

小児の中手骨に発生した単発性骨嚢腫の1例

渡辺 茂, 安倍 吉則, 高橋 新
関谷 元彦, 大江 桂成, 門馬 弘晶

はじめに

単発性骨嚢腫は、おもに若年者の長幹骨に好発する腫瘍類似性疾患であるが、手指骨に発生した報告はきわめて少ない。最近、われわれは、小児の中手骨に発生した単発性骨嚢腫を経験した。この症例は、X線像上、線維性骨異形成、内軟骨腫との鑑別が困難で、骨シンチ、生検による病理組織学的検索によって単発性骨嚢腫と診断し得たので報告する。

症 例

患者：9歳，男児。

主訴：左手背部腫脹。

既往歴：7歳時から，てんかんで現在まで加療。



図1. 初診時，単純X線写真
左第3中手骨に骨透亮像が認められる。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：1995年7月初旬，左手背部の腫脹に気づき，近医を受診した。単純X線写真上，左第3中手骨に異常骨透亮像があるため，精密検査の目的で当科を紹介され，1995年7月31日に入院した。

入院時現症：左手背部に腫脹を認めたが，発赤，熱感，圧痛などはなかった。

血液検査所見：血清学的には異常所見はなかった。

単純X線写真所見：左第3中手骨尺側に骨膜反応を伴う23×14mmの骨透亮像が認められた(図1)。

CT所見：左第3中手骨に膨隆性病巣が認められた。皮質骨は膨隆してひ薄化し，海綿骨部は透亮巣となっていた(図2)。

骨シンチ所見：99m-Tcによる骨シンチグラフィをおこなった結果，左第3中手骨で病巣部に一致する異常高集積像を認めた(図3)。

これらのことから，線維性骨異形成症，内軟骨腫など良性的骨腫瘍をうたがいが，1995年8月8

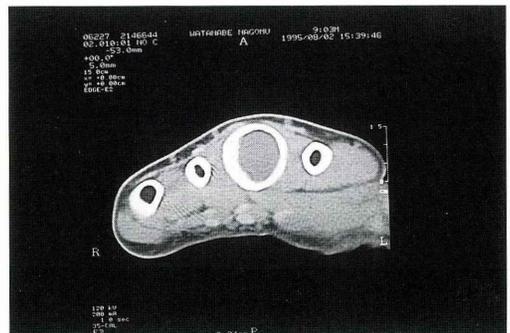


図2. CT
左第3中手骨に膨隆性病巣を認め，皮質骨は膨隆してひ薄化し，海綿骨は，透亮巣となっている。

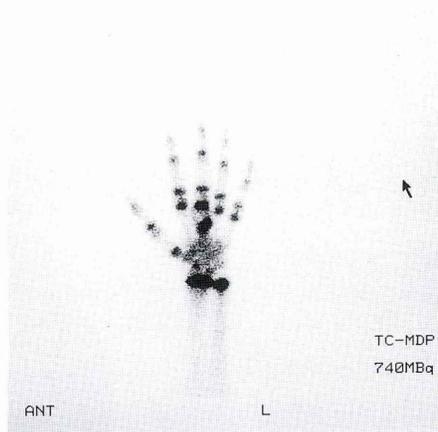
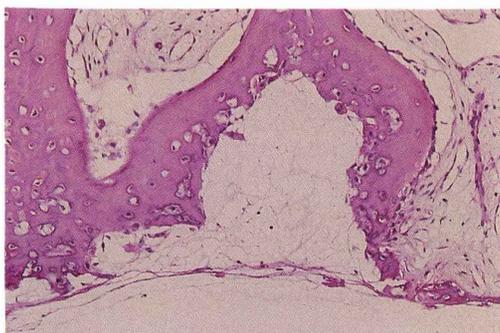
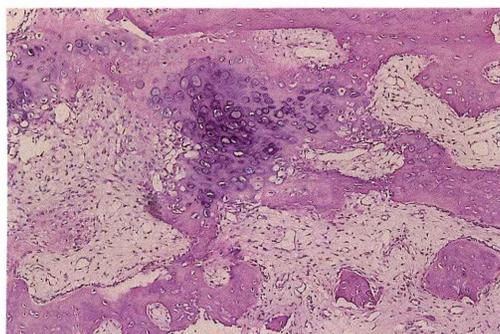


図3. 骨シンチ
病巣部に一致する異常高集積像を認める。

日、診断、加療の目的で手術をおこなった。



a



b

図4a. H-E染色，弱拡大

b. H-E染色，中拡大

骨芽細胞をともなう仮骨性変化と，一部破骨細胞による吸収像がみられ，軟骨形成もある。



図5. 術後1年，単純X線写真
移植骨全体に均一な骨硬化像が認められ，ハイドロキシアパタイト補填部も境界部が不明瞭化し，良好な骨親和性を呈している。

手術所見：左第3中手骨の腫瘍部位の皮質骨に10×20 mmの開窓をおこなったところ，骨髓腔は血性の紅茶様液体に満たされていて，実質性の腫瘍はなかった。皮質骨内壁を可及的に搔爬し，あらかじめ腸骨より採取した自家骨移植をおこなった。また，ハイドロキシアパタイトをもちいて骨欠損部を補填した。

組織所見：採取した皮質骨では，骨芽細胞をともなう仮骨性変化と，一部，破骨細胞による吸収像がみられ，軟骨形成もあった。このような変化は，単発性骨嚢腫に病的骨折が加わった反応性の骨変化と考えられた（図4-a, b）。

術後経過：術後1年の単純X線写真では，補填剤周囲の骨融解像はなく，移植骨全体に均一な骨硬化が認められる。また，ハイドロキシアパタイト補填部も境界部が不明瞭化してきており，良好な骨親和性を呈していた（図5）。

考 察

単発性骨嚢腫は，おもに若年者の長幹骨に好発する腫瘍類似性疾患であり，全骨腫瘍・腫瘍類似性疾患のなかでもかなり多い疾患である。この疾

患を最初に報告したのは Virchow (1876 年) と考えられており、以来、多くの人々によって研究がなされてきた。しかし、その病態については、まだ不明な点が多く、とくに発生病理、治療法などについては多くの問題が残されている。骨腫瘍の発生部位別頻度は、従来の報告では上腕骨近位部がもっとも多く全骨腫瘍の約 60% をしめ、ついで大腿骨近位部が約 25% で、両者をあわせると 85% に達する¹⁾。今回のわれわれの症例のように、手指骨に発生した報告はきわめて少なく、約 2% 程度である¹⁾。

一般的に、骨腫瘍は骨成長のもっとも旺盛な大腿骨遠位部と胫骨近位部に多くみられるが、本症例は中手骨に発生したもので、発生部位がかなり特異的である。Neer ら²⁾ は、単発性骨嚢腫が上腕骨近位部に好発することから、この部位での骨成長が、ほかの骨端線部に比較してもっとも盛んで、上腕骨成長の 80% におよぶことを骨嚢腫の成因の一つにあげている。一方、Jaffe らは、骨嚢腫のうちで病巣部が骨端軟骨に接しているものを active phase、骨端線から離れて存在するものを latent phase とよび、嚢腫部位は active phase で成長、増大し、latent phase に達すると活動性がなくなると考えた。また、本症の自然経過として、小児では自然治癒する傾向があり、われわれの症例のように病的骨折をきたした場合には、骨嚢腫の大きさが縮小することもあるといわれている。しかし、活動性の高い成長期においては、病的骨折、あるいはその危険性から、スポーツに長期間参加できないことも多いため、発生部位や腫瘍の大きさによっては何らかの手術治療を要する場合があるものと考えられる。

骨嚢腫の治療としては、これまで病巣搔爬や自家骨移植が多くおこなわれてきた。しかし、Fahey & O'Brien は 13 の文献の発表例 1,013 例を集計し、33.9% の再発率があるといい、Scaglietti は嚢腫内ステロイド注入療法をおこなって、72 例中 60% に治癒、36% に部分的修復がえられたと報告している³⁾。一方、Capanna ら⁴⁾ は 90 例に嚢腫内ステロイド注入法を試し、51% に治癒、26% に部分的修復が得られたという。それでもなお再発

例は 13.5%、無効例は 6.6% で、とくに多房性骨嚢腫あるいは大きな骨嚢腫では本法の効果は少ないと述べている。また、X 線像上の治癒には平均約 12 ヶ月を要し、その治療期間中に 7 例の病的骨折をきたしたという。したがって、ステロイド注入療法は侵襲の少ない治療法ではあるが、骨嚢腫の早期治癒および完治率からみてまだ十分な治療法とはいえない。最近、わが国では、骨置換材料としての医用 bioceramics の開発が盛んにおこなわれている。中でも、骨塩成分の主体であるハイドロキシアパタイト(以下 HA)が骨腫瘍などの搔爬後の死腔骨補填剤としてもちいられたつある。丹波ら⁵⁾ は、家兎を使った HA の骨形成能に関する実験で、新生骨が HA を核にして発育しており、新生骨形成は週を重ねるにしたがい骨密度を高めることを報告している。また、充填された HA は新生骨により取り囲まれ、骨髄部は造血細胞と脂肪細胞からなり正常であったという。強度に関しても、移植後 4~12 週で通常の実験骨の強度に近くなることを実験で証明している。

一方、HA の毒性に関して井坂ら⁶⁾ は、ラットをもちいた埋入試験において、血液学的、血液生化学的に異常は認められなかったと報告している。われわれの症例では、成長期の 9 歳の小児に HA の骨補填剤をもちいたわけであるが、このような小児への HA の応用に関し加藤ら⁷⁾ は、骨の成長に伴う形態変化にも悪影響がなく、力学的にもかなりの強度がえられたという。しかし、われわれの症例も 1 年余り経過した現在、臨床的および X 線学的に問題はないが、長期成績に関してはまだ不明なので、今後長期の経過観察が必要である。

ま と め

1) 発生部位がきわめて希な、小児の中手骨に発生した単発性骨嚢腫の 1 例を報告した。

2) 治療法として、ハイドロキシアパタイトを併用した自家骨移植をおこない、まだ短期の経過観察期間ではあるが良好な結果をえた。

文 献

- 1) 阿部光俊ほか：骨腫瘍手術後再発例の検討。整・

- 災外, 1747-1754, 1985.
- 2) Neer, C. et al.: Current concepts on the treatment of solitary unicameral bone cyst. Clin. Orthop. **97**, 40-51, 1991.
 - 3) Scaglietti, O. et al.: The effects of methylpredonisolone acetate in the treatment of bone cysts. J. Bone Joint Surg. **61-B**, 200-204, 1979.
 - 4) Capanna, R. et al.: The natural history of unicameral bone cyst after steroid injection. Clin. Orthop. **166**, 204-211, 1982.
 - 5) 丹波滋郎ほか: 骨欠損にたいする充填剤としての水酸化アパタイト. 別冊整形外科 **8**, 89-95, 1985.
 - 6) 井坂英彦ほか: 合成水酸化アパタイトのラットにおける大腿骨移植による慢性毒性試験. 財団法人食品薬品安全センター秦野研究所試験報告書, 1985.
 - 7) 加藤龍一ほか: ハイドロキシアパタイト・セラミックの成長期への使用経験. 整・災外, **32**, 759, 1989.