最近経験した Solitary bone cyst の 4 例

佐世保市立総合病院整形外科

中 村 昌 一・吉 良 秀 秋

新 村 哲 也・山 口 善 久

佐世保市立総合病院

須 山 弘 文

長崎大学医学部第 1 病理

池 田 高 良・松 尾 武

高 島 一 彦

Four Cases of Solitary Bone Cyst

by

Masakazu Nakamura, Hideaki Kira, Tetsuya Niimura
and Yoshihisa Yamaguchi

Department of Orthopedic Surgery,
Sasebo City General Hospital

Hirofumi Suyama

Sasebo City General Hospital

Takayoshi Ikeda, Takeshi Matsuo and Kazuhiko Takashima

Department of Pathology, School
of Medicine Nagasaki University

Solitary Bone Cyst (S. B. C.), which is classified as a tumorous condition of bone, is comparatively encountered in an ordinal case.

Treatment and etiology are not established, so we could have some difficulty for the countermeasure because of the fact that we find many cases in a young generation and the relapse rate is quite high.

We have encountered four cases of S. B. C. recently. In two cases out of four, we have analysed Agarose immunoelectrophoresis pattern of bone cyst. As the result, we ascertained that it contains various sorts of component like a serum, as many reports show. Also, as Case 4 shows, we encountered unusual case in which S. B. C. exists in the ilium and the femur. According to the experiment we had, the abnormality of the venous circulation system was implied as the etiology. But we can't explain the case when we find abnormality in a local part.

Although curettage and bone grafting, which is not always the best treatment, is the general treatment, we should not undertake with ease.

は じ め に

Solitary Bone Cyst (以下 S. B. C. と略す) は、骨腫瘍類似疾患に分類され、日常の診療において比較的

よく遭遇するものであるが、その成因・治療法についてはいまだに確立されていない。若年者に多発し、再発を繰り返す例もあることから、対策に苦慮することも多い。

図1 症例1 二度の病巣搔爬・骨移植術にも拘らず再発した症例

A: 初診時 B: 術後4カ月にて再発

C: 2回目の手術後 D: 半年後再発

E: 1988年7月

最近われわれは、4例のS. B. C.を経験し、2例についてはアガロース免疫電気泳動法による内容液の分析を行った。また、腸骨と大腿骨に同時にS. B. C.が存在する、きわめてまれな症例も経験した。

4症例の経過を中心に報告し、成因・治療法について若干の考察を加える。

症 例

症例1: 7才, 男, 左上腕骨頸部骨嚢腫。

1986年5月14日, サッカー中に転倒。近医にて病的骨折を指摘され, 5月16日当科初診。X線上, 骨端線に隣接した嚢腫像とそれを横断する骨折線を認める。Jaffeのいうactive stageである⁹⁾。三角巾固定にて骨癒合を待ち, 6月10日, 病巣搔爬・骨移植術を施行した。部分的に開窓し, エイヒにて可及的に内壁を搔爬後Bone chipとして骨移植を行った。4カ月後のX線にて再発を認めた。術前のX線では, 隔壁形成が認められる。12月9日, 2回目の病巣搔爬・骨移植術施行。嚢腫全長にわたって大きく開窓し, 搔爬を十分に行った後に脛骨より採骨し, Bone spanとして骨移植を行った。半年後に再び再発を認め, 1987年5月7日, 3回目の手術を行った。術前のX線では, 依然としてactive stageであるが, 隔壁形成はなく骨皮質は菲薄化していた。菲薄化した部分より大きく開窓して内壁を削除した後, 冷凍棒で凍結(-150°Cで数回)して骨移植を行った。以後, 嚢腫陰影の残存は認められるが, 増大傾向はなく経過観察中である(図1A-E)。

組織所見: 嚢胞壁はやや硬化した線維性結合組織の

図2 嚢胞壁は肥厚した線維性結合組織より成り, 左下方には軟骨組織を認める。

肥厚した組織より成り, 多核巨細胞や石灰化, 類骨形成, 部分的には軟骨も認められた(図2)。

症例2: 11才, 男, 左大腿骨頸部骨嚢腫。

1985年12月26日, 左大腿骨転子下病的骨折にて某医を受診。直達牽引にて保存的加療後, 1986年2月13日, 病巣穿刺・ステロイド注入を受ける。転勤のため, 1986年4月より当科外来にて経過観察していたが, 術後約2年にて転子下骨皮質部に再発を見たため, 1988年1月6日, 同部を切除した(図3A, B)。

組織所見: 嚢胞壁は薄い線維性結合組織より成り, ところどころ硝子化していて, 多核巨細胞の出現も見られ, 拡張した血管がめだつた(図4)。

症例3: 3才, 女, 右大腿骨頸部骨嚢腫。

1985年7月26日, 右大腿部痛および歩容異常にて当科初診。X線にて, 右大腿骨転子間部に骨髓腔の大部

A:受傷時

B:術後約2年で再発

図3 症例2 巨大なS.B.C.と病的骨折。病巣穿刺・ステロイド注入をうけるも転子下骨皮質部に再発した症例
A:受傷時 B:術後約2年で再発

図4 嚢胞壁は薄い線維性結合組織より成り、硝子化や多核巨細胞も認める。

分を占める透明巣で、骨皮質は内部より侵蝕され菲薄化しているが骨輪郭の異常はない。8月1日、病巣掻爬・骨移植術施行。3ヵ月後のX線では、移植骨はhomogenousとなり、嚢腫陰影は消失している。術後2年半にて再発を認め、1988年1月20日、病巣掻爬・ステロイド注入を行った。半年後のX線では、嚢腫陰影の残存はみられるが周囲の硬化像および骨皮質の肥厚が認められ、病的骨折の心配はない(図5A-D)。

組織所見:嚢胞壁は類円形から紡錘形の核を有した

線維性結合組織のうすい層からなり、とくに出血、石灰化、肉芽形成などは認められなかった(図6)。

症例4:28才、男、右腸骨・大腿骨嚢腫。

1986年頃より、右殿部痛・股関節痛有り。近医にて経過観察していたが、症状の増悪によって仕事に支障を来すようになったため、1988年3月1日当科初診。X線にて右腸骨全体と大腿骨頭下部より転子下にいたる広範囲な嚢腫を認めた。腸骨部CTでは隔壁形成のある多房性の嚢腫が認められ、骨自体は膨化しているが骨皮質の菲薄化はない。3月8日、腸骨部の試験切除を行い、S.B.C.の診断を得た(図7A、B)。

組織所見:嚢胞壁はかなり厚い線維性結合組織より成り、出血やフィブリン析出を伴い、少数の骨形成が見られた。また、一部にはコレステリン結晶の裂隙も目立った(図8)。

嚢腫内容液について:今回われわれは、症例3・4に対して、アガロース免疫電気泳動法および免疫拡散法によって、嚢腫内容液の分析を行った。(図9)のごとく、血清と同様の多数の沈降線を生じ、血清成分と同様な各種成分が含まれていることが判明した。さらに、抗ヒト全血清、抗ヒトIgG+IgA+IgM血清、抗ヒト・トランスフェリン血清、抗ヒト・フィブロンネクチ

図5 症例3 病巣掻爬・骨移植術にいったん軽快したかに思われたが、術後2年半にて再発した症例
A:初診時 B:術後3カ月 C:術後2年半にて再発 D:1988年7月

ン血清との反応を、アガロース免疫拡散法を行ってみた。すると、異質な物ではみられる spur 形成が認められず、血清成分と同一成分が囊腫内容液に含まれていることが明確となった(図10)。

図6 囊胞壁は薄い線維性結合組織より成る。

考 察

S. B. C. の成因については、古くより諸説が唱えられてきた。このうち、1960年Cohenによって提唱された局所静脈系の排出障害説が、現在では比較的多くの人に支持されている。すなわち彼は、囊腫内容液の分析を行い、その成分が本質的には血清と同一であることを示し、血管系の異常を指摘した⁴⁾。さらに1970年には、囊腫造影において注入された造影剤は長時間にわたって囊腫内に停滞することを確認し、静脈還流系の異常を直接的に証明した⁵⁾。

本邦においても、1963年前田がCohenに先立って囊腫造影を行い、局所静脈系の排出障害によるうっ血が sinusoid の拡大とその融合を引き起こし囊腫を形成すると結論している¹¹⁾。その後久保山¹⁰⁾や千木良³⁾も、囊腫内圧の測定を行い、静脈系の閉塞とこれに伴う内圧

A:初診時

B:腸骨部CT

図7 症例4 腸骨と大腿骨に同時にS. B. C.が存在した症例

図8 嚢胞壁には出血やコレステロール裂隙を伴う肥厚した線維性結合組織を認める。

図9 アガロース免疫電気泳動
B：嚢腫内容液 S：ヒト全血清
両者とも同様の多数の沈降線を生じている

図10 アガロース免疫拡散
1：抗ヒト全血清
2：抗ヒト IgG+IgA+IgM 血清
3：抗ヒト・トランスフェリン血清
4：抗ヒト・フィブロンectin血清
Spur 形成は認められない

上昇によって形成される病態であるとした。

われわれの症例においても、すでに述べたように嚢腫内容液成分と血清成分は同一のものであった。さらに、症例4において、同じ総腸骨静脈還流系である腸骨と大腿骨にS. B. C. が同時に存在していた。以上のことは、静脈系の排出障害によりS. B. C. が発生するというCohenらの説を支持するものであると考える。しかしながら、彼らは局所の異常を指摘しており、症例4のように大きな静脈系にも排出障害が起こりうるのか問題が残る。今回われわれは、静脈造影や嚢腫造影を行っていないため、その点についての分析はできない。今後さらに研究が必要であろう。

治療法についても、確立された体系はない。従来から、病巣搔爬・骨移植術が一般に行われてきた。小児では移植骨をどうするかや、自家骨移植では侵襲が大きすぎるという問題があり、さらに諸家により高い再発率が報告されていて再手術の可能性も高い。しかし、再発の判定の問題など²⁾¹²⁾もあり、骨への開窓の程度、移植骨の種類・つめかた、化学薬品による焼灼の併用など種々の方法が考案されている。たとえば、1961年Peltierは搔爬後ギプス粒をパックする方法¹³⁾を、1973年Faheyは嚢腫壁の4/5の切除を行うSubtotal resectionを報告⁸⁾し、それぞれ良好な結果を得ている。

1973年Scagliettiは、S. B. C. に対するステロイド注入療法を発表し、以後諸家により追試され、良好な結果が報告されている¹⁴⁾¹⁵⁾。ステロイド注入による治療機転について彼は、抗炎症作用やfibroblastの成長阻害作用をあげ、これによる嚢腫壁の破壊が起こり骨による修復が起きると述べている。本邦でも、ステロイド注入療法の報告は多く、そのほとんどが好結果を報告している。江波らは、ステロイド剤も水溶性の物よりmicrocrystallineなものに好結果を見ていることや、Peltierのギプス粒をパックする方法などから、いわゆるchemical curettageのほかに嚢腫内に注入された微小結晶体がossifying mediumとして働くと推測している⁶⁾が、その作用機序はいまだに確認されていない。

ステロイド注入療法は、外来または短期間の入院にてできる点、通常の手術に比べて侵襲が非常に少ない点などの利点がある。しかしながら、注入するステロイドの種類・効果判定の時期・注入回数および間隔などは諸家の報告によりまちまちであるため、この治療法を採用しても、どのようなprogramで行うかで迷うことも多いと思われる。また、非荷重部の病変であれ

ば、何回も注入を繰り返し経過を観察することも可能であろうが、大腿骨などの荷重部に対する治療としては問題があろう。

侵襲が少ないという点では、久保山や千木良は、嚢腫内の減圧によって venostasis の破壊と同時に血行再開をもくろむことによって骨新生をうながす目的で、それぞれ経皮的穿孔術や multiple drill-hole method を考案し、その有効性を報告している。

われわれは 4 例の S. B. C. (実際に治療されたのは 3 例であるが) にたいして、病巣搔爬・骨移植術を中心に治療を行っている。3 例共に 2 回以上の手術を施行され、成功例とは言いがたい。諸家により種々の治療法が報告されているが多くの問題点があり、成因が不明な点も考えると、今だに従来よりの搔爬・骨移植術を治療の第一選択としている施設も多いのではなかろうか。われわれは今回の経験から、今後は搔爬・骨移植術はなるべく行わない方針である。S. B. C. は良性の疾患であるために、日常の診療において軽視されがちであることも事実であろう。今後、ステロイドなどの chemical curettage を目的とした薬剤の改良や、侵襲が少なく 1 回の手術で良好な結果が得られる方法の出現が期待される。

ま と め

1. 腸骨および大腿骨に S. B. C. が存在するきわめてまれな症例を含め、最近経験した 4 例の S. B. C. について報告した。
2. 2 例については、アガロース免疫電気泳動法および免疫拡散法を行い、嚢腫内溶液には血清成分と同様な各種成分が含まれることが確認された。
3. 成因については、静脈還流系の異常が示唆された。
4. 一般的には搔爬・骨移植術が行われているが、必ずしも最良の治療法とは思われず、早期の治療体系の確立が望まれる。

参 考 文 献

- 1) 阿部光俊・他：孤立性骨嚢腫再発例の検討。整形外科，27：919-926，1976。
- 2) Baker, M. D.: Benign Unicameral Bone Cyst. A study of forty-five cases with long-term follow up. Clinical. Orthop. 71: 140-151, 1970.
- 3) 千木良正機・他：単純性骨嚢腫に関する研究—その病態と治療。日整会誌，57：759-766，1983。
- 4) Cohen, J.: Simple Bone Cysts. Studies of Cyst Fluid in Six Cases with a Theory of Pathogenesis. J. Bone and Joint Surg. 42-A: 609-616, 1960.
- 5) Cohen, J.: Etiology of Simple Bone Cyst J. Bone and Joint Surg. 52-A: 1493-1497, 1970.
- 6) 江波清隆・他：孤立性骨嚢腫に対するステロイド注入による治療の 6 症例。東北整災紀要，29：355-360，1986。
- 7) Fahey, J. J. et al.: Subtotal resection and Grafting in Selected Cases of Solitary Unicameral Bone Cyst. J. Bone and Joint Surg. 55-A: 59-68, 1973.
- 8) 石川哲夫・他：孤立性骨嚢腫とその治療。整形外科，13：773-783，1962。
- 9) Jaffe, H. L. and Lichtenstein, L.: Solitary unicameral bone cyst. With emphasis on the roentgen picture, the pathologic appearance and the pathogenesis. Arch. Surg., 44: 1004-1025, 1942.
- 10) 久保山勝朗・他：経皮的穿孔術による孤立性骨嚢腫の治療。臨整外，16：288-293，1981。
- 11) 前田富士雄：孤立性骨嚢腫に関する研究。とくにその成因に関する考察。日整会誌，37：529-547，1963。
- 12) Neer, C. S. et al.: Current concepts on the treatment of solitary bone cyst., Clin. Orthop., 97: 40-51, 1973.
- 13) Peltier, L. F.: The use of plaster of paris to fill defects in bone, Clin. Orthop. 21: 1-31, 1961.
- 14) Scaglietti, O. et al.: The Effects of Methylprednisolone Acetate in The Treatment of Bone Cysts., J. Bone and Joint Surg 61-B: 200-204, 1979.
- 15) Scaglietti, O. et al.: Final results obtained in the treatment of bone cysts with methylprednisolone acetate (Depo-Medrol) and a discussion of results achieved in other bone lesions, Clin. Orthop. 165: 33-42, 1982.
- 16) 姥山勇二・他：単発性骨嚢腫の治療。臨整外，12：1202-1208，1977。