

小児大腿骨内顆部に発生した形質細胞性骨髄炎の1例

柴田 常博, 安倍 吉則, 高橋 新
門馬 弘晶, 高橋 徳明, 今村 格

はじめに

形質細胞性骨髄炎は比較的まれな疾患の一つで、その診断と治療に迷う事がある。最近われわれは病理組織学的に本疾患と考えられた1例を経験した。その臨床像や組織学的特徴につき文献的考察を加えて報告する。

症 例

患児：3歳，女児

主訴：跛行，歩行障害

家族歴：特記すべきことなし

既往歴：アトピー性皮膚炎

現病歴：平成11年1月8日から，とくに誘因なく跛行が出現した。その3日後から歩行しなくなり四つん這いで移動するようになった。その後，一時的に歩行可能となったが，同年1月19日から再び跛行が出現したため，精査を目的に1月25日，当院小児科に入院した。以後，中枢性疾患を疑い，頭蓋内病変の有無などの精査をおこなったが，明らかな異常所見は認められなかった。入院後，症状は徐々に軽減したが，跛行はなお続いていたため1月27日，当科を紹介された。その際，左膝関節部の腫脹と単純レ線上下での左大腿骨内顆部の異常所見が認められ，この病変の精査を目的に同年2月15日，当院整形外科に転科となった。

初診時現症：体温は平熱で，全身の理学所見に異常は認められなかった。歩容は疼痛回避性歩行と思われる跛行があり，左膝関節部に軽度の熱感，腫脹，圧痛が認められた。しかし膝関節の可動域はほぼ正常であった。

血液，尿検査所見：白血球の軽度上昇がみられ

たがCRPは陰性で，そのほかの血清学的検査値も正常であった。また尿所見にも異常はみられなかった（表1）。

表1. 入院時検査成績

感染症	
TPHA(-)	
HBs ag(-)	
HCV ab(-)	
末梢血	
WBC	16,000/ μ l
RBC	440×10^4 / μ l
Hb	11.6 g/dl
Ht	34.5%
MCV	78.3 fl
MCH	26.3 pg
MCHC	33.5%
Plt	48.5×10^4 / μ l
生化学	
GOT	29 IU/l
GPT	15 IU/l
ALP	277 IU/l
CHE	365 IU/l
γ -GTP	10 IU/l
T-BIL	0.1 mg/dl
TP	7.1 g/dl
Alb	4.3 g/dl
BUN	12 mg/dl
Cre	0.3 mg/dl
UA	3.8 mg/dl
Na	143 mEq/l
K	4.2 mEq/l
Cl	104 mEq/l
BS	94 mg/dl
CRP	0.24 mg/dl
尿検査	
糖	0.01 g/dl
蛋白	4 mg/dl
ウロビリノーゲン	0.2 mg/dl

初診時画像所見

単純レ線所見：左大腿骨内顆骨端部に直径1 cmの円形の骨透亮像が認められる。しかし、その周辺での骨膜反応は認められない（図1）。

CT所見：単純レ線像での病変部に一致してやはり境界明瞭な円形の低吸収域が認められる（図2）。

以上の事から、大腿骨内顆部に発生した骨腫瘍ないし炎症性病変を疑い、平成11年2月16日全身麻酔下に生検をおこなった。

手術所見：左膝関節大腿骨内顆部で約1 cm×1 cmの範囲の開窓をおこなったところ、病変部は血液で充たされ、その周囲は繊維性の肉芽組織で被われていた。肉眼的には一見、骨嚢腫を疑わせる所見であった。その後、可及的に病巣部を搔爬し、骨移植などはせずにそのまま閉創した。

病理組織所見：弱拡大では全体的に骨髄の線維化と肉芽組織がみられ、強拡大ではこれらの中に多数の形質細胞の浸潤が認められた。また所によりリンパ球の浸潤もみられた。これらの事から形

質細胞が優位に出現する慢性炎症が疑われた。特殊免疫染色を行ったが、単クローン性を示さず、慢性炎症を伴った形質細胞腫すなわち、形質細胞性骨髄炎と考えられた（図3、図4）。

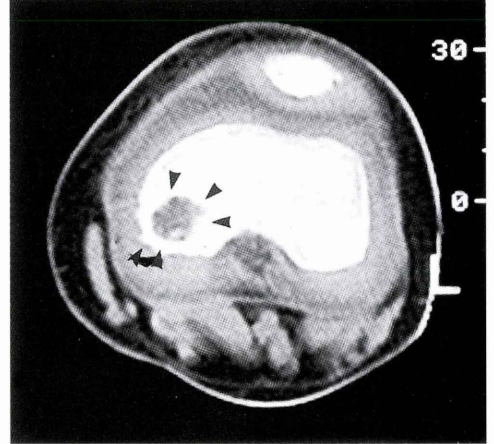


図2. 単純CT
左大腿骨内顆骨端部に境界明瞭な円形の骨吸収域が認められる

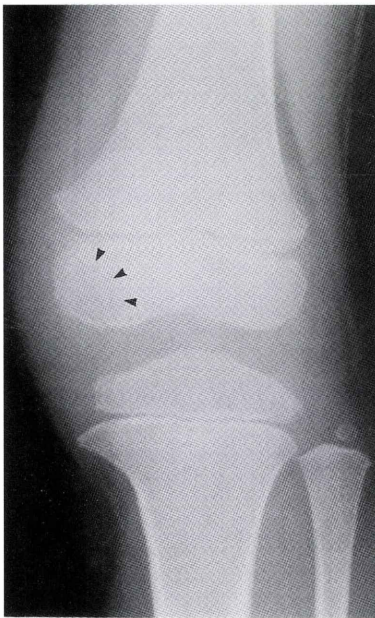


図1. 初診時単純X線写真
左大腿骨内顆骨端部に径1 cm×1 cmの骨透亮像が認められる

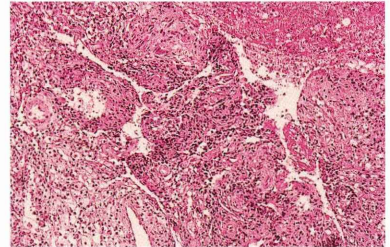


図3. 組織像 HE染色 弱拡大
骨髄の線維化と肉芽組織が見られ、所によりリンパ球の浸潤も見られた



図4. HE染色 強拡大
多数の形質細胞の浸潤が認められた



図5. 術後8ヶ月目単純X線写真
左大腿内顆部の病巣はリモデリングされている

術後経過: 発症から10ヶ月後の現在、歩行障害や局所の再発の兆候はなく経過良好で、単純レ線像での病巣部のリモデリングも順調である(図5)。

考 察

これまで本邦での形質細胞性骨髄炎の報告は少ない¹⁾。本疾患は一次性慢性骨髄炎のうちのひとつと考えられていて、発症から慢性の経過をたどることから、亜急性骨髄炎と言い換えることが出来る。その理由として、亜急性骨髄炎とは全身の急性炎症反応がなく、局所の疼痛や軽い炎症所見が2週またはそれ以上持続している骨髄炎のことを言い、慢性骨髄炎は急性炎症に続発してくるものであるといわれている²⁾。また、慢性骨髄炎のうち二次性のものは急性骨髄炎から二次的に続発しているものとされている¹⁾。一方、形質細胞性骨髄炎は一次性慢性骨髄炎の3つの型、すなわちBrodie骨膿瘍、Garre硬化性骨髄炎、形質細胞性骨髄炎のうちのひとつである。この分け方の一方は臨床的分類で、他方は病理形態学的分類であるが、形質細胞性骨髄炎は亜急性骨髄炎に分類される病

理的診断名の一つと考えられる。この亜急性骨髄炎の臨床的特徴としてHarrisらは1)発症が緩慢、2)長期にわたる疼痛、3)罹病期間中を通じての平熱、4)全身性炎症反応の欠如、5)局所性炎症所見は軽度などのことをあげており³⁾、本症もこれらに相当する症状をすべて示していた。

臨床的特徴として、本症は一般的に男性に多いとされ、好発年齢は10~20歳代、好発部位としては長管骨の骨幹端ないし骨端部が多い。発症は緩徐で体温は平熱であることが多く、局所の炎症症状はあっても軽度である¹⁾。小児の発生頻度について、われわれの渉猟し得た範囲では、はっきりと述べられた文献はなかった。しかし、発症例は少なからず存在するようである。本症例も発症年齢が3歳と低かったが、ほかは一般的に言われているものと同様の所見を呈していた。発生部位に関し、河野は大腿骨遠位端、脛骨近位端、同遠位端、大腿骨近位端の順に好発すると述べているが⁴⁾本症例においても大腿骨遠位端発生であり好発部位であった。また臨床症状は、下肢発症例では当初から起立歩行が不可能になる症例が多いことも指摘されている⁴⁾。本症例では、歩行不能で四つん這いになった時期が見られており、疼痛を回避したような状態が考えられた。

血液検査所見では白血球数は正常ないし軽度上昇を呈し、血沈値は亢進することが多いと報告されている¹⁾²⁾³⁾⁵⁾。本症例でも白血球の軽度上昇が認められた。血沈値は検査しなかったがCRPは、ほかの報告と同様陰性で、急性炎症の程度の低いものと考えられた。単純レ線像としてHarrisらは亜急性骨髄炎の所見を2つに分けており³⁾、それによれば、比較的限局した骨透明巣が罹患骨メタフィーゼから骨幹部にみられるタイプと、骨皮質に斑点状壊死像を生ずるタイプがあるという。今回のわれわれの症例はこの前者のタイプに相当した。

また、レ線像上の鑑別疾患としてBrodie膿瘍、骨髄炎、骨嚢腫、線維性骨異形性、悪性骨腫瘍などが考えられるが¹⁾、確定診断には、骨生検が必要である。西島らもレ線像だけからでは本症の診断は困難で、病理組織学的検索が不可欠であると述

べている¹⁾。

本疾患の病理形態学的特徴としては、腐骨や膿汁はみられず、病巣は糸を引くような粘潤な浸出液を伴った肉芽で充たされていて、組織学的に特徴的な三層構造を有し、肉芽の中心には形質細胞の密な浸潤が見られるといわれている¹⁾。われわれの症例では多数の形質細胞の出現と骨髓の線維化、リンパ球の浸潤など、炎症性組織が混在した像であった。一方、形質細胞腫に特徴的な特殊免疫染色が陰性であったことから、本症例は形質細胞性骨髓炎と考えられた。また本症は一次性慢性骨髓炎のうちの一つとして取り扱われていて、このことを考慮すると、病理組織所見が炎症像を呈するのは十分に考えられることである。形質細胞の浸潤が顕著である理由としては、起炎菌の病原性の低下と生体の免疫機構反応の結果が考えられる。すなわち、発症以前に起炎菌の感染により生体に抗体産生能が準備されていて、骨髓炎の発症の際には、当初から抗体産生の担い手である形質細胞が多数浸潤してくると推定される¹⁾。

治療として、急性化膿性骨髓炎であれば抗生剤の投与があげられるが、本症例のように初診時のレントゲン像から骨腫瘍との鑑別が問題となることが多いため、まず生検をおこなって、その際に病巣搔爬も併せておこなうという方法もある。西島らも同様のことを述べていて¹⁾われわれも生検

時に病巣搔爬をおこなった。以後、再発は見られていない。

また、歩行障害も治療後に消失したことから、当初の跛行や歩行障害そのものも本疾患由来と考えられた。ただ長期成績に関しては不明なので、向後長期の経過観察が必要と思われた。

ま と め

1. 比較的まれな形質細胞性骨髓炎と思われる1例を報告した。
2. 本症は臨床所見に乏しいため診断に際しては生検なども含め、注意深く観察することが必要である。

文 献

- 1) 西島雄一郎 他: Plasmazellulare Osteomyelitis (形質細胞性骨髓炎). 臨整外 **15**: 75-81, 1980
- 2) King DM et al: Subacute haematogenous osteomyelitis. J Bone & Joint Surg **51-B**: 458-463, 1969
- 3) Harris NH et al: Primary subacute pyogenic osteomyelitis. J Bone & Joint Surg **47-B**: 526-532, 1965
- 4) 河野左宙: 急性および亜急性化膿性骨髓炎. 整形外科 **20**: 131-135, 1969
- 5) 熊谷 進 他: 小児の一次性亜急性骨髓炎 (Primary subacute pyogenic osteomyelitis). 臨整外 **10**: 826-830, 1975