原発性シャント高ビリルビン血症と思われた1例

群馬大学医学部第一内科

黒沢 元博◇ 政本 啓 大沢奈津子 川北 勲
下条 宏 小林 敏男 小林 功 小林 節雄

群馬大学医学部第三内科

上野 達雄 島野 俊一 土屋 純

A CASE OF PROBABLE PRIMARY SHUNT HYPERBILIRUBINEMIA

Motohiro KUROSAWA, M.D., Kay MASAMOTO, M.D., Natsuko OOSAWA, M.D.,

Isao KAWAKITA, M.D. Hiroshi SIMOJOYO, M.D., Tosio KOBAYASHI, M.D.,

Isao KOBAYASHI M.D. and Setsuo KOBAYASHI, M.D.

The First Department of Internal Medicine, School of Medicine, Gunma University

Tatsuo UENO, M.D., Syunichi SIMANO M.D. and Jun TSUCHIYA M.D.

The Third Department of Internal Medicine, School of Medicine, Gunma University

概要 原発性シャント高ビリルビン血症と思われた1例を経験した。本疾患の病態生理は、骨髄内無効造血によるビリルビン生成過剰性黄疸であり、さらに赤血球自体の欠陥、処理機構の異常の関与などが考えられているが、現在のところ不明である。われわれは本例においてカロリー制限テスト、ニコチン酸テストを行ない、その結果Gilbert症のような肝の非抱合ビリルビン処理異常に対しては否定的な結論を推定した。また、ニコチン酸テストを同胞に行ない、潜在性黄疸の検出を試みたが、家族性は認められなかった。さらに3年間の臨床経過において自然寛解ともいえる状態が観察され、利用率の変動とそのほか諸検査成績の変動との間に関連性が認められ、骨髄内赤血球崩壊の程度の消長を示唆する成績がえられたことは興味ある点である。

緒 言

ビリルビンには老廃赤血球ヘムに由来する分画のほか、先駆物質投与後直ちに出現する分画があり、早期ビリルビン¹⁾²⁾とよばれ、正常では全ビリルビンのほぼ20%以内を占めている。この分画の病的増多に起因する間接型高ビリルビン血症をシャント高ビリルビン血症とよび、他疾患に随伴して起こっていない場合を原発性シャント高ビ

ルビン血症primary shunt hyperbilirubinemia³⁾⁴⁾、他疾患に随伴している場合を二次性シャント高ビリルビン血症secondary shunt hyperbilirubinemia⁵⁾とよんでいる。

われわれは最近primary shunt hyperbilirubinemia (以下P S Hと略) と思われる1症例を経験し、興味ある臨床経過を観察、さらに若干の知見をえたので報告する。

症 例

患者： K.S., 29才の男子。尿尿処理場勤務。

主訴： 全身倦怠感。

〔昭和50年4月25日受稿〕

本症例は第251回内科学会関東地方会(昭和49年10月12日)においてその要旨を発表した。

既往歴・家族歴： 特記すべきことはない。

現病歴： 昭和47年5月全身倦怠感、悪心、嘔吐、黄疸などの症状が現われ当科を受診、急性肝炎が疑われたがその後来院せず、同年7月溶血性貧血の疑いで某病院に入院。その際1,000mlの輸血をうけたが、3カ月程して症状が軽快し退院した。昭和48年4月、47年5月と同様の症状が出現し、8月から10月まで当科第1回目入院。当時の臨床診断は肝炎後高ビリルビン血症が最も疑われたが、確診はえられず、その後しばらく自覚症状なく、昭和49年3月より全身倦怠感が続き、7月精査のため当科第2回目入院となった。

入院時現症： 体格、栄養中等。脈拍毎分80整、緊張良好。脛結膜、球結膜異常なし。表在リンパ節腫脹なし。胸部では心、肺ともに理学的所見なし。腹部は平坦、軟、腫瘤、圧痛、抵抗なし。肝を半横指触知、脾は濁音界やや拡大するも触知せず。四肢の運動、知覚障害なし。腱反射正常。病的反射なし。浮腫なし。

検査成績： Table 1 のように末梢血で軽度貧血を認め、網赤血球は19%，血液塗沫標本ではわずかに球赤血球が認められたが白血球系には異常なく、尿ではウロビリノーゲンが陽性であった。肝機能検査ではMGは14倍で間接ビリルビンが1.8mg/dlと増加していた。GOT, GPT, ICG, BSP は正常であった。血清鉄、UIBC は正常で、胆のうX線検査に異常なく、シンチグラム上

Table 1. 検査成績 I

末梢血	Hb	13.9 g/dl	血清蛋白分画	異常なし
	Ht	43 %	胃・胆のうX線	異常なし
	赤血球	348×10 ⁴	肝シンチ	異常なし
	白血球	5,000	脾シンチ	脾腫大
	網赤血球	19%	免疫グロブリン	
	血液像	球赤血球(+)	IgG	740 mg/dl
血液生化学	総蛋白	6.9 g/dl	IgM	100 mg/dl
	モイレングラハット	14倍	IgA	280 mg/dl
	総ビリルビン	2.1 mg/dl	HB抗原	弱陽性
	間接ビリルビン	1.8 mg/dl		(全経過中2度 1+)
	GOT	26 mU/ml	α-フェトプロテイン	陰性
	GPT	22 mU/ml	ANF	陰性
	LDH	265 mU/ml	寒冷凝集反応	4倍以下
	alk-P-ase	44 mU/ml	クームステスト 直接	陰性
血清鉄		172 μg/dl	間接	陰性
UIBC		198 μg/dl	LDHアイソザイム	異常なし
			ICG	2%
			BSP	4%

Fig. 1. 肝組織像

軽度の脾腫を認めた。HB抗原は入院中12回検査し、2回弱陽性であった。寒冷凝集反応、クームステスト、LDHアイソザイムなどはいずれも正常であった。

腹腔鏡検査では肉眼的にとくに所見はなく、組織学的 (Fig. 1) には軽度の脂肪浸潤、および、グリコーゲン核がみられたが肝炎を思わせる所見はなかった。

血液学的検査 (Table 2) では、赤血球抵抗正常、sugar-water test 陰性で、ハプトグロビン、H

Table 2. 検査成績 II (血液学的検査)

赤血球抵抗	正常	骨髓所見	
Sugar-Water	陰性	Mbl	0.4
血餅収縮試験	正常	Promyelo	2.0
出血・凝固時間	正常	My	4.4
HBD	95	N	Mt 9.4
ハプトグロビン	104.6	St	6.0
	mg/dl	Sg	24.2
尿ウロビリノーゲン半定量		My	0.2
早朝尿にて32倍まで陽性		E	Mt 1.8
便ウロビリノーゲン定量		St	0.2
(正常値 130~250 mg/100 g便)		Sg	1.2
尿ウロビリノーゲン8倍時		Baso	0.2
で260 mg/100 g便		Mono	0
溶血指数	42.8	Lymph	9.8
		Lymphoid	1.8
		Plasma	0.2
		Macrophage	0
		Mastcell	0.2
		Reticulum	0
		Mgc	+
		Proerythro	0.2
		Macrobl	2.6
		Normobl	35.2
		Mitosis E	4
		G	2
		G/E	1.63

BDも正常であつたが、溶血指数は42.8とやや高値を示した。一方、尿ウロビリノーゲンは最高32倍希釈まで陽性で、便ウロビリノーゲンは尿ウロビリノーゲン8倍時で260mg/100g便と軽度の増加を示した。骨髓像は正細胞性ないし、やや多細胞性で、G:E=1.63:1と赤芽球系細胞が軽度増加していたが巨赤芽球はみられず、顆粒球系には著変なく、巨細胞も認められなかつた。また、erythroblastphagyはみられなかつた。なお、PAS染色、および、鉄染色は陰性であつた。

鉄動態検査の成績(Table 3)は、今回の入院時検査では利用率が10日で83%とやや低下していたが、12日には90%に達した。また、体外計測(Fig. 2)には異常を認めず、赤血球寿命は20.5日とやや低下していた。前回入院時の成績では、PIDの

Table 3. 検査成績Ⅲ (鉄動態検査)

⁵⁹ Fe 法	今回入院	前回入院
PID (T/2) (57~130)	53分	52分
利用率 (96±4%, 9日)	83% (10日)	20% (9日)
PIT (0.38~1.31)	1.289 mg/kg/日	2.395 mg/kg/日
RCIT (0.38~1.31)	1.16 mg/kg/日	0.479 mg/kg/日
循環血漿量 (♂ 45.7±9 ml/kg) (♀ 45.5±5 ml/kg)	2,800 ml	3,690 ml
体外計測	正常 (Fig. 2)	—
⁵¹ Cr 法		
見掛赤血球寿命 (T/2) (29.5±3.2)	20.5 日	22.5 日
循環血漿量 (♂ 80.0±8 ml/kg) (♀ 77.1±7 ml/kg)	4,400 ml	4,860 ml
⁵⁹ Fe 法		
利用率 (再検)	55% (9日)	

() 内は正常値

Fig. 2 体外計測

Table 4. Fe動態検査時におけるその他の検査成績

	S.48.8.28~9.12			S.49.5.28~6.15			S.49.7.8~7.22		
Hb	8.7	7.1	8.7	14.2	14.2	15.2	13.5	13.0	
LDH	6100	6600	3000	282	331	238	510	423	369
総ビ	3.7	3.8	2.4	1.6	2.1	1.8	2.5	1.2	2.0
間ビ	3.1	3.3	2.2	1.5	1.8	1.5	2.2	1.0	1.7
利用率	20% (9日)			83% (10日)			55% (9日)		
網赤血球	48%			19%					
G/E	0.47			1.63					

軽度促進、PITの上昇にもかかわらず利用率が9日で20%と著しく低下しており、RCITが低値を示したことから骨髓内無効造血¹⁰⁾¹⁸⁾の存在が考えられた。そこで利用率を再検したところ9日で55%と再び低値を示したが、12日では82%に達した。これら利用率の変動を鉄動態検査時におけるその他の検査成績と比較(Table 4)したところ、貧血のつよさ、LDH、間接ビリルビン、網赤血球数、骨髓赤芽球数などと、利用率の間に関連性が認められた。なおこの間、葉酸、V.B₁₂、鉄剤の投与、および輸血は行なわなかつた。

次に同胞5人における検索(Table 5)では、本症例をのぞいて過ビリルビン血症はみられなかつた。また、ニコチン酸テスト⁶⁾⁷⁾、カロリー制限テスト⁸⁾⁹⁾が潜在性黄疸の検出に有用であるとの報告もみられるが、本例およびその同胞においては、全例ニコチン酸テスト(Table 5, Fig. 3)は陰性で、本例のカロリー制限テスト (Fig. 4)も陰性であつた。

以上、本例は、ほぼ正常の赤血球寿命、骨髓赤芽球過形成、間接型黄疸、尿と便のウロビリノー

Table 5. ニコチン酸テスト (患者およびその同胞における)

	1	2	3	4	⑤	6
性別	♀	♂	♂	♂	♂	♀
年齢	49	46	42	36	29	28
総ビ	0.4	0.5	0.4	0.5	2.3	0.2
90分後	1.1	1.2	1.3	—	3.0	0.6
間ビ	0.3	0.3	0.3	0.5	2.0	0.2
90分後	0.9	0.9	1.0	—	2.5	0.5

Fig. 3. ニコチン酸テスト（健康人との比較）

Fig. 4. カロリー制限テスト

ゲン増加, PIDの短縮, 利用率の低下があり, 骨髓鉄染色陰性等よりsiderblastic anemiaをはじめその他secondary shunt hyperbilirubinemiaをきたす疾患を認めなかつたことからprimary shunt hyperbilirubinemiaと診断した. なお, 今回の入院中, 2回HB抗原陽性を認めたが, HB抗原で問題となるのは肝炎との関係であり, 本例では今回入院中にGOT, GPTの上昇はなく, また, 前回入院時やや上昇を認めたが同時期にはHB抗原陰性であり, 肝生検で肝炎を思わせる所見のないこと, さらに鉄動態をはじめその他の検査成績よりHB抗原との関連性は考え難い. HB抗原陽性の原因としては, 昭和47年7月溶血性貧血と診断されたときの輸血がもつとも考えられるが, 断定できない.

Fig. 5. LDH, 間接ビリルビンの推移

経過および治療: Fig. 5のようにプロクロム 900mg/dを5日間投与したところ, 間接ビリルビンはむしろ上昇傾向を示した. その後フェノバルビタール 0.1g/d投与5日目にLDH, 間接ビリルビンが正常化した, 図からも明らかのようにフェノバルビタールの効果なのか, 自然寛解といえるような状態なのかは断定できない. フェノバルビタール投与は12日で中止し, 自覚症状も改善されたため退院し, 外来通院となった. その後消化剤などの投与だけで経過観察中であるが, 間接ビリルビン, LDHはFig. 5のように推移している.

考 察

ビリルビン生成源としては, 肝, 骨髓, 老廃赤血球があげられるが, その大部分は老廃赤血球へムに由来することを確立したのは, 1950年London¹⁾, Gray²⁾による標識グリシンを用いての観察であった. この際, 彼らは標識グリシン投与後に生成され, 全体の10~20%を占めるビリルビン分画を見い出し, 早期ビリルビンとよんだ.

1959年Israels³⁾が球赤血球症があり, 赤血球の破壊や肝の抱合機能不全の認められない過ビリルビン血症4例について検討し, 脾摘後赤血球寿命は正常化した, なお黄疸の存在する1家系を経験し, この黄疸は早期ビリルビン増多に由来すると考え, primary shunt hyperbilirubinemiaと命名した. さらに彼らは, 翌年, 標識グリシンのステルコビリリンへの転入を観察し, 早期ビリルビンが全ビリルビンの80%を占めることを観察し

Table 6. 本例および諸家の報告例の検査成績

	年 令	性 別	血清ビリルビン mg/dl		脾腫 (術前)	Hb g/dl	網赤血球 %	赤血球 ^{51}CrT ½ 日	^{59}Fe PIDT ½ 分	^{59}Fe 利用率 %	標識グリ シン早期 比 %
			総ビ	直ビ							
Kurosawa ら	29	M	2.1	0.3	+	13.9	1.9	20.5	52	83	
Israels ら ^⑩	23	F	3.4	0.4	+	13.9	4.4	28			82
	2	16	M	3.2	0.6	+	14.3	2.0	34		
	3	26	M	2.1	0.1	+	16.1	3.3	26		
	4	40	F	2.7	0.7	+	12.6	4.1	28		
Arias ^⑪	1	19	M	4.5	—		1.3	NORMAL	20		49,
	2		M	3.2	—		1.4				
Berendsohn ら ^⑫	35	M	7.0	0.6	—	11.3	10	28	44	20	
Klaue ら ^⑬	43	M	4.3	0	—	15.5	10.6	28	30	95	
Darocha ら ^⑭	30	M	2.5	0	+	15.2	2	23			
Brook ら ^⑮	26	M	3.1	0.2	+	Ht 48%	5.4	17.5			
Greendyke ら ^⑯	16	M	8.0	0.8	—	13.4	1.7	29	42	64	
Yamamoto ら ^⑰	22	M	4.2	0.7	+	15.7	2.4	20.5	52	100	40
Hattori ら ^⑱	37	M	6.8		—	RBC 300×10^4	12.6	26	29	37	
Yasiro ら ^⑲	25	M	6.1	0.4	+	12.4	5.1	25	21	40	

た。

1965年山本ら¹⁰⁾は、早期ビリルビンは少なくとも非造血成分と造血成分の2成分からなることを発見し、P SHに造血成分の増多を認め、これによる生成過剰黄疸であることを証明した。

一方、Berendsohnら¹¹⁾は球赤血球症を伴わない造血成分の増多だけで黄疸を呈する症例を経験し、idiopathic dyserythropoietic jaundice (IDJ) とよんだ。厳密にはP SH、IDJの両者は区別されるべきものであるが、今日では一般に早期ビリルビン増多による黄疸をIDJをも含めてP SHとよんでいる。

P SHの診断基準として、1) 正常赤血球寿命、2) 骨髓赤芽球過形成、3) 間接型黄疸および糞便ステルコビリウム増多、4) 標識グリシンの早期ビリルビン転入増多、5) 他疾患を伴わないなどがあげられるが、現在は ^{14}C グリシンの生体使用には問題があり、それゆえ正常赤血球寿命症例に、骨髓赤芽球過形成、 ^{59}Fe PIDT ½の短縮、間接型黄疸、糞便ステルコビリウム増多をみとめ、他疾患を伴わない際にP SHと診断してもさしつかえないことになっている。この際 ^{59}Fe 利用率は低値を示すものと正常を示すものとがあり、後者

は骨髓内での新生赤血球崩壊はあるものの程度が軽く、同時に活発な鉄需要があるため出現時期はおくれるが、結局かなり高い利用率に達し、前者では骨髓内崩壊の程度がより強く、利用率が低値に止まるものではないかと推定されている。

われわれの経験した症例は、赤血球寿命が20.5日とあまり短縮しておらず、骨髓赤芽球過形成をはじめ、上記基準を満足するためP SHと診断した。Table 6は本例、および、諸家の報告例の検査成績を示したものだが、本例は従来の報告例^{8)11)~18)15)~20)}とほぼ同様の成績を示している。われわれの症例で興味ある点は、第1に、前回の入院時にビリルビン代謝に影響を与える薬剤を使用しなかつたにもかかわらず、一定期間後にビリルビンが正常化したこと、さらに今回の入院時にフェノバルビタール 0.1g/d投与後間接ビリルビンが正常化したことが、これは薬剤の効果なのか、あるいは、前回の入院時同様自然寛解ともいえる状態なのか断定できないことである。P SHの臨床経過報告例として山本ら¹⁸⁾のがあるが、その例ではフェノバルビタール、ブコローム投与により間接ビリルビン低下を認め、薬剤投与の中止により旧値に復している。われわれの例では、フェノバ

ルビタール投与中止後も間接ビリルビンの増多は認められず、前回入院時の臨床経過とあわせ考えるとむしろ自然寛解的な状態と推測される。第2に前回の入院時と今回の入院時の鉄動態検査におけるその他の検査の比較で、利用率と貧血のつよさ、LDH、間接ビリルビン、網赤血球数、骨髓赤芽球数との間に関連がみられ、骨髓内赤血球崩壊の程度の消長を示唆する成績がえられたことである。第3に先の山本らの報告¹⁸⁾では、薬剤投与の中止により間接ビリルビン値が旧値に復した点より、Gilbert症に似た非抱合ビリルビン処理異常を考え、肝の関与を推定したが、本例ではGilbert症において特異的にみられるというカロリー制限テスト⁸⁾⁹⁾、ニコチン酸テスト⁶⁾⁷⁾ではGilbert症にみられるような変化はえられず、同症に似た非抱合ビリルビン処理異常に対しては否定的な結論を推定した。しかし本例において、肝の組織学的所見をはじめ他の諸検査においても肝関与をうかがわせる成績はえられなかつたが、Berkら¹⁴⁾は慢性の間接型高ビリルビン血症患者に、ラジオアイソトープでラベルした間接型ビリルビンを投与しその動態を解析し、さらに赤血球寿命測定も行なつたところ、血中に間接型ビリルビンの上昇をもたらすのは肝によるそれらの取込み抱合機転の障害が第一義であり、溶血の有無によらないと報告しており、肝関与については、否定しうるものではないだろう。また、本疾患は同一家族内発生例⁸⁾¹²⁾があり、その遺伝性が注目されているが、本例ではニコチン酸テストにより同胞に潜在性黄疸が証明されなかつた。

本疾患の成因として、鉄動態検査におけるPI D_{1/2}短縮と低利用率の矛盾的な相互関係より、骨髓内の赤血球またはヘモグロビン崩壊によるいわゆる骨髓内無効造血¹⁰⁾¹⁸⁾があげられているが、その原因は現在不明で、また、本疾患が赤血球自体の欠陥によるのか、処理機構の異常によるものかも問題である。一方、異常な造血の際に完成にいたらず溶血する赤血球や、網赤血球として著しく寿命の短い赤血球が産生されることが観察されて

おり、本疾患との関連性が検討されている。本症例の臨床結果を総合判断すると、その発現機序としてやはり骨髓内での新生赤血球崩壊が考えられるが、その程度にはかなりの消長があると考えられ、その結果として本例のような自然寛解をうかがわせるような状態が生ずるものと思われる。骨髓内赤血球崩壊および、その程度の消長の原因が問題であるが、骨髓内ヘモグロビンが崩壊にいたる細かい過程は十分明らかにされていないのが現状で、今後の検討が待たれる。しかし本例が3年続けて春～夏にかけて自覚症状および黄疸が出現したことは、季節の変動、過労などが症状発現の誘因とも考えられ、興味ある点である。

結 語

原発性シャント高ビリルビン血症と思われた1例を報告した。本疾患の成因として骨髓内無効造血があり、さらに赤血球自体の欠陥、肝における処理機構の異常などの関与が考えられているが、本例ではカロリー制限テスト、ニコチン酸テストの結果から、Gilbert症のような肝における非抱合ビリルビン処理機構異常に対しては否定的な結論を推定した。また、本症例では自然寛解ともいえる状態が観察され、さらに利用率の変動とその他諸検査成績の変動との間に関連性が認められ、骨髓内赤血球崩壊の程度の消長を示唆する成績がえられた。

文 献

- 1) Gray, C.H., Neuberger, A. and Sneath, P.H. A.: Studies in congenital porphyria. II. Incorporation of ¹⁵N in stercobilin in the normal and in the porphyric. *Biochem. J.* 47: 87, 1950. —2) London, I.M., West, R., Shemin, D. and Rittenberg, D.: On the origin of bile pigment in normal man. *J. Biol. Chem.* 184: 351, 1950. —3) Israels, L.G., Suderman, H.J. and Ritzmann, S.E.: Hyperbilirubinemia due to an alternate path of bilirubin production. *Amer. J. Med.* 27: 693, 1959. —4) Israels, L.G. and Ziprusky, A.: Primary shunt hyperbilirubinemia. *Nature (London)* 193: 73, 1962. —5) Israels, L.G.: The bilirubin shunt and shunt hyperbilirubinemia. *Progr. Liver Dis.* 3: 1, 1970. —6) Fromke, V.L. et al.: Constitutional hepatic dysfunction (CHD; Gil-

- bert's disease); A review with special reference to a characteristic increase and prolongation of the hyperbilirubinemic response to nicotinic acid. *Medicine* 51: 451, 1972.—7) Davidson, A.R., Rojas-Bueno, A. and Roger Williams: The fasting and nicotinic acid provocation test in the diagnosis of Gilbert's syndrome. *Abstract of The British society of Gastroenterology* 14: 820, 1973.—8) Bloomer, J.R. et al.: Studies of the mechanism of fasting hyperbilirubinemia. *Gastroenterology* 61: 479, 1971.—9) Owens, D. and Sherlock, S.: Diagnosis of Gilbert's syndrome: Role of reduced caloric intake test. *Brit. Med. J.* 3: 559, 1973.—10) Yamamoto, T., Skanderberg, J., Ziprusky, A. and Israels, L.G.: The early appearing bilirubin; evidence for two components. *J. clin. Inv.* 44: 31, 1965.—11) Berendsohn, S., Lowan, J., Sandberg, D. and Watson, C.J.: Idiopathic dyserythropoietic jaundice. *Blood* 24: 1, 1964.—12) Arias, I.M.: Chronic unconjugated hyperbilirubinemia (CUH) with increased production of bile pigment not derived from the hemoglobin of mature, circulating erythrocytes. *J. clin. Invest.* 41: 1341, 1962.—13) 山本俊夫, 坂本克己: シヤント高ビリルビン血症と Gilbert 症について. *日本臨床代謝学会記録*, 7: 70, 1971.—14) Berk, P.D. et al.: Constitutional hepatic dysfunction (Gilbert's syndrome): A new definition based on kinetic studies with unconjugated adiabilirubin. *Amer. J. Med.* 49: 296, 1970.—15) Klaus, D. and Freine, U.: Primäre shunt-hyperbilirubinämie. *Deutsh. Med. Wschr* 89: 1973, 1964.—16) Darocha, T., Becalski, J., Konopka, L. and Pawelski, S.: Non-hemolytic hyperbilirubinemia due to a primary overproduction of bile pigments. ("Shunt Hyperbilirubinemia.") *Polish. Med. Sci. Hist.* 8: 93, 1965.—17) Brooks, A.M.: Medical Staff Conference. Presentation of two cases. 1. Disorders of bilirubin metabolism. 2. Sclerosing cholangitis. *Calif. Med.* 104: 124, 1966.—18) Greendyke, R.M.: Congenital refractory normoblastic anemia with jaundice and ineffective erythropoiesis. *Amer. J. Med.* 32: 611, 1962.—19) 服部晃ほか: 原発性高 shunt bilirubin 血症と思われる 1 例. *日内会誌* 62 (5): 530, 1973.—20) 八代邦彦ほか: Primary shunt hyperbilirubinemia の 1 例. *日本臨床血液学会第15回総会*, 東京, 1973.