

小児の大腿骨頸部に発生した動脈瘤様骨嚢腫の1例

柏葉光宏, 安倍吉則, 高橋新
渡辺茂, 斉藤毅, 菅野晴夫

はじめに

動脈瘤様骨嚢腫は若年者に多く比較的まれな良性の骨腫瘍類似疾患である。最近われわれは、小児の大腿骨頸部に発生した動脈瘤様骨嚢腫 (Aneurysmal bone cyst, 以下 ABC と略) を経験した。この症例は発生部位が特異的で診断上問題があったので、その臨床像、病理組織像、ならびに治療法などについて文献的考察を加え報告する。

症 例

患者: 6歳, 女児

主訴: 左ソケイ部痛と跛行

既往歴: 若年性関節リウマチ

現病歴: 2003年5月, 若年性関節リウマチ (Juvenile rheumatoid arthritis, 以下 JRA と略) の治療のため小児科に入院した。入院当初から左ソケイ部痛を訴え跛行もあったが、ステロイド投与で改善したため、6月6日退院した。しかし、その後、疼痛が再発し、6月23日に MRI の検査を行った。その結果、左大腿骨の頸部から転子部にかけて異常信号が認められ、6月26日、精査を目的に小児科に再入院した。造影 MRI, 骨シンチを施行後、骨生検の目的で7月14日、当科に転科となった。

現症: 跛行はなく Scarpa 三角に圧痛はあるが発赤、腫脹などの所見はない。股関節の可動域は正常で、疼痛による可動域制限は認められない。

血液検査所見: 特記すべき異常値はない。

単純 X 線写真所見: 左大腿骨頸部から転子部

にかけて骨皮質の菲薄化を伴ったやや広範囲の骨透亮像が認められる。骨膜反応や骨破壊像は認められない (図 1)。

MRI 所見: 病変部は T1 強調像で等から軽度の高信号, T2 強調像で高信号を呈し、造影 T1 強調像では内部に造影効果が認められる。また病変部の内部は多胞性で嚢胞部と充実部とを含み、境界は明瞭で辺縁は平滑であった (図 2)。

骨シンチグラム: 左大腿骨頸部から転子部にかけて画像上での異常所見を呈した部分に一致した高集積像が認められる (図 3)。

以上のことから左大腿骨頸・転子部に発生した嚢胞性の良性骨腫瘍を考え、7月15日、全身麻酔科に手術を行った。

手術所見: 大転子無名結節の遠位下端 2.5 cm の部位で東北大式骨生検器を用い、皮質骨から大腿骨頭の腫瘍の近位端まで径 6 mm の円柱状の組織を採取し、以後、その穴を利用して腫瘍部分を搔爬した (図 4)。搔爬時、腫瘍内部は血液で充満し線維性の隔壁も認められた。骨移植などは行わず、充分、病巣部を搔爬洗浄し、ペンローズド



図 1. 初診時の単純 X 線写真: 大腿骨頸部～転子部の骨皮質の菲薄化を伴った骨透亮像

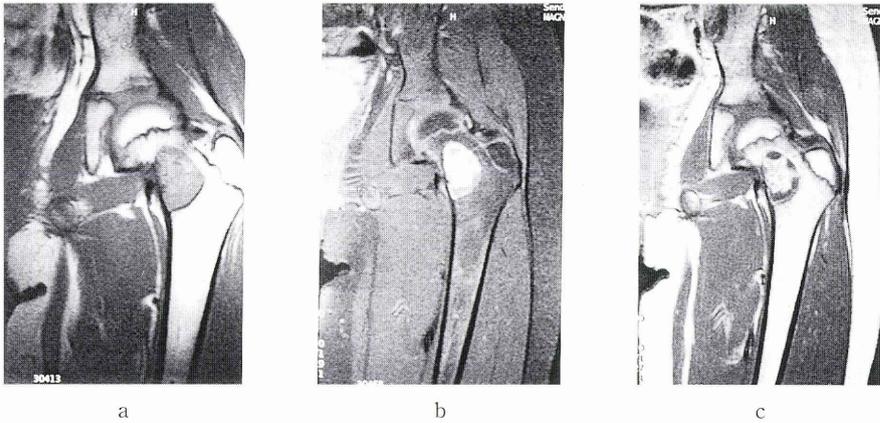


図2. MRI a) T1 強調像：大腿骨頸部から転子部での軽度高信号領域 b) T2 強調像：大腿骨頸部から転子部での高信号領域 c) T1 強調造影像：病変部に一致した多胞性の造影像

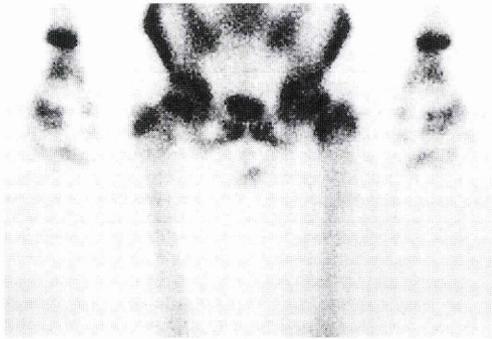


図3. 骨シンチグラム：病変部に一致した高集積像

レーンを留置して閉創した。

病理組織所見：採取された組織は皮質骨と連続して嚢胞状線維性結合織と類骨の形成があり，豊富な血液成分と脂肪組織もみられたが，明らかな巨細胞は認められなかった。炎症細胞や腫瘍細胞などは認められず，全体としてABCと矛盾しない像であった（図5,6）。

術後経過：患肢は免荷とし，車椅子は許可した。術後2日目でドレーン抜去し，術後10日目で抜糸，歩行許可とした。術後4ヶ月の現在，疼痛や可動域制限などの自覚症状や他覚的所見は全くない。また単純X線写真では，搔爬部の海面骨の骨改変像が認められ，徐々に骨形成が進んでいる（図7）。

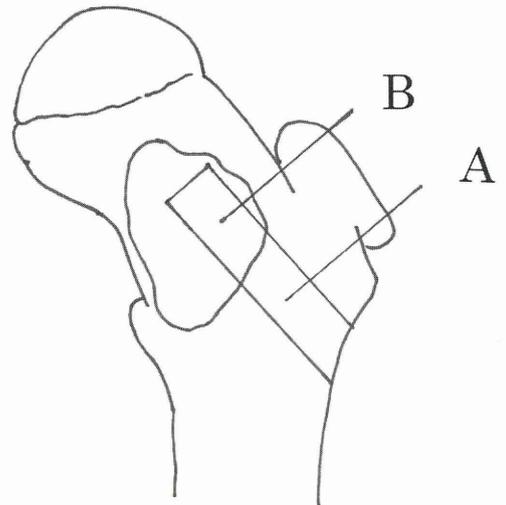


図4. 東北大式骨生検器を用い，皮質骨から大腿骨頭の腫瘍の近位端まで径6mmの円柱状の組織を採取。A部，B部を組織学的に検討した。

考 察

ABCは良性の骨腫瘍類似疾患で，その発生頻度は原発性骨腫瘍の約1%といわれ比較のまれな疾患である。好発年齢は10～20歳代で若年者に多く，発生部位としては長幹骨の骨幹端に好発するといわれるが，脊椎，骨盤などにも発生する。発生原因としては局所循環障害説，外傷性血腫説，巨

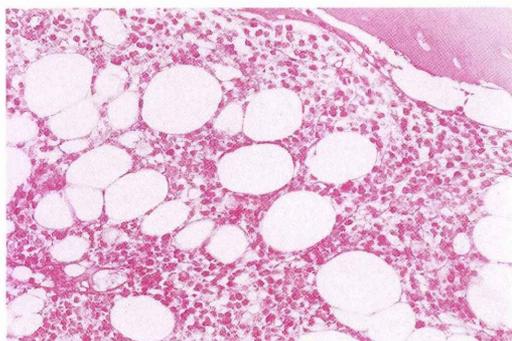
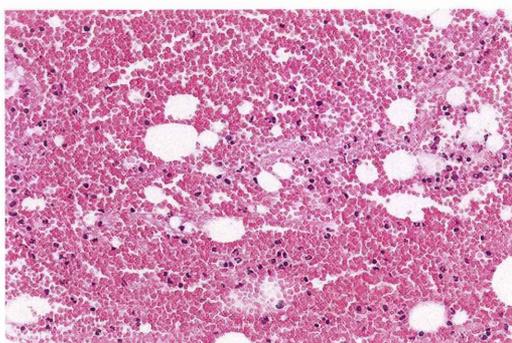
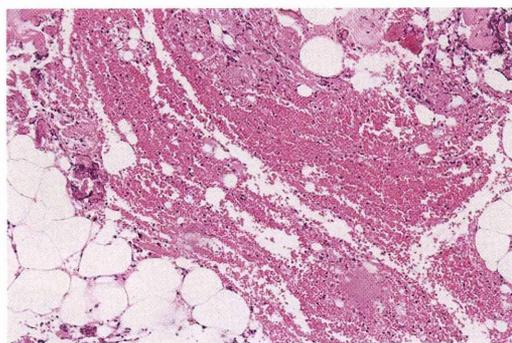


図5. A部の腫瘍周囲の組織像：脂肪細胞と正常の骨髄組織像を見る（HE染色，弱拡大）。



a



b

図6. B部の腫瘍組織像

- a) 骨髄組織の結合組織による弛緩と出血巣を見る。
b) 骨髄組織での脂肪変性と血管結合織を伴った巨細胞を見る（HE染色，弱拡大）。

細胞腫瘍異型説，血管腫説，良性腫瘍内出血説，既存疾患変化説など¹⁾があるが，まだ確定的なものは存在しない。また，単純性骨嚢腫，巨細胞腫，非



図7. 術後4ヶ月の単純X線写真：病巣搔爬部はリモデリングされている。

骨化性線維腫などの一次疾患に続発する二次性動脈瘤様骨嚢腫²⁾といわれるものもある。われわれの症例は大腿骨頸・転子部での発生で，明らかな外傷の既往はなかったが，JRAのステロイドによる治療中であったため，ステロイドによる微少血管の何らかの循環障害やJRAそのものが間接的に関連した病態になっている可能性は否定できない。

画像所見上，単純X線撮影での骨皮質の菲薄化・膨隆はballoned out appearanceやblow-out appearanceといわれていて，この疾患に特徴的な像である。またMRIで病変部がT1強調像等から軽度高信号，T2強調像で著明な高信号を呈し，造影T1強調像で内部に造影効果が認められたことや，骨シンチで病変部に一致した高集積像が認められたことなどはABCに矛盾しない所見³⁾であった。組織所見では嚢胞状線維性結合織と類骨の形成があり，血液成分と脂肪組織が認められたが，この疾患では多くみられるという巨細胞はほとんどみられなかった。しかし，今のところ，この疾患では組織学的にも確定的所見はなく，臨床像や画像所見，病理組織像などを総合的に判断して最終診断が下される。本症例ではABCの特徴をおおむね満たしていた。

治療法については病巣搔爬術を行っているものが一般的であるが，搔爬術のみの治療では骨端軟骨帯が開大している若年者においてとくに再発しやすいとの報告が多く，cryosurgery⁴⁾やフェノール療法⁵⁾，あるいはセメントを併用する方法⁷⁾や

air drill を用いた拡大搔爬術⁹⁾などが報告されている。しかし、これらの方法はまだ確定的なものではない。また、搔爬術にピンニングを併用することで嚢腫内圧を持続的に減少させ、嚢腫内の骨形成を促して再発を抑制する方法⁹⁾なども試みられている。しかし、骨端線の残存する若年者の場合、発生部位によっては成長障害が問題となる。また、十分に病巣を切除できない症例に対しては放射線照射¹⁰⁾や塞栓術¹¹⁾などの治療法も報告されている。われわれの症例は6歳の女兒に発生した大腿骨の頸部から転子部にかけてのABCで、病巣搔爬術のみにとどめた。搔爬術のみでは再発の危険性が高いと考えられるが、拡大搔爬術では腫瘍が骨端線に近いため成長障害を起こす可能性があり、また病変が頸部に及んでいたため術後に骨折を起こす危険性が懸念されたため搔爬のみを行った。また東北大式骨生検器でcore biopsyを行ったが、その結果、大腿骨の皮質骨から約6mmの穴が腫瘍部分にまで空き、このことがピンニングしたときと同様、腫瘍部の減圧治療効果と再発抑制に有効であると考えている。術後4ヶ月現在、病巣部はほとんどリモデリングされているが、向後、再発に関しての長期の経過観察が必要である。

ま と め

- 1) 女兒の大腿骨頸・転子部に発生したABCの1例を報告した。
- 2) 治療として骨端線近傍の腫瘍であったため開窓搔爬術のみを行った。
- 3) 術後、病巣部には骨改変が及んでいるが、再

発に関し向後、長期の経過観察が必要である。

文 献

- 1) 阿部光俊 他: Aneurysmal bone cyst の4例, 整形外科 **15**: 518-525, 1964
- 2) Levy WM et al: Aneurysmal bone cyste secondary to other osseus lesions; report of 57 cases. Am J Clin Pathol **63**: 1-8, 1975
- 3) Hudson TM: Scintigraphy of Aneurysmal bone cysts. Am J Roentgenol **142**: 761-765, 1984
- 4) Biesecker JL et al: Aneurysmal bone cyst; a clinicopathologic study of 66 cases. Cancer **26**: 615-625, 1970
- 5) Campanacci M et al: Unicameral and aneurysmal bone cysts. Orthop **204**: 25-36, 1986
- 6) Thompson PC et al: Subperiosteal giant cell tumor; ossifying subperiosteal hematoma aneurysmal bone cyst. J Bone Joint Surg **36-A**: 281-306, 1954
- 7) Ozaki T et al: Cementation of primary aneurysmal bone cyst. Clin Orthop **337**: 240-248, 1997
- 8) 山下優嗣 他: 動脈瘤様骨嚢腫の治療経験. 整形外科と災害外科 **49**: 249-255, 2000
- 9) 福録 潤 他: 動脈瘤様骨嚢腫の治療経験. 中部整災誌 **40**: 935-936, 1997
- 10) Maeda M et al: High-energy, low-dose radiation therapy for aneurysmal bone cyst; report of a case. Clin Orthop **243**: 200-203, 1989
- 11) Radanovic B et al: Therapeutic embolization of aneurysmal bone cyst. Cardiovasc Intervent. Radiol **12**: 313-316, 1990