皮膚多發性骨腫の一例

A case of multipal Osteoma cutis

日本醫科大學第三醫院産婦人科教室

(主任 三谷 茂教授)

研 究 生 田 邊 三 郎

Tanabe Saburo

緒 言

皮膚骨腫は極めて稀有なる疾患であつて内外文献を渉獵するも、原發性骨腫とすべきものは 10 症例をこえない、且つ多發性定型的の症例は 1908 年 Heidingsfeld の報告以外には見當らない。本邦に於ても淡中、薄場、西畑、古賀渡邊(正)、渡邊(昭)、樋口光本兩氏、大森氏等の例があるが一二を除いては石灰化表皮腫の化骨例であつて何れも孤立したものである。最近四才の男児の兩上肢皮下に結石様硬性腫瘍を生じて左肘關節強直、右肘關節部の不全強直をきたしたので此の腫瘍の除去を希望して筆者の自宅に來院した此の例に觀血的整形手術を施し、除去した腫瘍の一部の組織検査を行ひ、稀有なる定型的多發性皮膚骨腫なる事を確認した。

症 例

[ ] 男子 昭和 21 年 5 月 15 日生

初診： 昭和 25 年 10 月 26 日

主訴： 兩側肘關節運動障礙

本症の既往並に經過： 出生時に兩肘關節部に小指頭大の赤い斑點があり、漸次その斑點が擴大硬化し上腕並びに前腕更に手掌にまで波及した。その波及狀況は、先ずけし粒狀の赤褐色の斑點が、次々に弧立性に生じ、2 乃至 3 ヶ月で漸次硬く皮下にふれるようになり、半米粒大より次第に硬化し、或るものは癒合して鳩卵大の大きさに達したのものもある。2, 3 近醫の診察を乞ふも確診つかず、自覺障礙なき爲無治療に經過した。生後 3 年目より左肘關節の運動障礙が起り、最近では直角位に屈曲せるまゝ殆んど運動不能となつた。更に昨年 6 月頃より右肘關節の運動も不充分となり、續いて腕關節、指

關節にまで運動障害が波及するので來院した。

家族歴： 兩親健在、近親結婚でもない。また近親にこのような類似疾患のあつた事も聞かぬ。同胞 3 人、姉 2 人、弟 1 人何れも健、母、本人共にワツセルマン氏反應陰性、既往に麻疹を經過した外著患はない、勿論火傷、外傷等の既往はない。

現症： 左肘關節の外側を中心とし上方は上腕の中央外側まで、下方は腕關節の外側面に及ぶ皮膚に骨腫あり、肘關節は 90 度の屈曲位に強直し、肘關節部には小鶏卵大の骨腫をふれ、このものは基底及び皮膚と強く癒着して居る。上腕及び前腕外側部の骨腫は小なるものは半米粒大より大なるものはそら豆大に及ぶ、これらは何れも皮膚と癒着するが深部基底とは癒着しない。皮膚色調は、やゝ紫紅色に見える。皮膚骨腫の存在部位は、2～4 握巾の帶狀の皮膚にのみあつて他の部の皮膚には見られぬ。

右上肢も殆ど同様の所見であつて肘關節の可動性は僅かに 40 度、に過ぎぬ。骨腫は上方は肩胛關節後方、肩胛棘にまで及び、下方は中指及び第 4 指の第 1 基節にまで及んでゐる。又右上腕内側には長さ 5 握・巾 2～3 握の帶狀を爲して、極めて少なる無數の骨腫の存在を認める。(別紙分布圖参照)

「レ」線所見： 左肘關節後面に於て鶏卵大の骨腫をみると、一般に硬化像著明、骨腫中に斑點狀の透明部がある。新生骨腫は上腕骨上方を一部破壊し、關節腔内に侵入してゐるのが見られる。尺骨及び橈骨の上端は殆ど變化がないが、尺骨頭が一部破壊されてゐる小なる皮膚骨腫は「レ」線像上にはあらはれぬ。右肘關節も

殆ど同様な所見であるが、尺骨及び橈骨の上端にも骨腫による骨破壊を認めることができる。

10月29日 左上肢の手術を施行した。

手術所見： 左上肢、左上腕伸側中央部から前腕の上、 $\frac{1}{3}$ 境界部に亘つて、皮膚病變部兩側に皮膚切開を加へ、皮膚及び皮下の硬結組織を除去した。その際肘關節伸側は甚だ硬固にして皮膚は直接骨に癒着したもの如く可動性がない。他の部分の皮膚及び皮下組織は大部分骨様若しくは軟骨様硬度で、筋組織にも一部波及してゐることが認められるが、骨との癒着は認められぬ。上腕骨下端は骨の性状を失ひ骨質、海綿質の區別なく、一様に粗鬆にして骨の破壊されてゐるのを認めることができる。前腕骨は周囲の軟部、筋腱組織と癒合して硬固なる組織と化し、固有の性状を失ひ、末梢部及び中樞部に近づくに従ひ、筋膜様組織より、正常の筋組織に移行してゐる。關節内は増殖した軟骨様組織で充満し、關節面は全く認められない。此の増殖した關節内組織を除去、相互の癒合を剝離病變組織を悉く清掃して關節を可動性にした。しかる後筋肉縫合、筋膜縫合、皮膚縫合、で手術を終了した。術後上腕上端より、前腕下端に及ぶギプス綱帶、「リングル」500cc「ペニンリン」150萬單位、「トロンボゲン」3筒注射、創面は一期癒合した。

右上肢手術 11月12日

左上肢に比して病變比較的輕度であつたから肘關節伸側の略々中央に於て約3糎の縦皮切開を加へ、之より外側の皮膚病變部は表面より剝離除去し、内側の病變部は主として皮下に深く存するため、皮膚を排して内方から剝離除去した。次に肘頭部より内側に3糎横皮切開を加へ、更に縦皮切開を下方に3糎延長して、前腕の病變部を切除した。三頭腕筋は萎縮して、筋纖維の性状を辛うじて保つてゐる。尺側上顆は尺骨と癒着し、尺骨神経は周囲の化骨した軟部組織に埋没せられてゐる。この神経をできるだけ遊離し骨性癒着も剝離して、關節運動を可能ならしめ、三頭腕筋の延長縫合を行つて創を閉鎖した。

11月26日 第3回目の手術を施行した。即ち兩上肢皮膚殘部の皮膚骨腫を除去した。術後の経過良好で、左肘關節可動性は約30度となつた。また右肘關節可動性は約90度となつた。

組織學的所見

此の部の皮膚上皮は比較的薄く、不規則である。表面は極めて不平坦で、所によつては皮下深部に突入するの像が見られる。また所によつては表皮組織の廣汎なる壊死の像が見られる。

骨組織は皮膚から皮下に及んで不規則且つ散在性に存在してゐる。其の形は種々で圓形、橢圓形、梁狀、網目狀を呈するものがある。此等の骨組織は周囲の皮膚或は皮下脂肪組織内に島嶼狀に出現し、周圍に骨の移行組織を認めないものと、所に依りては周圍に緻密な結合織や、硝子様化した組織あり漸次骨組織に移行して居る部分とが認められる。尙又島嶼狀のものでも骨新生組織の認められるものと、然らざるものとがある。又骨組織の周圍に造骨細胞の發生を見るものとなないものとあり、又破骨細胞が破骨の機轉を示して居るものもある。一般に皮膚の部分の骨組織は小さく、皮下組織に及ぶもの或は皮下深部にあるものはやゝ大きな梁狀、或ひは網目狀を示してゐる。網目狀を示すものゝ網目の間は脂肪組織で、骨髓様造構を示すものは殆んど認められない、しかし所によりては骨髓巨大細胞は認められないが、毛細血管の増生、僅かながら造血様所見が認められる。一部には骨細胞が無構造で、壊死の様な所見を示す部分もあるが、しかし其の周圍は骨様組織の新生がある。一般に骨組織と周囲の關係を見ると、緻密な結合織より骨組織の新生に及ぶ化生の像が、認められない所見が多いが、所によりては、肥厚した極めて緻密な細胞配列を見る骨膜同様な組織を見る所もある。以上の如き組織標本及び、臨床所見からして、本患者の骨の成因は黴毒、外傷、炎症や組織の崩壊に依る骨形成等が考へられない點からして、先天的の胚芽の異常によるものと思はれる。只本例で最も興味あることは、正常なる發育をとげた毛髮の像を認め得ないことで、而も極めて小なる骨組織、或は

骨原基と思はれるものは、皮脂腺に隣接して1或は2個存在することで、其の初期の像がまた毛根の像に酷似する所を以てすれば、その發生が毛髪と密接なる關係のあることは疑ふ餘地がない。

考 按

皮膚骨腫の成因に就ては種々の報告がある。Meyer (1951) は、一老婦人の慢性潰瘍に、本病の發生したことを報告してゐる。Wikens (1858) は上皮腫の化骨を記載してゐる。所謂原發性骨腫と見做すべきものは、Colemann (1874) の6才の女兒の足趾に、1釐厚きの骨片を剔出した報告のあるのが最初の様である。その他 Taylor and Mac, Kenna (1908) は15才女兒の皮膚數ヶ所に骨腫を Car (1910) は2才兒の耳下に、Becker は一婦人の頭皮に、Dietrich は手指に贅骨様の形を示す本症を報告してゐる。Salzer, Strossberg は頭皮や足背に原因不明の皮膚骨腫を報告してゐる。Musger は一婦人の下腿に4才頃から發生したと思はれる例を報告してゐる。本邦に於て淡中 (大14)、西畑 (昭10) 氏等の例は先ずこれ等の報告に一致する原發性の骨腫である。Maeherbe, Eve, Hutchinson Nicolson 等は上皮腫の化骨例を報告してゐるが、本邦に於ても薄場、渡邊(正)、渡邊(昭)、大森、古賀、樋口光本、兩氏の例は石灰化表皮の化骨例である。

開腹術後の瘢痕に骨腫を形成したと云ふ報告は、Rokitansky (1852) に甫まり Didier Natol, Pierson and Nervig の報告がある。

Lloyd-William は30年前の火傷性瘢痕から本症を發生したことを報告した。

其他の皮膚疾患から發生した報告に Kreuz-Prod (1902) の天疱瘡患者の四肢に、Pollitzer (1910) の顔面鞏皮症に、Trimble (1920) の顔面紅斑性狼瘡から本症を發生したことを報告してゐる。また Hopkins (1928) は44才の老女の瘡瘡が、本症を惹起した例を報告してゐるが、殆んど同様の例を Morris Leider (1950) が長期間重症瘡瘡の結果として、皮膚骨腫を發生したことを報告してゐる。

先天性の胚種異常から本症を發生した報告は Heidingsfeld (1908) の例で、有毛性母斑より多發性皮膚骨腫を發生したものである。本症例も生後既に肘關節部位に赤い母斑があつて、これより漸次皮膚骨腫を發生しきたるものであつて、其の發生初期の状態は、同氏の例と全く相一致するものである。而して其の後の状態を見ると兩上肢の伸展側の有毛部に、對照的に繼發して、極めて慢性の経過をたどり、現在に至つたものであつて、其の多數に發生してゐる部位には、最早毛髪を認めない、即ち前述した如くに毛根の胚種異常より發生したことが明らかであつて、極めて興味ある例である。

骨形成の機轉に就て Sehart は6つの場合を擧げてゐる。1. 石灰化皮膚嚢腫の化骨から起る場合、2. 貯溜嚢腫の内容が石灰化して、それが化骨化するもの、3. 皮内に原發性の骨が形成される場合、4. 皮膚の腫瘍即ち脂肪腫、淋巴瘤、癌腫などから骨が新生される場合、5. 慢性炎症である梅毒や、慢性皮膚炎の経過中に骨の形成される場合、6. 高年者の下肢伸側皮下に存在する脂肪組織から骨が形成される場合。

また Hopkins は皮膚の骨形成を3つの型に分類してゐる。1. 先行した障害の認めることのできない場所に骨形成を認める。2. 上皮腫内の骨形成、即ち石灰沈着とか、化生現象、

3. 炎症及び退化現象のある組織内の骨形成、即ち皮膚炎、潰瘍、痕癢などである。

Musger は化生現象によるものと、非化生現象によるものと2つに分類して、前者は病的組織、腫瘍、嚢腫、畸形、瘢痕、又は肉芽組織よりの化骨を擧げ、後者には胎生的迷芽、外傷による骨膜片の轉位、遺傳的素質、骨系統の腫瘍の轉位による化骨を擧げてゐる。

要するに胎生的迷芽は誰れでも唱へる所ではあるが、未だ曾つて毛根の胚種異常から骨形成を唱へたものはない。

本症の腫瘍は單發が多發である。胚種異常による Heidingsfeld の例は多發で50個以上と記載されてゐるが、尙多く存在してゐたこと

を想像することが出来る。本例では無数で、恐らく毛根の数だけ発生するであらうことを想像することができる。

大いさは粟粒大から拇指頭大に及んでゐる。皮膚と癒着してゐるが、底とは移動性がある。右の如く硬いが疼痛はあまりない。本例では兩肘關節部の腫瘍は、鶏卵大に及んで上腕骨、尺骨橈骨を破壊して、關節内に侵入して、強直をきたしたものである。骨の形は球形、板狀、種種あり、年齢的關係は 15 ケ月より 64 才に及んでゐる。性には關係はない様である。

診断は上記の症狀により簡單にて、特に「レ」線像により確認される。但し石灰化する上皮腫、粉瘤等と鑑別診断されねばならぬことは勿論である。治療法は障礙のあるときは剔出手術を行ふ外はない。特に胚種異常によるものは處置な

し。

豫後は生命に對しては一般に可良である。

本症の遠隔成績は手術後 4 ケ月時に於ては可動性は著しく増し、皮膚の膨隆も除去されしため、家人も喜び居たるも約 1 年にして再び以前と同じく上腕の強直をきたした。尙今後腫瘍の再發如何に關して、他日發表の機あることを附記する。

結 論

稀有なる皮膚多發性骨腫に、觀血的手術を加へ、病理標本を觀察したるに毛根の胚種異常によるものなることを確認し得た。

稿を終るに當り御懇篤なる御指導と御校閲の勞を賜りたる三谷教授に深甚なる謝意を捧ぐ。

本報告は大要は昭和 26 年 6 月 19 日第 12 回日本醫科大學第三醫院研究會で報告した。

本症例皮膚骨腫分布模型図

左上肢外側

右上肢外側

右上肢内側

附 圖〔2〕

寫眞貳葉 寫眞圖中の如く之以上には右上肢伸展し得ず

第一圖 皮膚面の凹凸不平ト骨形成

第二圖 骨形成の位置を示す

第三圖
大なる骨と骨髓形成

文 献

- (1) 薄場 武 (東北大) 石灰化表皮腫に就て。皮膚科及び泌尿器科雑誌第26巻第1號, 大正15年1月
- (2) 薄場 武, 石灰化表皮腫の追加。皮膚科及び泌尿器科雑誌第28巻第3號昭和3年3月
- (3) 古賀公吾, 皮膚内骨新生。皮膚と泌尿4巻2號210昭和11年4月
- (4) 佐藤 徹, 皮膚軟骨腫皮膚科泌尿器科雑誌39巻3號362昭和11年3月
- (5) 齋藤昌二, 皮下軟骨腫, 皮膚科圖説40號251昭和11年12月
- (6) 渡邊正彦, 石灰化素皮腫の1例, 皮膚科泌尿器科雑誌43巻4號502昭和3年4月
- (7) 小山征助, 皮膚腫瘍, 皮膚科泌尿器科雑誌46巻4號昭和14年10月
- (8) 太田正雄, 皮膚腫瘍の種類及び其の診斷, 醫學輯覽特輯號46, 昭和14年12月
- (9) 横山 祐, 局所性皮膚石灰沈著症 (圖説) 醫界週報314號35, 昭和16年2月
- (10) 大森周三郎, 局所性皮膚石灰沈著症 (皮膚結石) 圖説, 臨床慶林2巻2號, 昭和15年2月
- (11) 松井徳兵衛, 西畑亮藏, 皮膚軟骨腫の1例皮膚科紀要38巻1號39, 昭和16年7月
- (12) 山田一良, 田村一磨, 皮膚結石並びに皮膚結石症の「レ」線分析的所見, 日本醫學及び健康保險3248號2202, 昭和16年9月
- (13) 樋口謙太郎, 光本重信, 皮膚内骨形成, 皮膚と泌尿9巻2號117, 昭和16年4月

外 國 文 献

- (1) Carl, Enchondrosteoma der Haut A.f. Derm. u. Syph. 1910.
- (2) Heidingsfeld, Osteoma cutis A.f. Derm. u. Syph. 1906.
- (3) Kolaczek, Enchondrom der Halses. Branis B. 1910.
- (4) Strassberg, Über ein ossifizieren des Chondrom. A.f. Derm. u. Syph. 1913.
- (5) Zalin, Über congenitate Knorpelreste am Hals: Virchow. A. CXV.
- (6) Morris Leider, Osteoma cutis as a result of severe Acne Vulgaris of long duration. Archiv. Derm. and Syph. Sept. 1950 P. 403.
- (7) Leider M. Osteoma cutis, Report of a Case. Arch. Derm. and Syph. 58:168 (Aug. 1948)
- (8) Costello M. Metaplasia of Bone, Report of a Case, Arch. Derm. and Syph. 56:536 (Oct. 1947)
- (9) Hopkins J.G. Multiple Miliary Osteomas of the Skin, Report of a Case, Arch. Derm. and Syph. 18:706 (Nov. 1928).