脊椎発生動脈瘤様骨嚢腫の治療経験

福岡大学医学部整形外科 (主任 高岸直人教授)

比 嘉 穎 秀・浅 川 康 司

葉 山 泉・諫 山 照 刀

高 岸 直 人

タケシマ整形外科

竹 嶋 康 弘

古川整形外科

古 川 隆

Treatment for Aneurysmal Bone Cyst of the Second Lumbar Vertebra and Second Cervical Vertebra

by

Eishuu Higa, Kouji Asakawa, Sansen Yoh,
Teruto Isayama and Naoto Takagishi

Department of Orthopedic Surgery,
Fukuoka University School of Medicine

Yasuhiro Takeshima

Takeshima Orthopedic Hospital

Takashi Furukawa

Furukawa Orthopedic Hospital

We presented two cases of aneurysmal bone cyst; one case in the second lumbar vertebra and the other case in the second cervical vertebra.

Case 1: a 15-year-old man

His chief complaint was low back pain. CT showed a expanded and destructive mass lesion from the transverse process to body of L2. After curettage of the lesion and bone grafting in the involved area of the vertebral body, a posterolateral fusion was done. At 5 months following the operation, the patient had no recurrence showing a solid bony fusion on the roentgenograms.

Case 2: a 20-year-old woman

Her chief complaint was swelling of the posterior region of neck and severe pain referred to the left shoulder. Roentgenograms revealed a spherical tumor surrounded with a thin bone-shell. The tumor was resected and a left laminectomy of C2 was performed. Roentgenograms and CT showed no recurrence at 15 year after the operation. She was free of complaints.

はじめに

動脈瘤様骨嚢腫 Aneurysmal bone cyst (以下 ABC と略す) は, 1942 年 Jaffe および Lichtenstein によって命名されて以来, 比較的良好な骨腫瘍として近

年症例報告が増加している。

最近われわれは第 2 腰椎に発生した ABC の手術例を経験した。あわせて第 51 回西日本整災会で古川らが述べた第 2 頸椎発生術後 15 年の現在をここに報告し、若干の文献的考察を加える。

症 例

症例1：15歳，男性。

主訴：腰痛。

家族歴・既往歴：特記すべきものはない。

現病歴：昭和63年8月下旬，友人に後ろからつかまえられ，背中より転倒し腰痛出現。9月中旬より腰痛が増強し，昭和63年9月17日当科受診。レ線¹上L₂右椎弓根消失を認め，第2腰椎骨腫瘍疑いで，昭和63年10月4日当科入院した。

入院時所見：体格中程度，第2腰椎右側に自発痛，圧痛を認めた。上，下肢の運動，反射は正常であった。知覚は右大腿部前面に知覚鈍麻を認めた。膀胱直腸障害は認められなかった。

血液生化学所見：ALP₃の増加がみられた。

レ線所見：単純レ線¹上，第2腰椎右椎弓根消失いわゆる pedicle sign および横突起の ballooned out appearance を示した。また右腸腰筋消失を認めた(図1)。CTでは，第2腰椎の右横突起から体部にかけて骨破壊像を認め，一部脊髓の圧迫所見が見られた(図2)。骨シンチにて，第2腰椎右側に著明な集積がみられ，他の部位に異常集積はみられなかった。MRIでは，病変は後方要素に発生しており，また多房性であることがわかった(図3)。この他，血管造影にて右第2腰動脈の圧排があり，pooling を認める。腫瘍濃染像は認められず，少なくとも hypervascularity ではなかった(図4)。

また生検を行うと，生検針より持続性の出血がみら

れ，易出血性の腫瘍と思われた。その際の病理所見はABCであった。

以上の所見より，術前に embolization は行わず，昭和63年10月24日，病巣搔爬，骨移植，後側方固定を行った。

手術所見：T₁₂からL₄棘突起に致る縦切開にて侵入。右側傍脊柱筋を外側によけるとL₂後方は，椎弓から横突起にかけて紡錘形の膨隆が認められた。正常骨組織は下関節突起と横突起に一部認められるのみで，骨皮質は非薄化し骨内の暗赤色の腫瘍組織が透見できるほどで，硬度は弾性軟であった。L₁関節突起，L₃上関節突起の一部を削除しL₂の椎弓健康部を削除することにより硬膜とL₁，L₂神経根を露出した。腫瘍部分の椎弓根部を切除することにより，後方の腫瘍を一塊として切除した。L₁，L₂神経根は腫瘍による軽度の圧迫が確認された。右椎弓根切除部より椎体後外側の腫瘍を十分に搔爬し，腸骨採取骨を骨移植した。L₁よりL₃まで患側の後・側方固定，反対側の椎間関節固定を行った。なお術中出血量は，1,250gであった。

病理組織学的所見：大きな血管腔が多数みられ内部に血液を含んでいる。血管周囲の線維性組織に多数の巨細胞が認められ，一見巨細胞腫を思わせる像を呈した。拡大をあげると，多核巨細胞であり核分裂像はみられない。一部ヘモジデリン沈着を認めた(図5)。

術後経過：術後約8週ギブスベッド安静。その後，ギブスコルセット4週し，さらに軟性コルセットを装着した。術後5カ月，レ線¹上再発なく骨癒合は良好で

図1 症例1 L₂右椎弓根消失と横突起膨隆を認める。

図2 症例1 CT
右横突起から体部にかけて骨破壊像を認める。
一部骨髄圧迫所見がみられる。

図3 症例1 骨シンチ
第2腰椎右側に著明な集積がみられる。他の部位に異常集積はみられない。
MRI
病変は後方要素であり多房性像を示している。

図4 症例1 血管造影
右第2腰動脈の圧排があり pooling を認める。
腫瘍濃染像は認められない。

ある(図6)。

症例2は第51回西日本震災において、古川らが詳細はその時述べている。

症例2: 20歳, 女性。

主訴: 頸部運動痛, 左側頸部から左肩の疼痛。

既往歴・家族歴: 特記すべきものはない。

現病歴: 昭和48年11月頃, 特に誘因なく上記主訴が出現し近医受診。レ線異常なく, 頸肩腕症候群で

図5 症例1 大きな血管腔が多数みられ内部に血液を含んでいる。血管周囲の線維性組織に多核巨細胞がみられる。

保存的治療をうけた。初発より5ヵ月後, 頸部の腫脹出現, 頸椎の異常陰影を発見され当科紹介入院となる。

入院時所見：頸部の運動制限，第2頸椎部の腫脹，硬結を触れ圧痛がある。上，下肢の運動，反射，知覚は正常，病的反射はない，膀胱直腸障害はない。

レ線所見：単純レ線上，第2頸椎から第3頸椎の棘突起より後方に囊腫様膨隆像いわゆる ballooned out appearanceを示した。断層撮影では，さらにはっきりした（図7）。

以上の所見より第2頸椎の腫瘍を疑って，腫瘍切除，左椎弓切除を行った。

手術所見では腫瘍は棘突起部との固着はみられず，第2頸椎の左椎弓後側と判断された。

図6 症例1 術後5カ月，レ線上再発なく骨癒合は良好である。

病理組織学的所見はABCであった。

術後経過：術後1週より頸椎カラー装着し術後2週後除去した，術後15年の現在，何ら愁訴なく経過良好で，第2頸椎，第3頸椎棘突起間が自然に骨癒合している所見がみられる（図8）。CT所見でも再発などの所見はみられていない。

考 察

動脈瘤様骨囊腫 Aneurysmal bone cyst は，1942年 Jaffe および Lichtenstein⁴⁾ によって命名されて以来，骨巨細胞腫，孤立性骨囊腫などと異なる一つの独立疾患として確立されている。しかしその本態に関しては未だに不明である。

図7 症例2 第2頸椎から第3頸椎後方に囊腫様膨隆像がみられる。

図8 症例2 術後15年の現在再発なく経過良好である。

本邦の昭和 61 年度骨腫瘍患者登録¹¹⁾によると、昭和 39 年から 61 年まで ABC は 379 名、そのうち脊椎発生は 42 名である。さらに腰椎発生 15 名、頸椎発生 9 名である (表 1, 表 2)。

脊椎骨発生分布については、Hay⁶⁾によると脊椎前方要素に 40%、椎弓、横突起などの後方要素に 60% 発生すると述べている。小林⁷⁾らは、椎体から椎弓、棘突起など後部脊椎にまたがるもの 42.5%、椎体のみ 15%、後部脊椎のみ 42.5% で後部脊椎に発生しやすいと述べている。われわれの 2 症例も同様で、後部脊椎に発生母地が求められた。

ABC の治療は一般に、病巣搔爬・骨移植であり、次に放射線療法が行われている (表 3)。ここで多数報告例の文献を考察してみると、杉浦¹⁶⁾ (1982) は、切除可能な部位ならば病巣切除を行い、切除不能ならば病巣搔爬、骨移植を行う。脊椎発生例では脊髓圧迫症状をみるときは、除圧、脊椎固定術が必要と述べている。

表 1 ABC の脊椎発生頻度 (全国骨腫瘍患者登録表より)

頸	椎	9 例 (21.4 %)
胸	椎	10 (23.8)
腰	椎	15 (35.7)
仙	椎	8 (19.1)
総	数	42 (100)

表 2 我国の腰椎発生例 (文献報告例)

報告者	報告年	部位	治 療
鈴木	1968	L 4	椎弓切除
堀	1976	L 3	摘出術
鵜飼	1977	L 1	搔爬・骨移植, 固定, 照射
山下	1980	L 3	照射
四方	1982	L 3	搔爬・骨移植, 固定, 照射
杉浦	1982	L 1	生検, 照射
宇都宮	1984	L 5	搔爬・骨移植, 固定
藤内	1986	L 2	embolization, 搔爬・骨移植, 固定

表 3 ABC の治療法 (全国骨腫瘍患者登録表より)

治 療 法	例 数
手術	325 例
放射線	4
手術+放射線	16
手術+化学療法	2
手術+放射線+化学療法	1
治癒せず	22
不明	9
総 数	379

また骨盤、脊椎のように根治手術困難な部位、巨大病巣、完全搔爬できない病巣、再発病巣に対して放射線療法の適応があると述べている。山下¹⁸⁾ (1980) らも脊椎麻痺を合併する症例には病巣切除による除圧と脊柱固定術の併用を述べている。藤内³⁾ (1986) らは enblock resection が不可能な場合に病巣搔爬が行われるべきで、放射線治療は外科的治療の不可能な症例にのみ使用されるべきであると述べている。梅田¹⁷⁾ (1974) は進行性の脊髄症状を伴うことの多い脊椎発生例は、早期根治治療が必要だと述べている。

脊椎発生例をみると、病巣搔爬、骨移植のみならず、将来の変形予防として instrumentation の併用が望ましいといわれているが、われわれの腰椎症例では、2 度手術したくないという患者、家族の希望があり instrumentation は行わなかった。

ABC の再発に関して Ruitar¹⁴⁾ (1975) らは ABC の再発率は 30.5 % と述べ、搔爬術のみでは 34.2 % 再発すると述べている。また、Biesecker¹¹⁾ (1970) らは搔爬術で 59 % 再発したと報告している。搔爬術のみでは再発率が非常に高いことを示しているが、Biesecker は、一塊切除すれば再発はないと報告している。Clough²⁾ (1973) も同様なことを述べている。

このように本疾患は再発例が散見されるが、治療を行えば、比較的急速に症状が回復することが多いといわれる。また若年者ほど、再発期間は短いともいわれている。

われわれの腰椎症例は術後 5 カ月の現在、再発なく良好である。今後も慎重に経過観察の予定である。頸椎症例は術後 15 年、再発をみず、何ら愁訴もなく経過良好である。

放射線治療に対しては、1957 年 Lichtenstein⁸⁾ らが、骨盤や脊椎など、外科的治療の困難な部位に対し放射線治療の効果と有効線量を報告して以来、放射線治療の有効性が多数報告されている。Nobler¹²⁾ (1968) らは積極的に放射線療法を勧めている。国内の報告では、山下 (1980) らは脊柱発生の 4 例に最高 7,850 rad、最低 2,100 rad 照射し良好だったと述べ、最適病巣線量は 2,000~3,000 rad だとまとめている。杉浦 (1982) らは脊椎発生の 4 例に 2,000~3,000 rad 照射し、3,000~4,000 rad で病巣は脊椎外に限局性石灰化嚢腫を形成し安定化していく傾向をみると述べている。波多野⁵⁾ (1987) らは、近年の X 線の進歩に伴い、500 rad、10MV という低線量高エネルギー照射を行い、急速な

病巣の縮小を認め、1年6カ月の現在、再発をみていない1例を報告している。

一方、放射線照射後の sarcoma⁹⁾¹⁵⁾ の発生、Radiation Myelopathy¹⁰⁾¹³⁾ といった放射線障害も報告されており、本質的に良性である本疾患に対しては、慎重な適応が望まれる。

以上の点をふまえ、良性疾患ではあるが、再発、急速な骨破壊といった性質を有する本疾患は、杉浦も述べているように、発生部位、大きさ、破壊度、神経症状について慎重に検討し、また再発率の減少と機能温存を考慮し、手術適応を決める必要がある。

ま と め

1) 脊椎発生 ABC の腰椎、頸椎の2手術例について報告した。

2) 一般に脊椎発生例は、将来の変形予防として Instrumentation の併用が望ましいといわれるが、われわれの2症例では行わなかった。

3) 本疾患は再発例が散見されるが、われわれの2例はともに再発がなく良好で、特に頸椎症例は術後15年、再発をみず、また何ら愁訴もなかった。

4) 放射線治療は、照射後の Sarcoma の発生、Radiation Myelopathy の発生も報告されており、本質的に良性である本疾患に対しては慎重な適応が望まれる。

5) 良性疾患ではあるが再発、急速な骨破壊といった性質を有する本疾患は、慎重に検討し手術適応を決める必要がある。

参 考 文 献

- 1) Biesecker, J. L. et al.: Aneurysmal bone cyst, a clinicopathologic study of 66 cases. *Cancer*. 26: 615-624, 1970.
- 2) Clough, J. R. et al.: Aneurysmal bone cyst; Pathogenesis, and long term results of treatment. *Clin. Orthop.* 97: 52-63, 1973.
- 3) 藤内 守・他: Aneurysmal bone cyst. *整形外科*, 37: 581-589, 1986.
- 4) Jaffe, H. L., Lichtenstein, L.: Solitary unicameral bone cyst, with emphasis on the roentgen picture, the pathologic appearance and the pathogenesis. *Arch. Surg.* 44: 1004-1025, 1942.
- 5) 波多野希・他: 動脈瘤様骨嚢腫に対する放射線治療の1例. *臨整外*, 22: 1433-1437, 1987.
- 6) Hay, M. C.: Aneurysmal bone cyst of the spine. *J. B. J. S.* 60-B: 406-411, 1978.
- 7) 小林健一・他: 脊椎 Aneurysmal bone cyst の2例. *中部整災誌*, 23: 289-291, 1980.
- 8) Lichtenstein, L.: Aneurysmal bone cyst, observations on fifty cases. *J. Bone Joint Surg.* 39-A: 873-882, 1957.
- 9) Lichtenstein, L.: Aneurysmal bone cyst; Further observation. *Cancer*. 6: 1228-1237, 1953.
- 10) 長瀬徹也・他: Radiation Myelopathy について. *臨放*, 19: 451-462, 1974.
- 11) 日本整形外科学会骨腫瘍委員会: 全国骨腫瘍患登録一覧表, 国立がんセンター, 東京, 1986.
- 12) Nobler, M. P. et al.: the cure of aneurysmal bone cyst. *Radiology*. 90: 1185-1192, 1968.
- 13) Palmer, J. J.: Radiation myelopathy. *Brain*. 95: 109-122, 1972.
- 14) Ruiter, D. J. et al.: Fibrinolytic activity in aneurysmal bone cysts. *Am. J. Clin. Path.* 64: 810-816, 1975.
- 15) Sabanas, A. O. et al.: Postradiation sarcoma of bone. *Cancer*. 9: 528-542, 1956.
- 16) 杉浦 勲・他: 動脈瘤様骨嚢腫—病態と治療. *中部整災誌*, 25: 1492-1514, 1982.
- 17) 梅田真一郎: 頸椎に発生した Aneurysmal bone cyst の一治験例. *整形外科*, 25: 820-823, 1974.
- 18) 山下昌次・他: 脊椎に発生した aneurysmal bone cyst の放射線治療. *臨床放射線*, 25: 463-467, 1980.

質 問 国立福岡中央病院 篠原 典夫

第1例の椎体外の腫瘍が bone shell を持っていたか、また組織学的に骨形成はみられなかったか。

解 答 福岡大学 比嘉 顕秀

bone shell は、X線でははっきりしないが、CT ではそのような所見が認められた。

病理組織で、一部 Osteoid の形成がみられた。

質 問 大牟田私立病院 中島 雅典

「第1例の MRI では動脈瘤様骨嚢腫にみられる fluid-fluid levels は確認できますか？」

解 答 福岡大学 比嘉 顕秀

fluid-fluid levels は認められなかった。

解 答 福岡大学 比嘉 顕秀

症例1では1,250gであったが輸血は行っていない
症例2ではほとんど問題とならない程度の出血であった。