踵骨に生じた骨好酸球性肉芽腫の一例

長崎大学医学部整形外科

長岡徳三・田中宏和

岩崎勝郎・鈴木良平

長崎大学府属病院検査部病理

津田暢夫

Case Report of Eosinophilic Granuloma in Calcaneus

by

T. Nagaoka, H. Tanaka, K. Iwasaki
and R. SuzukiDepartment of Orthopaedic Surgery Nagasaki University
School of Medicine

N. Tsuda

Pathologic Division, Central Diagnostic Laboratory,
Nagasaki University Hospital

A solitary eosinophilic granuloma of bone is the most benign variant in Histiocytosis X. Any bone in the skeletal system may be affected in childhood, and common sites for bone lesions include the skull, the shafts of long bones, and the ilium. Only one case involving foot bone was reported by Campbell and Leupold during the last ten years. We documented a case of eosinophilic granuloma arising in the left calcaneus of one year and seven months old boy. Eight months after the curettage and bone graft from his mother's iliac bone, he was free from symptoms and there were neither local recurrences nor metastases even on X-ray examination.

はじめに

骨好酸球性肉芽腫の好発生部位は、頭蓋骨、長幹骨、骨幹部および腸骨などであり、その他種々の骨に発生することが報告されているが、足根骨に発生した症例の報告は極めて稀れである。今回、我々は左踵骨に発生した骨好酸球性肉芽腫を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例. 1歳7カ月、男子。

主訴：跛行

家族歴および既往歴：特記すべきことなし。

現病歴：昭和57年6月頃、何ら誘引なく跛行が出現した。左踵骨部に、軽度の腫脹と局所熱感を認めた

ため、近医を訪れX線検査にて左踵骨体部の骨透亮像を指摘され、昭和57年7月12日当科を受診した。

全身的には、特に異常所見はみられず、局所的には、左踵骨体部に軽度の腫脹と局所熱感を認めた。X線像では、左踵骨中央部にかなり大きな境界不整の骨透亮像があり、一部骨皮質は消失していた。周辺の骨硬化性変化は、わずかに認められた（図1）。

なお、2週間前に某医でとられたX線像と比較するとかなり急速に病巣が拡大していると考えられた。

全身骨シンチグラムでは、左踵骨以外に ^{99m}Tc の異常集積は認められず、左踵骨では病変部に一致してcold areaと、その周辺に中等度の ^{99m}Tc のup-Takeの亢進が認められた。

血液・生化学的検査では、白血球数の減少、アルカリフォスファターゼやLDHの軽度上昇がみられた

が、末血の好酸球数は正常範囲であった。血液・生化学的検査では、炎症性疾患は否定的であったが、X線像上、急速な病巣の拡大が認められたため、腫瘍より炎症性疾患の方をまず疑った。針生検で得た標本は、黄褐色の肉芽様組織であり、細菌培養は陰性、組織学的には、骨好酸球性肉芽腫が考えられた。

昭和57年7月29日、病巣を搔爬し、母親の腸骨より採取した骨を移植した。病巣内には生検標本と同様、黄褐色調、軟の肉芽様組織が充満し、踵骨底部の骨皮質は一部破壊消失していた。組織学的にも前回と同様、核が扁在する巨細胞を混じた組織球の増殖と好酸球の散在性浸潤が認められた。増殖した組織球には、全く異型性は認められなかった(図2)。

以上より、左踵骨に生じた単発性骨好酸球性肉芽腫と診断した。

術後8カ月の現在、臨床的、X線学的に特に再発を思わせる所見はなく、移植した同種骨もよく同化している(図3)。

考 察

骨好酸球性肉芽腫は、組織球の増殖性変化を特徴とした腫瘍性病変群、いわゆる Histiocytosis X の一部分症と考えられている⁹⁾。しかしながら、真の腫瘍ではないと考える人²⁾や、炎症と腫瘍の中月的な位置にあるものとして広義の炎症性腫瘍に属すると考える人⁵⁾もいる。

また、その病因に関しては、ウイルス感染⁹⁾やウイルス感染に対する免疫アレルギー反応¹¹⁾などが考えられるとして、免疫学的に解明しようとする試みもある¹⁰⁾が、依然としてその本態は不明である。

本症例の場合、かなり急速に骨破壊性変化が進行したこと、年齢が1歳7カ月と低く、さらに他の部位に同様な病変がないと考えられたことなどから、腫瘍性病変より炎症性病変を考えた。即ち、1～2週間の内に急速に増大する病変に対しては、まず炎症性疾患を考える必要があるが、このことからみても、本腫瘍を単なる良性腫瘍と片付けてしまうには疑問が残る。

さて、発生部位に関して、Hunter ら⁴⁾は、手関節、足関節より中枢の骨であればいかなる骨にも発生すると述べ、手および足の骨には稀れであることを表現している。又、他の文献を調べてみても、手および足根骨に発生した報告は殆んどなく、最近10年間の文献では、Campbell & Leupold (1973)¹¹⁾の23歳、

図1 初診時のX線像

左踵骨体部に骨透亮像がみられる。境界は不鮮明、辺縁の骨硬化像はわずかにみられる。一部骨皮質の破壊がみられる。

図2 搔爬時の踵骨骨髓

核が扁在する巨細胞を混じた組織球の浸潤。小型の黒い細胞は好酸球。(×320)

図3 術後8カ月のX線像

移植骨はよく同化しており、再発を思わせる所見はない。

男性で右踵骨結節部に発生した一症例のみである。この症例は、病巣搔爬を受け、組織学的に骨好酸球性肉芽腫と診断され、その後、再発はみられていない。

何故、本症が手および足根骨に発生することが稀れであるかは不明であるが、本論文では、本症がこの様な骨にも単発しうるものであることを改めて認識し報告した。

なお、Histiocytosis X の病型分類のうち、臨床的所見および経過を重視した Lichtenstein の分類⁹⁾からすれば、本症例は、「骨に単発または多発性に発生し最も治癒傾向が強く、時に自然治癒もみられる型」の中に入るものと考えられ、時間が経過すると lipid-laden macrophage の出現や線維化がみられる⁹⁾。

しかしながら、いくら良好な経過をとり、放置していても線維化して治癒する⁹⁾と考えられても、本症の様に急速に進行する骨破壊が特に荷重骨にはみられれば、手をこまねいて見ているわけにはいかない。自然経過はどうなるかという学問的興味は津々ながら、やはり早急な病巣搔爬、骨移植も止むを得ないところであろう。

本症例は、術後8カ月の現在、移植した同種骨はよく同化し置換されてきていると考えられ、再発所見はなく良好な経過をとっている。しかし、Lahey は、発症年齢が3歳以下の症例は予後が不良であったと報告し、Histiocytosis X の予後因子として organ dysfunction の有無を重視している^{9,11)}。本症例は、現在 organ dysfunction もなく、治癒したものと考えられるが、発症年齢が1歳7カ月であり、いましばらく再発および全身骨の追跡を行う必要があると考えている。

参 考 文 献

1) Campbell, C. J. and Leupold, R. G.: Tu-

- mors and tumor-like conditions of the os calcis. Orthop. Clin. North AM, 4: 145-156, 1973.
- 2) Crocker, A. C.: Textbook of pediatrics, Ed. by Nelson, 11th ed. Saunders, Philadelphia, pp. 1883-1986, 1979.
- 3) Englbret-Holm, J. et al.: Eosinophilic granuloma of bone—Schüller-Christian's disease. Acta Med. Scand., 118: 292-312, 1944.
- 4) Hunter, T.: Solitary eosinophilic granuloma of bone. J. Bone and Joint Surg., 38B: 545-557, 1956.
- 5) 石川哲夫, 他: Reticulohistiocytosis の検討—多発性 eosinophilic granuloma の自然治癒症を経験して—整形外科, 18: 831-839, 1967.
- 6) Lahey, M. E.: Histiocytosis X—comparison of three treatment regimens. J. Pediatr., 87: 179-183, 1975.
- 7) Lahey, M. E.: Histiocytosis X—an analysis of prognostic factors. J. Pediatr., 87: 184-189, 1975.
- 8) Lichtenstein, L.: Histiocytosis X; integration of eosinophilic granuloma of bone, "Letterer Siwe disease" and "Schüller-Christian disease" as related manifestations of single nosologic entity. A. M. A. Arch. Path., 56: 84-102, 1953.
- 9) Lichtenstein, L.: Histiocytosis X (Eosinophilic Granuloma of Bone, Letterer-Siwe Disease, and Schüller-Christian Disease). J. Bone and Joint Surg., 46A: 76-90, 1964.
- 10) 野本直記, 他: Vinblastine sulfate が著効を奏した Letterer-Siwe 病の1症例. 小児科診療 36: 324-328, 1973.
- 11) Schajowicz, F. and Stullite, J.: Eosinophilic granuloma of bone and its relationship to Hand-Schüller-Christian and Letterer-Siwe Syndrome. J. Bone and Joint Surg., 55B: 545-565, 1973.