

胸骨部分切除が奏効した胸鎖肋骨肥厚症の一例

伊勢福 修 司, 佐々木 信 男, 安倍 吉 則
鈴木 俊 博, 永沼 英 樹, 高橋 新
肥後 直 彦, 半田 努

はじめに

胸骨を中心にして鎖骨、肋骨に慢性炎症症状や骨肥厚を呈する胸鎖肋骨肥厚症 (1975 年 Kohler) はこれまで多数報告されてきたが、その病態や治療法にはまだ不明な点が多く残っている。われわれは胸骨柄体結合部を中心に慢性の頑固な疼痛を訴えた患者で、病巣部の部分切除を行ったところ、術直後から症状が改善した症例を経験したので報告する。

症 例

症例：45 歳，女性

既往歴・家族歴：特記すべきことはない。

現病歴：1991 年 11 月頃より誘引なく胸骨部痛が出現し、近医で消炎鎮痛剤の投与を受けて症状は一時軽快したが、その 2 カ月後には疼痛が再発した。対症療法で経過観察をしていたが 1992 年 8 月頃からは胸骨部痛が更に増強、持続したために、同年 9 月に当科を紹介されて受診した。当科初診時には胸骨部の安静時痛、呼吸時痛が強く、夜間不眠をも訴えていた。

現症：他覚的には胸骨柄体結合部の腫脹と圧痛が著明であった。掌蹠囊包症を思わせるような皮

疹は認めなかった。

血液検査所見：軽度の白血球増多を認める以外は異常は認めなかった (表 1)。

X 線写真所見：胸骨の単純 X 線写真では、胸骨柄体結合部のわずかな骨破壊像とその周囲の軽度の骨硬化像が認められた (図 1)。

骨シンチグラム所見：Tc^{99m} 骨シンチグラムではやはり胸骨柄体結合部周辺での取り込みの増加が明らかであった (図 2)。

経過：当科でも消炎鎮痛剤を投与して外来で経過を観察したところ疼痛は幾分軽減したものの満足できるほどではなく、1992 年 11 月、骨生検目的で当科に入院となった。

手術所見：前身麻酔下で骨を展開し観察したところ、胸骨柄体結合部を中心にした骨肥厚を認め、その部分を短冊形に切除した (図 3)。骨髓腔は灰白色の緻密な硬い海綿骨で置換されていたが、膿瘍や腐骨は認められなかった。

表 1. 血液生化学所見 (1992 年 11 月 4 日)

RBC	444 × 10 ⁴ /μl	赤沈	1 h 6
WBC	9,100 × 10 ⁴ /μl		2 h 20
Hb	12.7 g/dl	RA	20.0 IU/ml
Ht	38.9 %	CRP	0.26 mg/dl
Plt	30.5 × 10 ⁴ /μl		

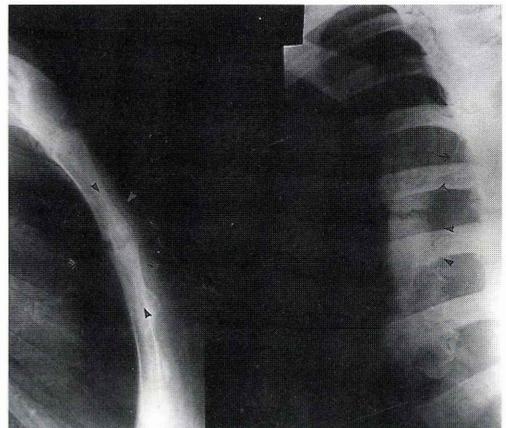


図 1. 胸骨単純 X 線像：柄体結合部周囲の骨硬化像をみとめる。

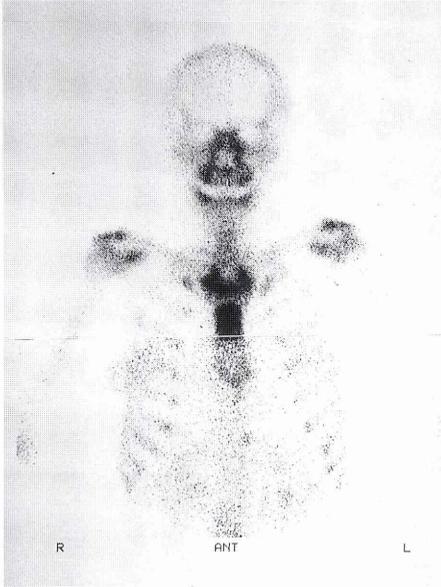
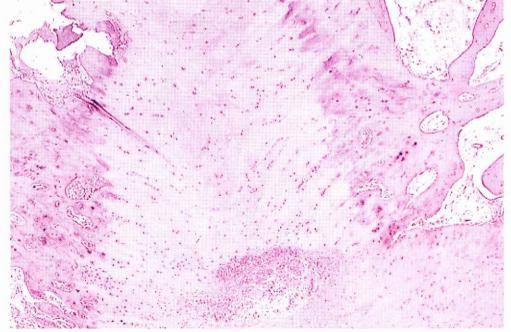
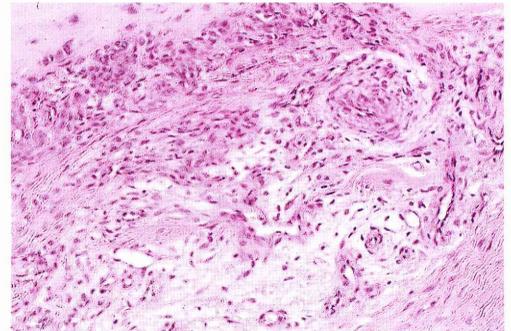


図2. TC^{99m} 骨シンチグラム：胸骨柄体結合部周囲の異常集積を認める。



4a



4b

図4. 胸骨柄体結合部病理組織像
a: 弱拡大 血管結合織の進入
b: 強拡大 肥厚した血管と結合織像

手術（1992年11月10日） 切除範囲

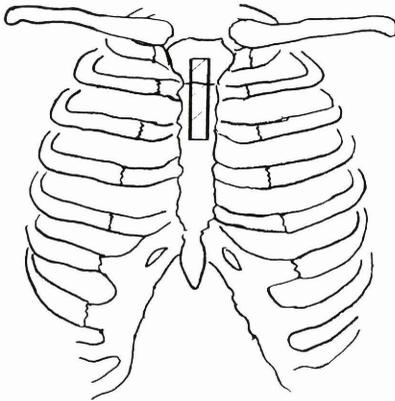


図3. 胸骨切除範囲

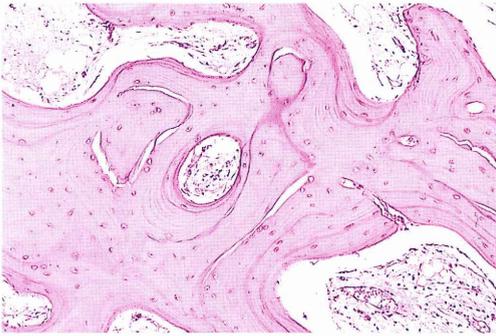
病理組織所見：光顕下の病理組織像では胸骨柄体結合部でおもに形質細胞を伴った血管結合織の進入像や、血管壁の肥厚像が認められた（図4a, b）。また骨髓部では、やはり血管結合織の進入と旺盛な添加骨形成像が認められ、骨梁幅は全体に太くなっていた（図5a）。その拡大像では既存骨梁の吸収と添加骨の形成が盛んで bone remodel-

ing の亢進している状態が伺われた（図5b）。これらはいずれも慢性炎症を基盤とした反応性の骨肥厚像であった。

術後経過：術直後より当初の胸骨部痛は軽快し、術後7カ月を経た現在、当初の疼痛は殆ど消失している。

考 察

胸骨を中心とし、鎖骨、肋骨の間で慢性炎症状態を示す疾患は、これまで胸骨、鎖骨の骨髓炎¹⁾、胸肋鎖骨間骨化症²⁾、Sterno-Kosto-Klavikuläre Hyperostose（胸鎖肋骨肥厚症）³⁾ などさまざまな名称で報告されてきた。しかし、その病態はなお不明で、現在のところ胸鎖肋骨肥厚症の診断基準はまだ確立されていない。われわれは胸骨ないし胸鎖肋部の疼痛、腫脹、隆起などを主訴とし、X線



5a



5b

図5. 胸骨骨髄部病理組織像
a: 弱拡大 骨髄部での血管結合織の進入と添加骨による肥厚した骨梁
b: 強拡大 既存骨梁の吸収と添加骨形成

写真上、同部の骨関節破壊像や異常骨増殖像を認め、さらに骨シンチグラムで異常集積像を呈するものを本症と診断し、外傷や腫瘍、慢性関節リウマチ、化膿性骨髄炎など原疾患が明らかなものは除外した。

安倍⁴⁾によるとこの疾患は30~50代の女性に好発し、上位胸鎖肋骨部の肥厚性病変のあるものが最も多いが、下位胸肋部まで病変が及ぶものもある。病脳期間は1カ月から5年以上とさまざま、頑固な疼痛を訴え慢性の経過をたどるといふ。この症例での病脳期間は10カ月で時間の経過とともに徐々に疼痛が増悪する傾向にあった。本症の合併症は特徴的で、安倍⁴⁾の症例中、掌蹠膿疱症が44%に、慢性扁桃腺炎が26%に合併していた。血清学的には血沈値の亢進やCRP高値を認める

ことがある以外、特別な所見はない。

X線像は鎖骨と上位肋骨の骨増殖像を呈するものと、胸鎖肋関節の破壊像を呈するものがあり、安倍はその病巣の局在とX線写真増像上の所見から1)上位胸鎖肋骨肥厚型、2)上位胸鎖肋関節症型、3)汎胸鎖肋骨肥厚型、4)胸骨柄体結合型の4型に分類しているが、本症例は4)の胸骨柄体結合型に相当する。これらが、このようなtypeの相違か、stageの相違であるかは明らかでないが、胸骨柄体結合型から汎胸鎖肋骨肥厚型に進展した症例もある事からstageの相違の可能性も考えられる。

また^{99m}Tc骨シンチグラムによる検索は病巣の広がりをよく反映し、本疾患の診断と治療上、有用な検査方法である。本症例では胸骨柄体結合部に異常な集積像を認め、この部位を中心に短冊型の骨切除を行った。病理組織学的検索では、膿瘍や腐骨などの骨髄炎を思わせる所見は認められず、慢性炎症による反応性の骨肥厚像としか言いようのない所見であった。

本疾患の病因に関しては現在のところ全く不明で、先に述べたような特徴的な合併症から、免疫異常を基盤にした何らかの感染性疾患の一部分症状とも考えられる。この際、本症が胸鎖肋骨部に限局し発生する理由は明らかでないが、その部位が絶え間ない呼吸運動で安静が保ち難い部分であり、一旦発症すると容易には治療し難い解剖学的特殊性があるとも考えられる。

従って、この疾患の治療法としていまのところ確定したものはない。軽症例ではNSAIDが比較的有効だが、本症例のように疼痛が強くNSAIDが無効で病巣が小範囲に限局している症例では病巣切除が適応になる場合があると考えられ、実際、本症例に限って言えば有効であった。ただし病巣が広範囲にわたる場合には切除によっても疼痛が軽快せず再発を繰り返し、治療に苦慮することがあり注意を要する。また、扁桃腺炎合併例で誘発テストにより症状が増悪する場合には扁桃腺摘出が有効であるとの報告もあるが、その結果は定かではない。

ま と め

胸鎖肋骨肥厚症の胸骨柄体結合型で病巣部分切除を行ったところ術直後より症状が改善した症例を経験したので報告した。

文 献

- 1) 喜多正鎮：胸骨柄部硬化性骨髄炎について。臨整外 **13**, 235-242, 1978.
- 2) 園崎秀吉 他：胸肋鎖骨間骨化症。関東整災誌 **9**, 196-200, 1978.
- 3) Köhler, H. et al.: Sterno-kosto-klavik ulare Hyperostose. Deut. Med. Wshr. **100**, 1519-1523, 1975.
- 4) 安倍吉則 他：胸鎖肋骨肥厚症について。整形外科 **27**, 749-753, 1984.