傍骨性軟骨異形増生 (bizarre parosteal osteochondromatous proliferation: BPOP) の1例

今村 純忠* 坂本 昭夫* 松本 嘉寛* 播戸谷 勝三*
松田 秀一* 高橋 祐介** 小田 義直** 岩本 幸英*

Bizarre Parosteal Osteochondromatous Proliferation (BPOP): A Case Report

Sumitada Imamura*, Akio Sakamoto*, Yoshihiro Matsumoto*,
Katsumi Harimaya*, Shuichi Matsuda*, Yusuke Takahashi**,
Yoshinao Oda**, and Yukihide Iwamoto*

傍骨性軟骨異形増生 bizarre parosteal osteochondromatous proliferation (BPOP) は手足の短管骨に好発し骨表面より、突出性に増殖する病変である。組織学的に骨、軟骨、線維組織にて構成される。骨髓との連続性は、通常みられない。近年、t(1;17)(q32;q21)などの染色体異常が、BPOPにて報告されている。我々は、BPOP症例を経験した。CT、MRIにて、病変は、正常骨髓との連続性を認めた。この骨髓との連続性は、BPOPの発生源と機序の解明のため、他のBPOP症例において、一般的な所見かどうか、解析を要する。

Bizarre parosteal osteochondromatous proliferation (BPOP) is a benign lesion that predominantly involves the hands and feet. BPOP is characterized by a heterogeneous mixture of cartilage, bone and fibrous tissue histologically. Recently, translocations of t(1;17)(q32;q21) are reported in BPOP. In this study, we report a BPOP case, in which computed tomography and magnetic resonance imaging depicted continuity of the central part of the lesion to the underlying bone marrow, which is considered to be not typical in BPOP. It must be confirmed if this feature is unique or common general. Further analysis of further BPOP cases by CT or MRI is necessary.

Key words : bizarre parosteal osteochondromatous proliferation (傍骨性軟骨異形増生), ring finger (環指), computed tomography (CT), magnetic resonance imaging (MRI)

はじめに

傍骨性軟骨異形増生 bizarre parosteal osteochondromatous proliferation (BPOP) は1983年にNoraらによって初めて報告された⁸⁾。BPOPは手足の短管骨に好発する。骨表面より発生し、正常骨髓との連続性はみられない。組織学的には、骨、軟骨、線維組織の混在を特徴とする。また、再発率が高いと報告される(約50%)⁹⁾¹¹⁾。近年t(1;17)(q32;q21)や1q32を

含む染色体異常が、BPOPにて報告されている¹⁾。我々は比較的稀なBPOPの1例を経験したので文献的考察を加え報告する。

症 例

59歳、女性

主訴：左環指の腫脹、疼痛

現病歴：受診の2ヶ月前より、特に誘因なく、左環指DIP関節尺側の腫脹が出現。徐々に増大傾向にあ

* 九州大学整形外科 Department of Orthopaedic Surgery, Graduate School of Medical Sciences, Kyushu University, Fukuoka, Japan

** 九州大学形態機能病理 Department of Anatomic Pathology, Graduate School of Medical Sciences, Kyushu University, Fukuoka, Japan

り当院受診。

既往歴：慢性膵炎

家族歴：特記事項なし

現症：左環指 DIP 関節尺側に骨性の隆起を認める。圧痛あり。発赤、熱感なし。

画像検査所見：単純 X 線にて左環指中節骨遠位に骨性腫瘤を認め (図 1 A)，4 ケ月の経過にて増大を認めた (図 1 B)。単純 CT では、正常骨髄との連続性を認めた (図 2)。MRI では T1 強調画像で低信号、T2 強調画像で高信号を呈し、ガドリニウム造影では病変周囲に強いエンハンスを認めた (図 3)。

経過と画像所見より BPOP の診断にて切除術を行った。切除は基部の骨皮質を含めて行った。組織学的に、骨、軟骨、線維組織がみられた (図 4 A)。病変部細胞には異形性は認めなかった (図 4 B)。組織学的に BPOP と診断された。術後 6 ケ月で再発は認めていない。

考 察

BPOP は骨皮質表面から突出性に増大し、骨軟骨腫でみられるような、正常骨髄との連続性は、通常認めないと報告される⁶⁾¹¹⁾。本論文の BPOP 例では、骨髄との連続性が認められた。BPOP の発生部位と機序の解明のために、この骨髄との連続性が、BPOP において、一般的な所見かどうか、他の BPOP 症例においても検討する必要があると考えられた。BPOP は反応性か腫瘍性かどうかの結論はついていない。BPOP は発症の 2 ケ月～3 年前に外傷の既往が 30% にあると報告され、組織学的にも、反応性病変と類似する。一方、近年 t(1;17)(q32;q21) や 1q32¹²⁾ を含む染色体異常が、BPOP に特異的と報告され、BPOP が腫瘍的側面を持つことが示唆されている²⁾³⁾⁹⁾¹⁰⁾。本症例においても、染色体分析にて inv(7)(q22;q32) の逆位を認めた (投稿準備中)。7q22 を含む染色体異

図 1 A：左環指中節骨に骨性腫瘤を認める
B：4 ケ月で増大傾向

図 2 CT にて腫瘤と骨髄に連続性を認める

図3 T1 低信号, T2 高信号の腫瘍であり, Gd で病変周囲にエンハンスされる

図4 A: 骨, 軟骨, 線維性組織の増生を認める
B: 病変細胞の異形成は認めない

常は骨髄異形成症候群, 急性白血病などで報告されている。

BPOP の治療に関しては外科的切除が勧められている。BPOP の高い再発率のため, 補助療法として凍結療法を勧めている論文もある⁴⁾。一方, 10 例中 1 例との低再発の報告もあり, その論文では, 基部の骨皮質を含めて切除することが重要だと述べている⁶⁾。本症例も, 基部の骨皮質を含め切除を行い, 術後 6 ケ月にて, 再発を認めていない。しかしながら, 再発は術後 2 ケ月～2 年と報告されており, 注意が必要であると考えられた⁷⁾。

結 語

我々は左環指に発生した BPOP の 1 例を経験した。

本症例では, 骨髄との連続性が認められた。BPOP の発生部位と機序の解明のために, この所見が, BPOP 一般的な所見かどうか, 他の症例においても検討する必要がある。また, BPOP の切除は, 基部の骨皮質を含めた切除がすすめられる。

参 考 文 献

- 1) Endo, M., et al.: Bizarre parosteal osteochondromatous proliferation with a t(1;17) translocation. *Virchows Arch.*, 447: 99-102, 2005.
- 2) Forrest, D.L., Lee, C.L.: Constitutional rearrangements of 7q22 in hematologic malignancies. a new case report. *Cancer Genet. Cytogenet.*, 139: 75-77, 2002.
- 3) Johnson, E.J., et al.: Molecular definition of a

- narrow interval at 7q22.1 associated with myelodysplasia. *Blood*, 87 : 3579-3586, 1996.
- 4) Lindeque, B. G., Simson, I. W., Fourie, P. A.: Bizarre parosteal osteochondromatous proliferation of a phalanx. *Arch. Orthop. Trauma Surg.*, 110 : 58-60, 1990.
 - 5) Meneses, M. F., Unni, K. K., Swee, R. G.: Bizarre parosteal osteochondromatous proliferation of bone (Nora's lesion). *Am. J. Surg. Pathol.*, 17 : 691-697, 1993.
 - 6) Michelsen, H., et al.: Bizarre parosteal osteochondromatous proliferation (Nora's lesion) in the hand. *J. Hand Surg. Am.*, 29 : 520-525, 2004.
 - 7) Nilsson, M., et al.: Molecular cytogenetic characterization of recurrent translocation breakpoints in bizarre parosteal osteochondromatous proliferation (Nora's lesion). *Hum. Pathol.*, 35 : 1063-1069, 2004.
 - 8) Nora, F. E., Dahlin, D. C., Beabout, J. W.: Bizarre parosteal osteochondromatous proliferations of the hands and feet. *Am. J. Surg. Pathol.*, 7 : 245-250, 1983.
 - 9) Orye, E., Van Bever, H.: Paracentric inversions: two new familial cases, inv (7) (q22q11) and inv(11) (q23q13). *J. Med. Genet.*, 20 : 231, 1983.
 - 10) Stanley, W. S., et al.: Constitutional inversion of chromosome 7 and hematologic cancers. *Cancer Genet. Cytogenet.*, 96 : 46-49, 1997.
 - 11) Tannenbaum, D. A., Biermann, J. S.: Bizarre parosteal osteochondromatous proliferation of bone. *Orthopedics*, 20 : 1186-1188, 1997.
- ~~~~~