

成人の上腕骨近位骨端部に発生した 動脈瘤様骨嚢腫の1例

柴田 常博, 安倍 吉則, 高橋 新
渡辺 茂, 高橋 徳明, 松谷 重恒

はじめに

動脈瘤様骨嚢腫は比較的まれな良性の骨腫瘍類似疾患である。最近、われわれは上腕骨近位骨端部に発生した動脈瘤様骨嚢腫(以下 ABC と略)を経験した。その臨床像, 病理組織像, ならびに治療法などにつき文献的考察を加え報告する。

症 例

患者: 30 歳, 女性

主訴: 右肩痛 (上腕部痛)

既往歴, 家族歴: 特記事項なし

現病歴: 平成 11 年頃からとくに誘因なく右上

腕部痛が出現した。平成 12 年 3 月頃には右上肢の挙上が困難になり, 5 月頃からは「肩の奥の方がじんじんと重苦しい」という訴えをともなう安静時痛も出現した。同年 8 月 8 日, 近医を受診し, 単純 X 線像で上腕骨近位部に骨腫瘍を疑わせる異常所見がみられたため, 8 月 9 日, 当科を紹介された。

現症: 右上腕近位部に圧痛はあるが腫脹, 発赤はみられなかった。肩関節の自動可動域は屈曲 50 度・外転 40 度・伸展 30 度で疼痛による可動域制限が認められた。

血液検査所見: 異常値はみられなかった。

画像所見:



(a)



(b)

図 1. 単純 X 線写真 (初診時)
右上腕骨骨頭部に骨皮質の菲薄化を伴った膨隆性の骨透亮像が認められる (a: 正面像 b: 側面像)

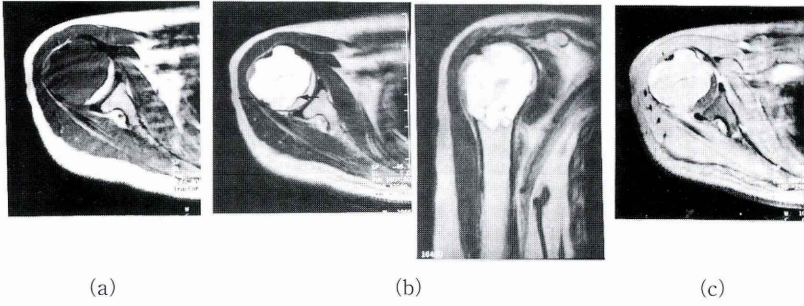


図2. MRI

T1 強調像で低信号, T2 強調像で高信号を呈し, 造影 T1 強調像では腫瘍辺縁部に増強効果が認められる。また, 内部は多房性で隔壁様構造がみられ T2 強調像では液面構造 (fluid-fluid level) がみられる (↑)

(a: T1 強調像 b: T2 強調像 c: T1 強調造影像)

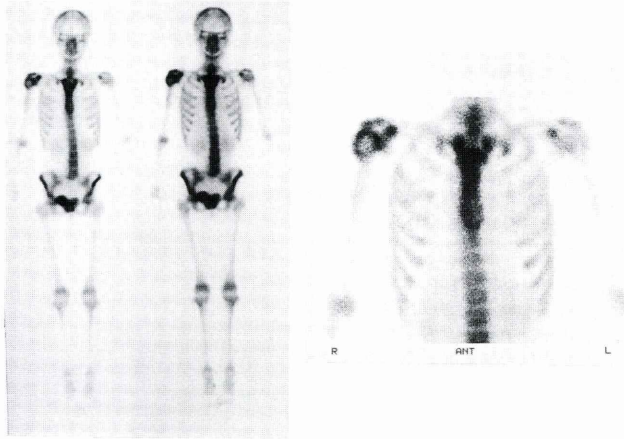


図3. 骨シンチグラム
右上腕骨骨頭部に高集積像がみられる

単純 X 線写真: 右上腕骨骨頭部に骨皮質の菲薄化をともなう膨隆性の広範な骨透亮像が認められた。骨膜反応は認められなかった (図1)。

MRI: 病変部は T1 強調像で低信号, T2 強調像で高信号を呈し, 造影 T1 強調像では病巣辺縁部に増強効果が認められた。また, 内部は多房性で隔壁様構造を有し, T2 強調像では液面構造 (fluid-fluid level) が観察された (図2)。

骨シンチグラム: 右上腕骨骨頭部に高集積像がみられた。ほかの部位には明らかな異常集積像は認められなかった (図3)。

以上から右上腕骨骨頭部に発症した骨腫瘍など

を疑い, 平成12年9月19日, 全身麻酔下に手術を行った。

手術所見: まず右腸骨から骨移植にもちいる海綿骨を採取し, つぎに上腕骨前外側に約1.2×1.0 cmの範囲で開窓した。骨皮質は菲薄化しており, 内部は空洞で血液が充満していた。また線維性の隔壁もみられた。可及的に病変部を搔爬し, 先に採取していた海綿骨にハイドロキシアパタイト (以下 HA と略) を混合し病巣部に充填した。

病理組織所見: 病変周囲の線維軟骨組織, 新生骨組織と共に, 破骨型巨細胞と単核球が多数混在する巨細胞性病巣がみられた。また線維性隔壁構

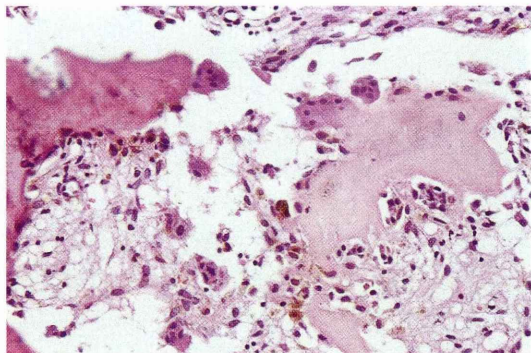


図4. 組織像 (HE 染色 強拡大)
破骨巨細胞による骨吸収像

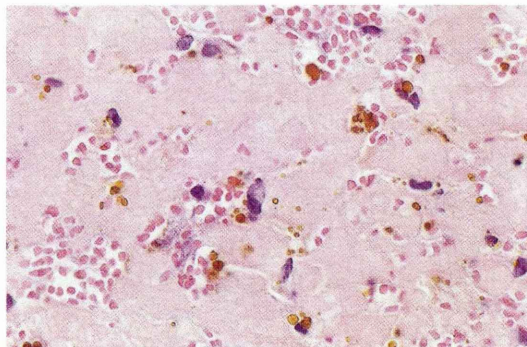


図7. 組織像 (HE 染色 強拡大)
線維性隔壁構造と血液ならびにヘモジデリンの沈着

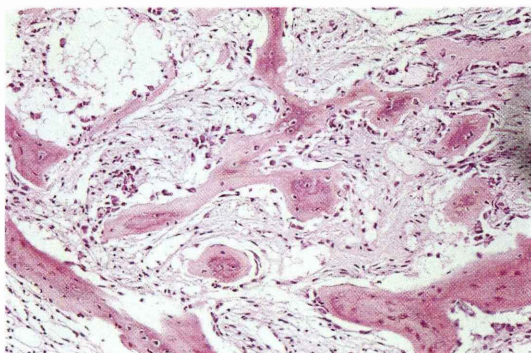


図5. 組織像 (HE 染色 中拡大)
病変周囲の線維性組織と幼若新生骨組織

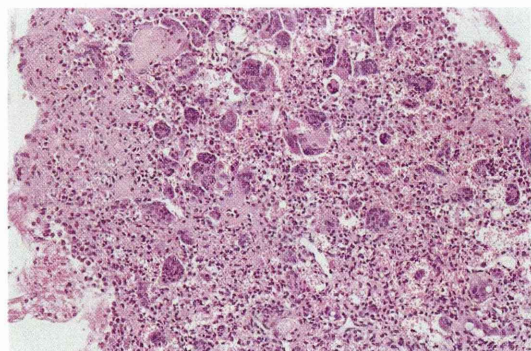


図6. 組織像 (HE 染色 弱拡大)
多数の破骨型巨細胞と単核球による巨細胞性病巣

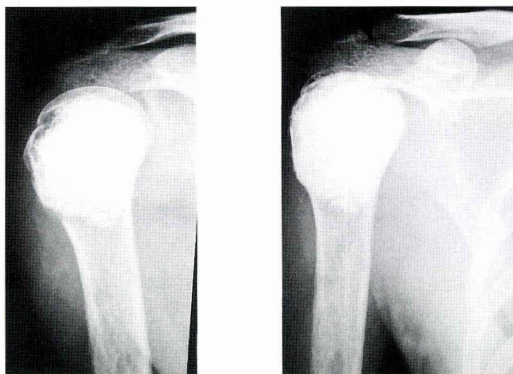


図8. 単純X線写真 (a: 術直後 b: 術後3ヶ月)
ハイドロキシアパタイトの輪郭は不明瞭とな
ってきている

造、ヘモジデリン沈着などもみられ、全体として動脈瘤様骨嚢腫の組織所見であった (図4, 図5, 図6, 図7)。

術後経過: 右上腕部を体幹固定とし、術後3週目から自動運動によるリハビリを開始した。術後3ヶ月目の現在、外来で経過観察中であるが、単純X線撮影では、移植したHAの輪郭は不明瞭となっており、徐々に骨形成が進んできているものと思われる (図8)。

考 察

動脈瘤様骨嚢腫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中約1%といわれ、比

較的まれなものである。好発年齢は10～20歳代で若年者に多く、性差はとくにないようである。好発部位は長管骨骨幹部、脊椎、骨盤などに多く、長管骨では下肢に多発するといわれていて本例のような骨端部での発生はまれである。発生原因として局所循環障害説、外傷説、既存疾患変化説、骨巨細胞異型説などが考えられてはいるが、まだ確定的なものはない¹⁾。また、既存疾患から発生したものは二次性の動脈瘤様骨嚢腫といわれており、その前駆腫瘍としては単発性骨嚢腫、巨細胞腫、非骨化性線維腫などがある。われわれの症例は骨端部である上腕骨骨頭発生例で、明らかな誘因なく発症したことから外傷以外の原因のものが考えられるが、本態は不明である。症状としては疼痛と腫脹が二大症状といわれていて、今回の症例でもこの二大症状のうち疼痛があった。とくに「じんじんと重苦しい」という訴えは、骨髄内圧の上昇を推定させ、特徴的であった。

画像所見では単純X線撮影での骨皮質の菲薄化・膨隆が *balloned out appearance*, *blow-out appearance* といわれていて、この疾患に特徴的なレ線像である。またMRIのT2強調像で、上層が下層に比べ高信号を呈する *fluid-fluid level* がABCに認められることが多いといわれており²⁾、本症例でもこの像がみられた。一方、骨シンチグラムの所見についてHudsonらは、腫瘍の辺縁に異常集積がみられ中央部には少ないが、このことと腫瘍の性状や組織との関連性については明らかでない、と述べている³⁾。われわれの症例では、*cold in hot* の像を呈していて、骨シンチグラムでのこのような所見もABCの診断に有用と思われる。

組織像では比較的多くの巨細胞と反応性の骨変化がみられた。ただ巨細胞は骨巨細胞腫でもみられ、いわゆる二次性のABCとの鑑別がむずかしい。このように、この疾患は組織学的にも確定的特徴的な所見がないため、最終診断は臨床像、X線撮影、組織像を総合的に加味して下すべきであるといわれている。本症例ではこれらABCの特徴を概ね満たしていて、最終的にABCと診断したものである。

治療法としては病巣搔爬と骨移植術が一般的におこなわれている。移植骨には自家骨、同種骨、異種骨とさまざまなものがあるが、文献的に自家骨移植が利用されている場合が多い。ただ、今回の症例のように、広範な骨欠損となる部位では、限られた採骨範囲での病巣部補填はむずかしい。一方、HAは生体親和性があり異物反応がほとんどなく、また周囲の骨組織からアパタイト内に骨形成を誘導する作用があるといわれている⁴⁾。しかしHAがあっても必ずしも骨形成がおこなわれるわけではなく、周りに骨細胞が存在すること、血行状態が良好なことなどが前提となる。このことから東らは骨形成を促進するためにHAを自家骨と混合して使用していると報告している⁵⁾。一方、片山らはHA単独でも骨形成が得られたことから、自家骨の混合は必要ないと述べている⁶⁾。われわれは自家骨と併用して移植したが、術後とくに問題はなく骨癒合も順調のようである。そのほかの治療法として、骨移植の代わりにAWガラスセラミックを使用した例や⁷⁾、*multiple pinning*⁸⁾、*cryosurgery*⁹⁾、などをおこなって治療した報告がみられるが、われわれには経験がない。また、ABCが自然治癒したとの報告もあるが、一般的にこのような例はまれなようである¹⁰⁾。

予後として再発率が低年齢に高いという報告がある¹¹⁾。本症例は低年齢ではないものの再発の可能性も否定できず、今後長期の経過観察が必要であると考えている。

ま と め

1. 成人の上腕骨近位骨端部に発生した動脈瘤様骨嚢腫の1例を報告した。
2. 治療として病巣搔爬術、および自家骨とハイドロキシアパタイトによる病巣部補填をおこなった。
3. 病巣部のリモデリングあるいは再発などを含め、今後も長期の経過観察が重要である。

文 献

- 1) 阿部光俊 他: Aneurysmal bone cyst の4例. 整形外科 15: 518-525, 1964

- 2) 柴田大法 他：骨腫瘍のMRI診断と病理組織所見との対比. MB Orthop **7**: 18-30, 1994
- 3) Hudson TM: Scintigraphy of Aneurysmal Bone Cysts. Am J Roentgenol **142**: 761-765, 1984
- 4) 丹羽滋郎 他：骨欠損に対する充填材としての水酸化アパタイト. 別冊整形外科 **8**: 89-95, 1985
- 5) 東正一郎 他：骨補填材としての合成水酸アパタイト細粒と自家骨混合移植. 臨整外 **17**: 634-642, 1982
- 6) 片山一雄 他：骨嚢胞性病変に対する水酸アパタイト細粒単独充填の経験. 臨整外 **29**: 593-596, 1994
- 7) 笠原勝幸 他：人工骨 AW-ガラスセラミックを用いた動脈瘤様骨嚢腫 (ABC) の外科的治療法について. 京大医短紀要 **17**: 1-10, 1997
- 8) Papavasiliou VA et al: Aneurysmal Bone Cyst: A Preliminary Report on a New Surgical Approach. J Pediatr Orthop **10**: 362-364, 1990
- 9) Marcove RC et al: The treatment of aneurysmal bone cyst. Clin Orthop and Related Reserch **311**: 157-163, 1995
- 10) Malghem J et al: Spontaneous healing of aneurysmal bone cyst. J Bone Joint Surg **71**: 645-650, 1989
- 11) Gibbs P et al: Aneurysmal Bone Cyst of the Extremities. J Bone Joint Surg **81**: 1671-1678, 1999