日期: 2024年3月27日; 录用日期: 2024年4月21日; 发布日期: 2024年4月29日

摘要

Burkitt淋巴瘤是发生于儿童时期的罕见恶性肿瘤, 原发于消化道的Burkitt淋巴瘤起病隐匿, 难以及时发现。有些患儿会因肠道肿瘤导致继发性肠套叠, 出现相应的临床症状而就诊。本文报道1例回盲部Burkitt淋巴瘤并发肠套叠的病例, 患儿因间断腹痛1周入院, 行B超检查提示回肠末端淋巴瘤并肠套叠, 行空气灌肠后复发肠套叠, 急诊剖腹探查, 术中见回肠套入盲肠, 盲肠内触及肿物, 术中诊断: 回盲型肠套叠; 盲肠肿物。复位套叠肠管, 行病变肠管扩大切除 + 肠吻合术, 切取回盲部淋巴结3枚及病变肠管一同送病理活组织检查, 病理结果诊断为Burkitt淋巴瘤, 肠管切缘及淋巴结未见累及。术后患儿接受化疗, 脑脊液检查、PET/CT均未发现肿瘤病灶。本文结合此病例复习相关文献并进行总结, 为临床诊治提供依据。

关键词

Burkitt淋巴瘤, 结肠肿瘤, 肠套叠, 继发性肠套叠, 儿童

Childhood Burkitt Lymphoma with Intussusception in the Ileocecal Region: A Case Report and Literature Review

Ziqi Zang^{1,2}, Xinyu Li^{1,3}, Jie Mi², Huanyu Zhang², Zhong Jiang², Qian Dong^{1,2*}

¹School of Medicine, Qingdao University, Qingdao Shandong

²Department of Pediatric Surgery, Affiliated Hospital of Qingdao University, Qingdao Shandong

³Department of Hepatobiliary and Pancreatic Surgery, Affiliated Hospital of Qingdao University, Qingdao Shandong

Received: Mar. 27th, 2024; accepted: Apr. 21st, 2024; published: Apr. 29th, 2024

*通讯作者。

文章引用: 臧子琪, 李昕雨, 弥杰, 张桓瑜, 姜忠, 董蓓. 儿童回盲部 Burkitt 淋巴瘤并发肠套叠 1 例并文献复习[J]. 临床医学进展, 2024, 14(4): 2454-2459. DOI: 10.12677/acm.2024.1441314

Abstract

Burkitt lymphoma is a rare malignant tumor that occurs in childhood. Primary Burkitt lymphoma in the gastrointestinal tract often presents with nonspecific symptoms, making early detection challenging. Some children may develop secondary intussusception due to intestinal tumors, leading to corresponding clinical symptoms and seeking medical attention. This article reports a case of Burkitt lymphoma in the ileocecal region complicated by intussusception in a child. The patient was admitted for intermittent abdominal pain lasting for a week. Ultrasonography suggested ileocecal lymphoma with intussusception. After recurrence of intussusception following air enema, emergency laparotomy was performed. Intraoperatively, intussusception of the ileum into the cecum was found, with a palpable mass in the cecum. The intraoperative diagnosis was ileocecal intussusception and cecal mass. Reduction of the intussuscepted bowel followed by segmental resection and anastomosis was performed. Three ileocecal lymph nodes and the involved bowel segment were sent for pathological examination, which confirmed Burkitt lymphoma without involvement of surgical margins and lymph nodes. The patient underwent postoperative chemotherapy, with negative findings for tumor foci in cerebrospinal fluid and post-chemotherapy whole-body PET-CT scans. This case is presented along with a review of relevant literature to provide a basis for clinical diagnosis and treatment.

Keywords

Burkitt Lymphoma, Colon Tumor, Intussusception, Secondary Intussusception, Children

Copyright © 2024 by author(s) and Hans Publishers Inc.

This work is licensed under the Creative Commons Attribution International License (CC BY 4.0).

<http://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>



Open Access

1. 引言

Burkitt 淋巴瘤发生于儿童及青少年期，发病率低，恶性程度很高，原发灶在回盲部最为多见[1] [2]。Burkitt 淋巴瘤侵袭性强，病情进展快，患儿早期无特殊表现，发现时往往已是晚期[3] [4] [5]。回盲部淋巴瘤可作为诱因引发继发性肠套叠[6]，当患儿因肠套叠症状就诊时，经超声或 CT 检查可以发现肿瘤[7]，提升诊断准确率并及时手术，有利于该类患儿的预后[8]。我院曾收治 1 名回盲部 Burkitt 淋巴瘤并发肠套叠的患儿，诊治过程如下。

2. 临床资料

2.1. 病史及相关检查

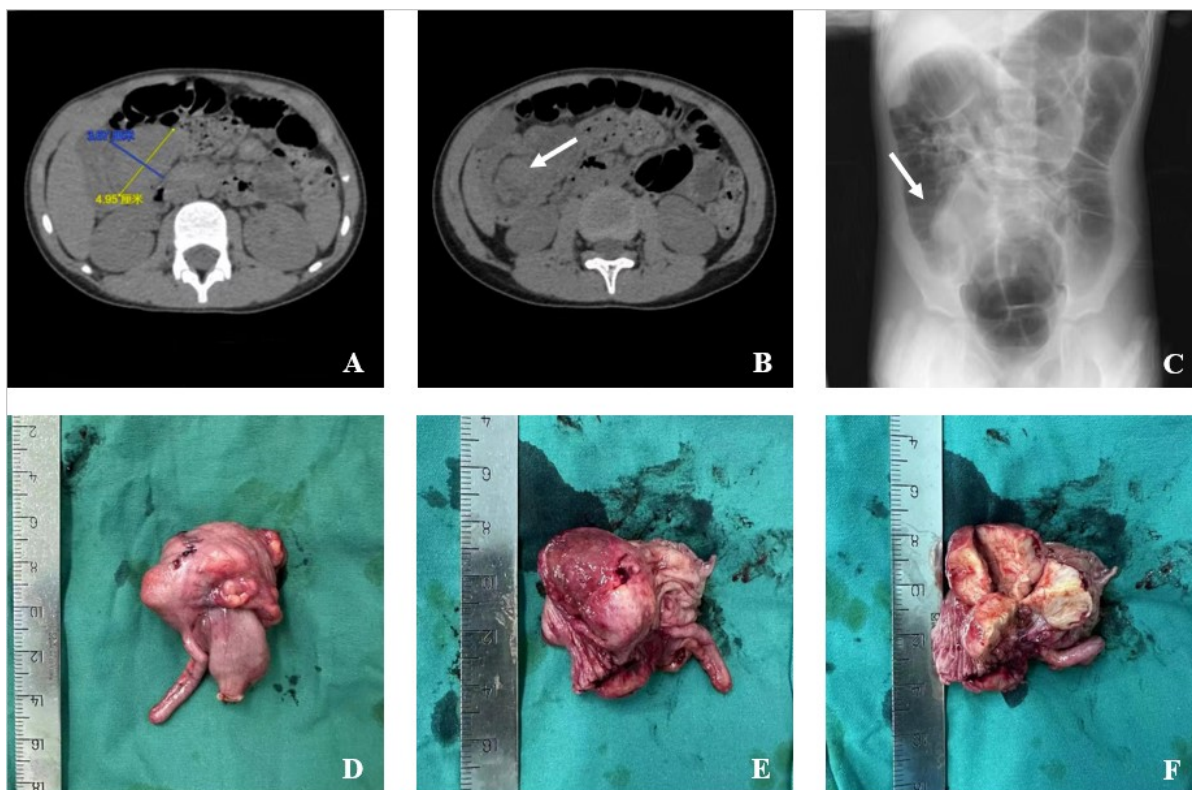
患儿男，7 岁，因“间断腹痛 1 周”于 2024 年 1 月 17 日入我院。患儿 1 周前无明显诱因出现腹痛，脐周为著，呈阵发性，伴呕吐，无发热、腹泻、血便。至我院小儿外科门诊就诊，行腹部肿块超声检查所见：右中上腹腔探及一混杂回声包块，由两段肠管套叠而成，横切面呈“同心圆征”，范围 5.8 cm × 4.2 cm，纵切面呈“套筒征”，其内似为回肠，另可见 4.5 cm × 3.8 cm × 3.3 cm 低回声团，形态不规则，边界不清，与回肠关系密切，提示回肠末端淋巴瘤并肠套叠可能。

患儿入院后查体：体温 36.5℃、脉搏 96 次/分、呼吸 24 次/分、血压 118/64 mmHg (1 mm Hg = 0.133

kPa)。一般状况可，腹平软，右腹部可触及一肿物，约 5 cm × 4 cm 大小，质韧，全腹无压痛及反跳痛，肠鸣音略亢进。血常规、电解质、肝功、肾功、血凝常规等检查均未见异常。完善 CT 检查(图 1A、图 1B)。患儿全身状况良好，考虑首选空气灌肠复位以解除梗阻，在 X 线透视下，自肛管用 10 kPa 压力注入空气，气体经肠管至回盲部时见软组织团块影，小肠逐渐进气后，回盲部仍见团块影(图 1C)。空气灌肠肠套叠整复成功，患儿回病房观察 2 小时后复查超声，再次见肠套叠征象。

2.2. 手术及病理

考虑患儿为肠腔内占位导致继发性肠套叠，且空气灌肠整复后复发，符合手术指征，完善术前准备后行剖腹探查术。取右下腹横切口，探查见回盲部肠管、肠系膜水肿，部分回肠套入结肠，挤压套叠肠管使其复位，盲肠内可触及一 5 cm × 4 cm 大小肿块，肿块基底较宽，活动度差，部分淋巴结增大，切取 3 枚淋巴结，采取病变肠管扩大切除 + 肠吻合术，将病变肠管及淋巴结送病理活组织检查(图 1D-F)。术后病理诊断为 Burkitt 淋巴瘤，侵达浆膜层，未累及回肠及结肠切缘，回盲部淋巴结未见肿瘤累及(0/3)。镜下表现：可见星空现象，肿瘤细胞遍布视野，胞质少、淡染，核深染，见大量核分裂象(图 2)。免疫组化结果：CD3(-)，CD20(+)，CD10(+)，Bcl-2(-)，Bcl-6(-)，MUM1(+)，c-Myc(+，90%)，CyclinD1(-)，CD21(-)，CD23(-)，CD30(-)，CD56(-)，Ki-67(+，约 90%)。患儿术后给予抗感染、补液治疗，恢复良好，于术后第 7 日出院，并于 2024 年 2 月 2 日于我院接受化疗治疗，随访至术后 1 月，患儿脑脊液检查、PET/CT 均未发现肿瘤病灶。



A: 腹部 CT 平扫示结肠低密度软组织肿块；B: 腹部 CT 平扫示肿块远端平面呈同心圆样改变(箭头所示)；C: X 线透视下空气灌肠，小肠进气，回盲部可见团块影(箭头所示)；D-F: 手术切除的标本，包含部分升结肠、全部盲肠、阑尾及部分回肠，解剖可见肿物位于盲肠，向管腔内凸起生长，表面肠粘膜部分缺失呈糜烂状，剖开为浅黄色、质密组织。

Figure 1. This case of Burkitt's lymphoma accompanied by intestinal intussusception images and specimens

图 1. 该例回盲部 Burkitt 淋巴瘤并发肠套叠影像及标本图片

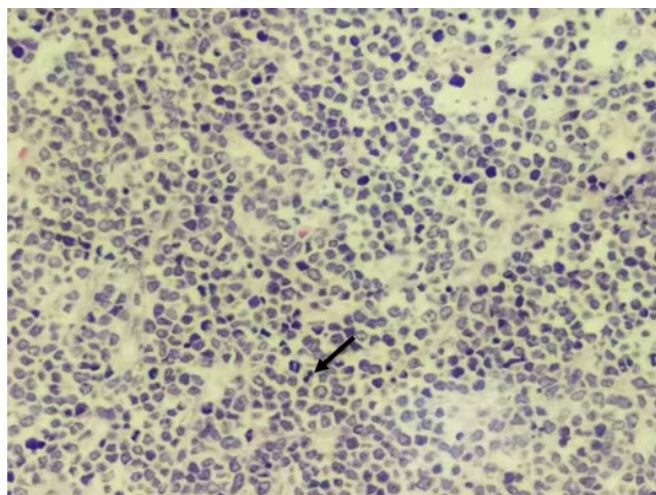


Figure 2. The pathological section of Burkitt lymphoma in blind loop, as indicated by the arrow, is a nuclear division image

图 2. 该例回盲部 Burkitt 淋巴瘤病理切片, 箭头所示为核分裂像

3. 讨论

恶性淋巴瘤是原发于淋巴结和结外淋巴组织的恶性肿瘤, 分为霍奇金淋巴瘤(HL)和非霍奇金淋巴瘤(NHL), Burkitt 淋巴瘤是儿童 NHL 中较常见的病理类型, WHO 将 Burkitt 淋巴瘤分为地方性、散发性和免疫缺陷相关性 3 种类型, 散发性 Burkitt 淋巴瘤则最常累及回盲部[4] [5]。消化道 Burkitt 淋巴瘤在影像学上主要分为肠壁增厚型、肠腔动脉瘤样扩张型、肠系膜型、息肉肿块型及混合型, 其中以肠壁增厚型与肠腔动脉瘤样扩张常见[9], 而本例中的息肉肿块型是最少见的一型。回盲部淋巴瘤早期往往无特殊临床症状, 当肿瘤较大时可出现腹痛、腹胀、腹部肿块等表现[10] [11]。在本例中, 患儿肿瘤已达 $5\text{ cm} \times 4.5\text{ cm} \times 3\text{ cm}$ 大小, 几乎堵塞肠腔, 患儿却是以规律性腹痛为主的肠套叠的症状就诊, 经影像学检查发现回盲部淋巴瘤, 可见其发病隐匿的特点。

消化道 Burkitt 淋巴瘤可通过超声诊断。息肉肿块型的超声特点是, 肠区占位, 边界不清晰, 无明显的包膜, 肠壁结构消失, 肿瘤内部回声低或极低[7]。在张天昊等人的研究中显示, 因肿瘤内部回声极低, 其图像特点与阑尾周围脓肿极为相似, 从而易将其误诊为阑尾周围脓肿[12], 这两种疾病在鉴别诊断诊断时, 除了需要超声仔细探查, 也要结合患儿体征、炎症指标等进行判断。合并肠套叠的 Burkitt 淋巴瘤, 肿瘤可位于套头内, 也可位于套叠肠管之外。位于套头内的肿瘤病灶往往体积较小, 被套入的肠管、肠系膜及淋巴结组织掩盖, 从而容易漏诊, 这需要在超声检查中尤其是套头部分仔细寻找病变[7]。位于套叠肠管之外的肿瘤, 也会因检查时发现肠套叠征象后被忽视, 因此需要超声医师在诊断肠套叠的同时注意套叠外器官有无病变, 从而减少漏诊。

肠套叠是婴幼儿期常见的急腹症, 1 岁以内多见, 随年龄增长发病率减少, 2 岁以上儿童肠套叠以继发性肠套叠为主[6] [13], 继发因素主要是梅克尔憩室、肠重复畸形、肠息肉和过敏性紫癜等, 肠道恶性肿瘤继发肠套叠较为罕见[11] [14]。肠道肿瘤引发肠套叠, 是由于肠道局部解剖结构发生改变, 可以刺激和改变肠道蠕动和引起管腔狭窄, 可作为肠套叠触发点引起肠套叠[15] [16]。在本例中, 患儿回肠套入盲肠, 首次空气灌肠整复时可见空气进入小肠, 证实整复成功, 而休息后复查超声再次出现肠套叠, 体现出因肠道局部病变继发的肠套叠易复发的特点[17]。继发性肠套叠空气灌肠不易整复, 整复失败几率较大, 本例患儿首次灌肠时过程顺利, 考虑与患儿淋巴瘤较大, 阻挡了回肠、盲肠和阑尾向结肠套入, 肠管套入不深有关。大龄儿童诊断肠套叠, 一旦发现其为难复性肠套叠或影像学检查见肠道内占位性病变, 一

一般是继发性肠套叠,需放宽手术指征,尽早行剖腹探查术[18][19]。

回盲部淋巴组织丰富,因此 Burkitt 淋巴瘤位于回盲部较为常见,而位于回盲部的 Burkitt 淋巴瘤早期无明显症状表现,待确诊时可能已经发生转移[20]。本例患儿的治疗中,我们采取病变肠管扩大切除的手术方式,并切取回盲部淋巴结送活检,病理结果提示切缘及淋巴结未见肿瘤累及,后续患儿行骨穿、腰穿、PET/CT 等检查均未发现肿瘤病灶,证明其骨髓、中枢神经系统及其他部位未受侵犯,结合免疫组化结果,从而确定化疗方案。早期诊断 Burkitt 淋巴瘤并明确分期,尽快手术及化疗,对改善患儿预后至关重要[21]。

4. 结论

本文描述了 1 例回盲部 Burkitt 淋巴瘤并发肠套叠患儿的诊疗过程,并结合文献复习,为临床诊治此类疾病提供了部分参考。综上所述,回盲部 Burkitt 淋巴瘤起病隐匿,合并肠套叠时易误诊或漏诊,临床医生需不断学习总结以提升该疾病确诊率,把握手术时机,避免延误治疗。

基金项目

该项工作得到了国家自然科学基金的资助(82293660/82293665)。

参考文献

- [1] Oliveira, M., Sampaio, K., Brito, A., Campos, M., Murao, M., Gusmão, R., Fernandes, A. and Viana, M. (2020) 30 Years of Experience with Non-Hodgkin Lymphoma in Children and Adolescents: A Retrospective Cohort Study. *Revista da Associação Médica Brasileira*, **66**, 25-30. <https://doi.org/10.1590/1806-9282.66.1.25>
- [2] Cairo, M., Sposto, R., Gerrard, M., Auperin, A., Goldman, S., Harrison, L., Pinkerton, R., et al. (2012) Advanced Stage, Increased Lactate Dehydrogenase, and Primary Site, but Not Adolescent Age (≥ 15 Years), Are Associated with an Increased Risk of Treatment Failure in Children and Adolescents with Mature B-Cell Non-Hodgkin's Lymphoma: Results of the FAB LMB 96 Study. *Journal of Clinical Oncology: Official Journal of the American Society of Clinical Oncology*, **30**, 387-393. <https://doi.org/10.1200/JCO.2010.33.3369>
- [3] 王岩, 梁晓璐, 卢迪. 小儿非霍奇金淋巴瘤 2 例[J]. 中国医学影像技术, 2015, 31(6): 965.
- [4] 于晨, 高彦荣. Burkitt 淋巴瘤的诊断和治疗进展[J]. 临床血液学杂志, 2010, 23(3): 317-320.
- [5] 郑湧智, 乐少华, 郑浩, 华雪玲, 陈再生, 郑灵, 陈彩, 李梅, 蔡春霞, 杨景辉, 陈以乔, 高琴丽, 陈莹莹, 李健, 胡建达. 儿童伯基特淋巴瘤/白血病 35 例临床特征及预后分析[J]. 中国实验血液学杂志, 2019, 27(4): 1123-1130.
- [6] 胡章春, 谭亚兰, 郭万亮, 黄志见. 儿童继发性肠套叠发病原因及治疗效果的研究[J]. 临床小儿外科杂志, 2018, 17(3): 197-201.
- [7] 董娟, 秦鸣, 陈玉龙. 儿童胃肠道 Burkitt 淋巴瘤的超声特点及漏误诊分析[J]. 中国超声医学杂志, 2022, 38(4): 470-472.
- [8] 于兵, 姜德云. 超声诊断小儿肠套叠的临床意义[J]. 中国中西医结合儿科学, 2015, 7(3): 264-265.
- [9] 杨雪君, 张正华, 郑凌琳, 杨亚英. 右半结肠 Burkitt 淋巴瘤伴肠套叠 1 例[J]. 中国医学影像学杂志, 2016, 24(3): 212-213.
- [10] 沈晨. 肠道淋巴瘤致继发性肠套叠 1 例[J]. 贵州医药, 2018, 42(8): 1006.
- [11] 庞恩文, 文樟泰, 许华莉. 以肠套叠为主要临床表现的盲肠恶性淋巴瘤一例[J]. 海南医学, 2011, 22(13): 135-136.
- [12] 张天昊, 高岩, 李洁旭, 孙良金, 曲林林, 曹景玉. 回盲部淋巴瘤误诊为阑尾周围脓肿一例并文献复习[J]. 白血病·淋巴瘤, 2015, 24(9): 563-564.
- [13] 何朝升, 杨振宇, 苏毅. 儿童回肠 Burkitt 淋巴瘤并发回回结型肠套叠一例[J]. 新医学, 2016, 47(5): 340-342.
- [14] Lee, D., Kim, H., Yang, D., Kim, S., Ryu, J., Won, K. and Lee, S. (2015) A Case of Intussusception of the Appendix Secondary to Endometriosis: US and CT Findings. *Journal of Clinical Ultrasound: JCU*, **43**, 443-446. <https://doi.org/10.1002/jcu.22188>
- [15] Nonose, R., Valenciano, J., da Silva, C., de Souza, C. and Martinez, C. (2011) Ileal Intussusception Caused by Vanek's Tumor: A Case Report. *Case Reports in Gastroenterology*, **5**, 110-116. <https://doi.org/10.1159/000326930>

-
- [16] Gupta, A., Gupta, S., Tandon, A., Kotru, M. and Kumar, S. (2011) Gastrointestinal Stromal Tumor Causing Ileo-Ileal Intussusception in an Adult Patient a Rare Presentation with Review of Literature. *The Pan African Medical Journal*, **8**, Article No. 29. <https://doi.org/10.4314/pamj.v8i1.71086>
- [17] Takeuchi, M., Osamura, T., Yasunaga, H., Horiguchi, H., Hashimoto, H. and Matsuda, S. (2012) Intussusception among Japanese Children: An Epidemiologic Study Using an Administrative Database. *BMC Pediatrics*, **12**, Article No. 36. <https://doi.org/10.1186/1471-2431-12-36>
- [18] Banapour, P., Sydorak, R. and Shaul, D. (2015) Surgical Approach to Intussusception in Older Children: Influence of Lead Points. *Journal of Pediatric Surgery*, **50**, 647-650. <https://doi.org/10.1016/j.jpedsurg.2014.09.078>
- [19] 苏真伟, 李坪. 手术治疗小儿急性肠套叠 53 例[J]. 临床小儿外科杂志, 2014(6): 562-564.
- [20] Maschan, A., Myakova, N., Aleinikova, O., Abugova, Y., Ponomareva, N., Belogurova, M., *et al.* (2019) Rituximab and Reduced-Intensity Chemotherapy in Children and Adolescents with Mature B-Cell Lymphoma: Interim Results for 231 Patients Enrolled in the Second Russian-Belorussian Multicentre Study B-NHL-2010M. *British Journal of Haematology*, **186**, 477-483. <https://doi.org/10.1111/bjh.15944>
- [21] 王颖超, 杜伟闯, 殷楚云, 宫雪, 李远方. 儿童伯基特淋巴瘤 62 例临床特征及预后分析[J]. 中国当代儿科杂志, 2022, 24(5): 561-565.