多発性骨軟骨腫に合併し、脊髄圧迫症状を 呈した胸椎脊柱管内骨軟骨腫の1例

産業医科大学整形外科科学教室

柳 英 浩・鈴木 勝 己
中 村 利 孝・三 島 真 一
肱 岡 昭 彦

Thoracic Cord Compression by an Osteochondroma in a Patient with Multiple Osteochondromas

by

Hidehiro Yanagi, Katumi Suzuki, Toshitaka Nakamura
Shinichi Mishima, Akihiko Hijioka

Department of Orthopedic Surgery, School of Medicine,
University of Occupational and Environmental Health, Japan

Osteochondromas rarely compress the spinal cord or cauda equina. A case of thoracic cord compression by an osteochondroma combined with multiple osteochondromas is reported. A 21-year-old man was admitted to our hospital with a 3-month history of spastic gait and sensory disturbance. The diagnosis of osteochondroma of the 1-3rd thoracic spine was made based on histological examination, roentgenogram, myelogram and CT scan.

Right decompressive hemilaminectomy was performed at the 1-4th thoracic level. Postoperative CT scan and MR images showed no evidence of recurrence or malignancy.

骨軟骨腫は長管骨の骨幹端部付近の発生が多く、脊椎、特に脊柱管内に発生し、脊髄症状を起こすのは比較的稀である。今回我々は、四肢長管骨、肩甲骨、肋骨に骨軟骨腫が多発した症例で、第1胸椎から第3胸椎のレベルで椎体および脊柱管内に骨軟骨腫が発生し、脊髄圧迫症状を来した1例を経験したので、若干の考察を加えて報告する。

症 例

患者：21才，男性，調理師（Y. N.，8211225-1）

主訴：体幹，両下肢知覚障害，歩行障害

家族歴：家族に類似疾患なし。

既往歴：幼少期より，四肢に骨性の突起物があり，成長に伴い増大していた。昭和57年10月1日当院にて，右上肢痛に対して，右上腕骨と橈骨部の骨腫瘍切除術を行った。組織像は骨軟骨腫の診断で悪性像は認

めていない。

現病歴：前回の手術後は，特に問題なく経過。昭和62年4月より調理師として就職していた。平成元年10月，自宅の火事で2階より転落，第2腰椎圧迫骨折，右第5中足骨開放骨折受傷，平成2年1月まで近医で入院加療を受けた。平成2年3月より両下肢しびれ感，歩行障害出現。就労に支障を来し，平成2年5月31日当院再診，精査加療目的で平成2年6月26日入院となった。

入院時現症：視診上，胸腰椎にわたる右凸の軽度の側彎を認める。両四肢の関節周辺および左肋骨部に骨突出による変形を認める。手関節の可動域制限および運動時痛はない。肘関節は，両側とも約20度の内反肘で伸展制限を認める。歩行は速性歩行で伝い歩きであった。神経学的所見は，膝蓋腱反射およびアキレス腱反射は両側亢進し，Babinski反射，膝クローヌスおよ

び足クローヌスは両側陽性であった。知覚障害は、両側膝関節以下で温痛覚が低下しており、第8胸椎以下の体幹および両下肢のしびれ感を訴える。徒手筋力検査は、右下肢は4+〜5、左下肢は4-〜4+と低下していた。膀胱直腸障害は認めなかった。

入院時検査所見：血液、生化学、尿、髄液検査で異常はない。

四肢単純X線像：両手関節変形および両膝関節周囲に多発性の骨軟骨腫を認める。

頸椎単純X線像、断層撮影所見：右第1肋骨および第1胸椎から第3胸椎部に石灰化陰影を認める（図1）。

図1 頸胸椎単純X線像 断層撮影像
ともに、右第1肋骨および第1胸椎
から第3胸椎部に石灰化を認める。

図2 (a) (b)
(a) T₁ 強調
(b) T₂ 強調

第2胸椎から第3胸椎間で腫瘍に相当する異常陰影を認め、T₁強調で低信号と高信号域が混在し、T₂強調で低信号を示す。

MRI所見：第2胸椎から第3胸椎に異常陰影を認め、T₁強調像で低信号、高信号域が混在し、T₂強調像で低信号域を示し、脊髓を右から左へ圧排している（図2）。

骨シンチ所見：第1、2胸椎右側、胸骨、両膝関節周囲、左脛骨の遠位端に取り込みを認める。

脊髓造影所見：第1胸椎から第3胸椎にかけて石灰化した腫瘍陰影を認める。第2胸椎から第3胸椎にかけて右側からの完全閉塞像を認める（図3a）。

造影CT所見：第2胸椎を中心として右肋骨付着部から脊柱管内に石灰化所見が見られる。腫瘍は、脊柱管内の右側半分を占め、硬膜管および脊髓を右側から圧迫し左方へ偏位させている（図3b）。

動脈造影：右鎖骨下動脈および肋間動脈造影では骨腫瘍への明らかな栄養血管およびブーリングは認めない。

(a) 脊髓造影像
第2胸椎から第3胸椎にかけて右側からの
完全閉塞を認める。
(b) CT像
第1胸椎（上図）から第3胸椎（下図）にか
けて、腫瘍は脊柱管内の右側を占め、硬膜お
よび脊髓は右側から圧迫されている。

手術所見：平成2年7月16日、第2～4肋骨部分切除術、第1胸椎から第4胸椎までの右片側椎弓切除術、脊柱管内腫瘍摘出術、第7頸椎から第6胸椎までの左後方固定術を施行した。腫瘍は、第2肋骨下縁より椎体側へ広がっており、まず壁側胸膜を腫瘍より剝離し、第1胸椎下縁から第4胸椎間まで、棘突起を残したまま、右側椎弓部分をサージェアトームで削り脊柱管内に達した。腫瘍は第1胸椎下縁から第3胸椎上縁までの脊柱管の内外に見られ、第2胸椎レベルで最大で硬膜を左側へ圧排していた。肉眼的に腫瘍は軟骨の帽子をかぶり、右椎弓根を中心に発生し椎体前方に及んでいた。除圧目的で脊柱管内の腫瘍をサージェアトームで慎重に切除し摘出すると、硬膜は圧迫より開放され拡張拍動を見た。

図4 病理組織所見

軟骨腫の化骨像に相当し、軟骨細胞に大小を認める。

図5 (a)

術後MRI像

(a) T₁強調

(b) T₂強調

腫瘍陰影は消失、脊髄の圧排は改善されている。

病理組織所見：Osteochondroma に一致する所見であった。軟骨腫の化骨像に相当し、軟骨細胞に大小を認める。明らかな異型を認めない(図4)。

術後経過：手術後、4週間ギブスベッド安静後、平成2年8月14日テーラー装具をつけて歩行訓練を開始する。9月17日、歩行器不要となり自立歩行となる。平成2年9月19日、しびれが両膝付近にあるものの、歩容改善し軽快退院となる。

術後MRI所見：平成2年11月15日現在、骨軟骨腫の切除後脊髄の圧排は改善されている(図5)。

術後CT所見：第2、3胸椎レベルで骨軟骨腫とともに右椎弓が切除されている。椎体に骨軟骨腫の遺残を認める(図6)。

考 察

骨軟骨腫は、良性骨腫瘍中最も多く見られる骨腫瘍である。平成元年度版全国骨腫瘍患者登録一覧表(1989年)¹¹⁾では、1964年から1989年の間で、原発性骨腫瘍46511例中、8940例(9.2%)と第1位の発生率である。

図6 術後CT像

上図：第2胸椎 下図：第3胸椎

右椎弓が切除され、椎体に骨軟骨腫の遺残を認める。

骨軟骨腫の好発部位は、四肢長管骨の骨幹端付近で、脊椎での発生は比較的まれである。脊椎における骨軟骨腫の発生率は、3.1% (Dahlin³⁾)、1.5% (Huvos⁹⁾)、および本邦全国骨腫瘍登録患者一覧表 (1964~1989年)で0.67%である。本邦で1973年~1991年の19年間に発表された脊椎発生骨軟骨腫の症例は、我々の知りえた範囲内で47例、頸椎23例、胸椎16例、腰椎8例で、多発例は21例、単発例は26例であった(表1)。21例の多発例のうち骨軟骨腫が脊柱管内に発生発育したため、脊髄あるいは馬尾神経圧迫症状を呈した症例は18例であった(表2)。年齢分布は、10才~47才で平均22.2才で、性別は男11例、女7例で男性例が多い。家族歴は、18例中8例(1例不明)に認めた。脊椎に発生した単発性骨軟骨腫で、神経症状を呈した症例は17例あるが、家族歴は全く認めていない。脊椎発生高位別では、頸椎7例、胸椎10例、腰仙椎1例

で頸椎および胸椎発生例が多い。平均年齢は頸椎19才、胸椎20才、腰仙椎発症例47才であり、頸椎、胸椎は若年期に多く、腰椎は壮年期に発生した。一般に、軟骨内骨化で発育する骨軟骨腫は、脊椎では椎弓、椎弓根、椎間関節、横突起、棘突起の成長軟骨部分に発生し、第二次性徴期にあたる10才台に急速に増大する可能性がある。また、脊柱管は前後径、横径とも5才頃まで著明に拡大、10才ごろまで増加を続けその後は

表1 脊椎発生を見た骨軟骨腫体本邦文献発表例
1973年~1991年 (自験例を含む)

	脊椎発生数	頸 椎	胸 椎	腰~仙椎
多発性	21	9	10	2
単発性	26	14	6	6
総 数	47	23	16	8

表2 脊髄、馬尾神経圧迫症状を来した多発性骨軟骨腫本邦文献例
1973年から1991年 (自験例を含む)

報告者	年齢	性	家族歴	発生高位	局 在	手 術 方 法	全摘出
大 田 (1973)	17	男	—	C 4	椎弓根	Laminectomy+側方拡大術	○
松 本 (1974)	20	女	+	C 2	椎 弓	Wide laminectomy	○
川 下 (1978)	14	女	—	Th 7~8	椎 弓	Wide laminectomy	○
柳 迫 (1980)	47	男	+	L 4~S	椎体、椎弓	Wide laminectomy 可及的腫瘍切除術	×
庄 (1981)	15	男	+	C 3~4	椎弓根、椎間関節	Wide laminectomy	?
矢 島 (1981)	11	女	?	Th 2	椎弓、椎弓根、肋骨	腫瘍摘出術	○
三 浦 (1982)	16	女	+	Th 5	椎弓、椎弓根	Wide laminectomy 側方拡大術	○
森 本 (1982)	22	男	+	Th 5	上関節突起	Wide laminectomy	?
	28	女	—	Th 4	椎弓、椎弓根、椎間孔	Wide laminectomy 可及的腫瘍切除術	×
大 森 (1983)	22	男	—	C 2	椎 弓	Hemilaminectomy	○
小 亀 (1983)	13	女	+	Th 5	脊柱管内	Laminectomy	?
小 野 (1984)	38	男	—	C 5	椎 弓	Wide laminectomy	○
劉 (1984)	45	女	+	Th 5	椎弓根	Wide Taminectomy	○
山 口 (1988)	21	男	—	C 2~3	椎弓、椎体、椎間関節	棘突起縦割法 Hemilaminectomy	○
倉 (1988)	21	男	—	C 4	椎 弓	棘突起縦割法 腫瘍全摘出術	○ ○
窪 田 (1989)	10	男	—	Th 3	椎 弓	Wide laminectomy	○
米 倉 (1990)	19	男	+	Th 不明	椎 弓	Laminectomy	?
柳 (1991)	21	男	—	Th 1~3	椎体、椎弓、肋骨	Hemilaminectomy 後方固定術	×

ほぼ一定するので¹⁰⁾、一般に脊柱管内に発生した骨軟骨腫が、最も神経症状を呈しやすい年齢は10才前半から20才前半であると考えられる。脊柱管内容積は頸椎および胸椎は狭く、腰仙椎は広いが、Elsberg-Dyke曲線(成人例)によれば、第4胸椎から第8胸椎の間で椎弓根間距離が最も狭く、腫瘍性病変がこの部位で脊柱管内を占拠すれば、胸椎部は頸椎部と同様神経症状を惹起しやすい。実際、胸椎発生10例(1例高位不明)中6例は第4胸椎から第8胸椎間に発生していた。つまり、胸椎では骨軟骨腫の成長および脊柱管の解剖から症状が出やすい。対照的に、腰椎部では脊柱管の容量が大きいため、長い時間をかけて骨軟骨腫が増大して壮年期に発症する傾向にある。

ところで、Singhらは⁹⁾、急速な脊髄神経症状の発現およびその進行に関して、要因として微小外傷あるいは悪性変化をあげているが、脊柱管内発生骨軟骨腫による脊髄神経症状の発現およびその進行には、脊椎高位ならびに年齢などの要因を加える必要がある。我々の症例は、5カ月前に高所より転落した後に脊髄神経症状を発症しており、外傷が遠因となった可能性は否定できない。

手術方法は、一般に骨軟骨腫を連続した骨膜とともに一塊として全摘出する腫瘍周辺部切除が必要で、脊柱管内腫瘍を全摘出するために、椎弓切除術が行われている。18例の手術術式を見ても、棘突起縦割法の2例以外は、我々の症例を含め全例椎弓切除術が行われている。

骨軟骨腫の術後再発および悪性化に関しては、Ennekingらは⁴⁾腫瘍辺縁切除後の再発率は、骨盤や肩甲帯の部分では多発性遺伝性は約10%、単発性は5%としている。一般に骨軟骨腫が自然に悪性化して軟骨肉腫に変化する例は、多発性が5%から25%⁶⁾、単発性が1%⁵⁾である。加藤らは⁷⁾多発性骨軟骨腫46例中、4例(8.7%)が悪性化したとしている。Dahlinらは、手術後に多発性および単発性骨軟骨腫が悪性化する危険度を、それぞれ27.3%、3.2%としている。我々が文献的に本邦で知りえた範囲内では、術後再発は3例で、多発性1例、単発性2例であり、悪性化¹²⁾は単発性の1例のみで、術後再発を繰り返した結果悪性化している。森本らは⁸⁾最初の手術で腫瘍切除を可及的にとどめ、術後に症状の再発あるいは症状の残存を2例経験し、再手術を行っている。秋月らは¹²⁾脊髄圧迫

症状を呈した単発性胸椎骨軟骨腫症例が、術後再発を繰り返すため計3回腫瘍摘出術を試み、最後の手術で悪性化し軟骨肉腫に変化した症例を報告している。今後取り残した腫瘍が再発あるいは悪性化しないとは言えず、諸家の指摘のように再発あるいは悪性化する可能性があれば、除圧目的の腫瘍摘出術にとどめず、椎体部まで徹底的な腫瘍摘除術を行う必要があったと考えている。

現在当科で定期フォローしており、平成3年10月末現在(術後1年3カ月)、脊椎変形は無く、下肢しびれ感に残存するが、元気に仕事に従事している。

ま と め

1. 多発性骨軟骨腫に合併し、脊髄圧迫症状を呈した胸椎脊柱管内骨軟骨腫の1症例を経験した。
2. 脊柱管内骨軟骨腫の手術は、徹底した腫瘍全摘出術および脊柱支持性の維持が必要である。
3. 骨軟骨腫、特に多発性骨軟骨腫の手術後は再発および悪性化の可能性がある。

参 考 文 献

- 1) 秋月 章, 他: 胸椎に発生し脊髄圧迫症状を呈した骨軟骨腫の2例. 整形外科, 29: 873-877, 1978.
- 2) 秋月 章, 他: 初回手術後3年3カ月で悪性化した胸椎椎管内に発生した骨軟骨腫の1例. 整形外科, 31: 1010-1012, 1980.
- 3) Dahlin, D. C.: Bone Tumors 4th ed. Charles C Thomas Publisher Co. Springfield Illinois 18-32, 1986.
- 4) Enneking, W. F. et al.: Common Bone Tumors. Clin. Symposia, 32: 12-13, 1991.
- 5) Garrison, R. C. et al.: Chondrosarcoma arising in osteochondroma. Cancer, 49: 1890-1897, 1982.
- 6) Huvos, A. G.: Bone Tumors 2nd ed. W. B. Saunders Company 253-268, 1991.
- 7) 加藤 梯二, 他: 遺伝性多発軟骨性外骨腫より生じた2次性軟骨肉腫の4例. 整形外科と災害外科, 35: 1173-1175, 1987.
- 8) 森本 典夫, 他: 神経障害を伴った脊椎骨軟骨腫の3症例. 西日本脊椎研究会誌, 8: 77-82, 1982.
- 9) Singh, D. S. et al.: Cervical cord compression from multiple hereditary exostoses. Jr. Asso. Phys. Ind. 28: 535-537, 1980.
- 10) 渡辺 秀男, 他: 脊椎の発生と成長. 図説臨床整形外科講座1 脊椎・脊髄, メジカルビュー社, 2-13, 1984.
- 11) 全国骨腫瘍患者登録一覧表: 日本整形外科学会骨腫瘍委員会, 1989.