小児孤立性骨嚢腫 active phase における 骨穿孔術の治療成績

鶴 亜里紗* 河 村 一 郎* 横 内 雅 博*
永 野 聡* 松 山 金 寛* 中 島 隆 之*
有 島 善 也* 善 明 美千久* 小 宮 節 郎*

Trepanation of Simple Bone Cyst in Childhood

Arisa Tsuru*, Ichiro Kawamura*, Masahiro Yokouchi*,
Satoshi Nagano*, Kanehiro Matsuyama*, Takayuki Nakashima*,
Yoshiya Arishima*, Michihisa Zenmyo*, and Setsuro Komiya*

小児孤立性骨嚢腫 (Simple Bone Cyst : 以下 SBC) の active phase に、骨穿孔術を施行した症例の治療成績を検討した。2001 年 1 月以降に当院で加療した SBC 患者 35 例のうち、小児 SBC の active phase で骨穿孔術を施行した 7 例 (男 5 例, 女 2 例, 平均年齢 9 歳 4 ヶ月) を対象とした。観察期間は平均 67.6 ヶ月, 発生部位は、上腕骨近位 4 例, 大腿骨近位 3 例であった。7 例中 3 例に初回手術後の再発を認め再発率は 43% であった。再発を認めた 3 例には全例に再度骨穿孔術を施行し、最終観察時には 7 例中 6 例 (85.7%) が良好な結果であった。骨穿孔術は低侵襲であり、特に active phase に対しては骨端線損傷の危険性を回避できる有効な治療法であると考えられる。しかし自験例においても再発率が 43% と高率であり、低侵襲でかつより再発率が低い方法の開発が望まれる。

We evaluated the clinical results of seven patients who underwent trepanation for simple bone cysts with active phase in childhood.

From January 2001 to March 2009, we performed trepanation, on five men and two women, and followed them up for an average of 67.6 months. Three of seven patients had recurrence of simple bone cyst (43%). We operated on the patients for trepanation again, and the clinical outcome was good (85.7%). Postoperative complications were one pathological fracture. No other complications were seen. Trepanation has low stress and is useful for active phase simple bone cysts, but has a high rate of recurrence. We may therefore need to establish a new treatment with low stress and lower rate of recurrence.

Key words : simple bone cyst (骨嚢腫), trepanation (骨穿孔術), treatment (治療方法)

はじめに

孤立性骨嚢腫 (Simple Bone Cyst : 以下 SBC) に対しては従来よりステロイド注入法, 搔爬骨移植術, 骨穿孔術などの様々な治療方法が行われている¹⁾が, その中で骨穿孔術は低侵襲で有効な方法とされている。当院において、小児 SBC の active phase に骨穿孔術を施行した症例の治療成績を検討したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

対象と方法

2001 年 1 月から 2009 年 1 月までに当院で治療した SBC 患者 35 例のうち、小児の active phase の 7 例を対象とした。内訳は男児 5 例, 女児 2 例で手術時平均年齢は 9 歳 4 ヶ月であった。平均観察期間は 67.6 ヶ月で発生部位は上腕骨近位が 4 例, 大腿骨近位が 3 例であった。全例において病理組織学的診断を得ていた。これらの症例について再発率, 最終成績, 合併症について検討した。

* 鹿児島大学大学院医歯学総合研究科先進治療科学専攻運動機能修復学講座整形外科 Department of Orthopaedic Surgery, Graduate School of Medical and Dental Science, Kagoshima University, Kagoshima, Japan

結 果

症例と結果の内訳を表 1 に示した。7 例中 3 例に再発を認め再発率は 43%であった。再発までの期間は平均 5.3 ケ月であり、全例に再度骨穿孔術を施行した。その結果、現在も 1 例に cyst が残存しているが 2 例は病巣の再増大もなく良好に正常骨に置換されている。最終観察時での結果は 7 例中 6 例 (86%) が経過良好で good であった。合併症は 1 例に術後病的骨折を認めたが、そのほか術後感染や血管神経損傷などの合併症はなかった。

症 例 提 示

症例：4 歳女児 左大腿骨頸部骨嚢腫

現病歴：H20 年 2 月頃より誘因なく跛行が出現し前医受診。単純 X 線で大腿骨近位に骨腫瘍を指摘され当科紹介となった。既往歴、合併症、血液検査所見に特記すべきものはなかった。

経過：初診時単純 X 線で左大腿骨頸部に皮質骨の菲薄化を伴う嚢腫様の病変を認め (図 1 a)，病変の拡大に伴う病的骨折の危険性があったために骨穿孔術を施行した。手術方法は以前の我々の報告に準じて行った⁷⁾。患者は側臥位とし、まず大腿外側に約 5 mm の

表 1 症例及び結果

No.	年齢	性	部位	再発	再発までの期間(月)	再手術方法	最終観察結果(月)
1	10	女	大腿骨	なし	0	—	Good (96)
2	13	男	上腕骨	なし	0	—	Good (17)
3	11	男	上腕骨	なし	0	—	Good (99)
4	11	男	上腕骨	なし	0	—	Good (82)
5	4	女	大腿骨	あり	4	trepanation	Good (13)
6	6	男	大腿骨	あり	4	trepanation	Good (81)
7	10	男	上腕骨	あり	8	trepanation	Cyst 残存 (85)

図 1 提示症例の経過 X 線

- 初診時、左大腿骨頸部に皮質骨の菲薄化を伴う嚢腫様の病変を認めた。
- 初回骨穿孔術後、嚢腫は良好に修復されつつある。
- 嚢腫の再発を認めた。
- 再穿孔術後、再発病変は良好に置換されつつある。

皮切を2箇所で作製し、同部位から2本のTrepan針を透視下に確認しながらcyst内に刺入。自然滴下にて内容物が漿液性の黄色透明な液体であることを確認した。次に内容物の確実な除去のためにpumping及び内容物の吸引、洗浄を施行。その後に $\phi 1.5\text{mm}$ のK-wireでcyst壁に20~30箇所の穿孔術を施行した。術後3ヶ月の時点まではCystは良好に正常骨へ置換されつつあったが(図1b)、術後4ヶ月頃より初発病変部位よりも近位外側を中心にしてcystの再発を認め、7ヶ月の時点では明らかとなっていた(図1c)。Cystは徐々に増大傾向にあったために再手術を施行。4歳という低年齢であり再手術も骨穿孔術を選択した。現在、再手術後7ヶ月であるが、Cyst内に修復像を認めており(図1d)、あきらかな再発もなく経過良好である。

考 察

SBCに対する治療としては以前より様々な方法が報告されており、その治療成績については緒家により様々である。ステロイド注入法は、再発率10~50%²⁾⁸⁾と報告によりばらつきがあるが、利点としては、局所麻酔で施行可能であり最も低侵襲な方法である点が挙げられる。しかし、ステロイドの副作用として、5~15%に脚長差を認めるという報告があり注意を要する¹⁰⁾。骨穿孔術は、低侵襲であるが、自験例でも42%と再発率が高く³⁾、皮質骨を穿孔するために術後の病的骨折の危険性が指摘されている。掻爬骨移植術は5~10%と再発率は低い⁴⁾⁶⁾が、十分な移植骨を得るのが難しい。また高侵襲の手術であり、特にactive phaseのSBCに対する治療としては骨端軟骨損傷の危険性が指摘されている。

SBCの病因としては以下の機序が考えられる⁷⁾。何らかの原因によって、骨内に二次的に静脈の鬱滞が生じ、その結果囊腫内内圧が上昇する。このことが、局所的な骨壊死を導き、液体の貯留を引き起こす。そして、この貯留した液体内の単球や多核球によってIL-2が産生され、IL-2がプロスタグランジンE2や膠原溶解酵素の産生を刺激する。このようにして産生されたプロスタグランジンE2が、破骨細胞活性を刺激し骨吸収を促すという機序である。

我々はこのSBCの発生要因にもとづいた治療法が骨穿孔術であるとの考えに基づいて治療に用いている。

その理由として、1つ目は囊腫内内容物の除去が、囊腫内圧を低下させ、骨吸収因子の除去にもつながるという点である。更に2つ目には、囊腫壁皮質骨の骨孔作成により、骨膜に骨形成を促し、また囊腫内内容物を外に逃がすことができるという点。3つ目には、囊腫内骨髓にも骨孔を作成することによって骨髓内の静脈還流も促進させ、そのことが再発予防にもつながるという点である。このことは、SBCで、病的骨折をおこした患者のうち、15%が治癒する⁹⁾という報告からも裏づけられる。今回の我々の結果では、最終観察時には7例中6例が良好な結果であり有効率85.7%であった。このことより骨穿孔術は低侵襲であり、特にactive phaseに対しては骨端線損傷の危険性を回避できる有効な治療法であると考えられる。しかし初回手術での再発率が43%と高率であり、その再発率の高さが問題である。

近年、土屋ら⁹⁾はCannulated screw法を開発し再発率7.6%と良好な結果を報告している。この方法の問題点としてはscrewの外径が8mmと大きく、特に幼少児では病的骨折の危険性が高いと考えられ、実際に彼らは再発率は低いものの、病的骨折やdelayed healingのために最終的に再手術を要したものは26.9%とも報告⁹⁾している。小児SBCのactive phaseに対しては、低侵襲でかつより再発率が低い治療法の開発が必要と思われる。

ま と め

①小児SBCのactive phaseに対し骨穿孔術を施行した7例について検討した。

②初回手術後の再発率は43%であったが、最終観察時には、85.7%が良好な結果であった。

③骨穿孔術は低侵襲で小児SBCのactive phaseに対しても有効であるが、再発率が高いことから、低侵襲でより再発率が低い治療法の開発が望ましい。

参 考 文 献

- 1) Baig, R., Eady, J.L.: Unicameral (simple) bone cysts. South. Med. J., 99: 966-976, 2006.
- 2) Capanna, R., et al.: The natural history of unicameral bone cyst after steroid injection. Clin. Orthop., 166: 204-211, 1982.
- 3) Chigra, M., et al.: The aetiology and treatment of simple bone cysts. J. Bone Joint Surg., 65B: 633-

- 637, 1983.
- 4) Fahey, J. J., O'Brien, E. T.: Subtotal resection and grafting in selected cases of solitary unicameral bone cyst. *J. Bone Joint Surg. [Am]*, 55-A : 59-68, 1973.
 - 5) Garceau, G. J., Gregory, C. F.: Solitary unicameral bone cyst. *J. Bone Joint Surg. [Am]*, 36-A : 267-280, 1954.
 - 6) Inoue, O., et al.: Packing with high-porosity hydroxyapatite cubes alone for the treatment of simple bone cyst. *Clin. Orthop.*, 293 : 287-292, 1993.
 - 7) Komiya, S., et al.: Simple bone cyst: treatment by trepanation and studies on bone resorptive factors in cyst fluid with a theory of its pathogenesis. *Clin. Orthop.*, 287 : 204-211, 1993.
 - 8) Scaglietti, O., Marchetti, P. G., Bartolozzi, P.: The effects of methylprednisolone acetate in the treatment of bone cysts. *J. Bone Joint Surg. [Br]*, 61-B : 200-204, 1979.
 - 9) Tsuchiya, H., et al.: Cannulation of simple bone cysts. *J. Bone Joint Surg.*, 84-B : 245-248, 2002.
 - 10) Yandow, S. M., et al.: Autogenic bone marrow injection as a treatment for simple bone cyst. *J. Pediatr. Orthop.*, 18 : 616-620, 1998.
- ~~~~~