参 考 文 献

- 1) Albright: Recent Prog. in Hormon Research, 1; 1947.
- 2) Breitenfelder: Verhandl. d. deutsch. Orthop, 1952.
- 3) Frangenheim: Beitr. z. klin. Chir., 72. 1911.
- 4) Hass: Zbl. f. Chir., 50. 1923.
- 5) Harris: J. B. J. S. 32-B, 1. 1950.
- 6) Howorth: J. B. J. S., 31-A, 4. 1949.
- 7) Howorth: Clinical Orthopaedics, 10. 1957.
- 8) Jackson: J. B. J. S., 39-B, 4. 1957.
- 9) Key: J. B. J. S., 8, 53. 1926.
- 10) 神中: 神中整形外科科学, 昭 16.
- 11) 横関: 整形外科, 6, 1, 昭 30.

メロレオストージスと思われる一例

久留米大学医学部整形外科教室
(主任: 宮 城 成 圭 教授)

宮 城 恒 夫
桶 口 康 彦

A Case of Melorheostosis.

By

T. Miyagi and Y. Higuchi

Department of Orthopedic Surgery, Kurume University
School of Medicine. (Director: Prof. S. Miyagi)

Melorheostosis は主として壮年者の四肢骨のうち、その一肢に限局した特発性骨硬化像を示す比較的稀なる疾患であり、1922年 Leri 及び Joanny により初めて記載されて以来 Schinz の報告に依れば欧米に於いて現在まで66例の報告があるに過ぎない。本邦に於いては昭和 16 年 桜林が発表して以来約 9 例の報告が見られる。我々は最近本症と思われる一例を経験したので、ここに報告する。

症 例

患者: [] 34 才 女子 農業

主訴: 右足底部痛

既往歴: 11 才の時扁桃腺炎に罹患した以外に特記事項なし。

家族歴: 父母は近親結婚ではない。同胞 4 人。子供 2 人、いずれも健康であり、家系に患者以外本症を疑わせるものを見出し得ない。

現病歴: 17 才の頃外傷等の誘因なしに、右足底第 3, 4 中足骨部に硬い隆起を触れるのに気付いた。しかし殆んど何らの障害もなかつたので放置していた。所がその後、次第に足底部の膨隆が増大し、歩行時に石等を踏んだ際に局所の軽い疼痛を感じる様になり、次第に長距離歩行が困難となつて来たので、約 6 年前地方医にて手術を受け骨様物を摘出し一応疼痛は軽快した。しかし昨年 5 月頃より再び疼痛が現われて来た

ので再手術を受けたが効なく、最近になつて歩行時に足関節部にも倦怠感を感じる様になつて来たので、昭和 33 年 8 月 20 日、精査希望にて当整形外科外来を受診した。

現症: 体格、栄養中等度、全身の發育障礙、奇形等は認められず、胸腹部その他に異常を認めない。血液の諸検査は別表の如くであり、いずれも略々正常値を示している(表 1)。

(表 I) 血 液 所 見

Hb	88%/Sahli	血清総蛋白量	7.7 g/dl
赤血球数	456 万	血清蛋白分割	
白血球数	7000	A1	62.4 %
白血球分類		α ₁	3.3 %
エオジン好性球	3 %	α ₂	5.6 %
中性桿状核	5 %	β	8.0 %
中性分葉核	50 %	γ	20.1 %
リンパ球	36 %	血清蛋白 A/G 比	1.66
單 球	5 %	血清ナトリウム	127 m Eq/l
塩基好性球	1 %	血清カリウム	3.8 m Eq/l
血沈 中等價	7 mm	血清アルカリフォスファターゼ	4.2
ワッセルマン反應	(-)	(篠原ジョーンズ法)	
		インハルト 單位	
		血清カルシウム	10.1 mg/dl
		血清 磷	3.3 mg/dl

局所々見として、右下肢は全般に少々瘦削し、大腿及び下腿の変形はない。右足部では第2趾は第3趾に比して少々短く、第3、第4趾間は異常に離開し、同部足底側は瀰漫性に膨隆し、約2厘の手術瘢痕が認められる(写真1)。

(写真 I)

触診では、足背第4中足骨基部及び第3、第4趾間足底側に骨様硬、表面凹凸不平な膨隆を触れ、軽度の圧痛を認める。その他皮膚の異常着色、熱感、静脈怒張等はない。関節可動性は、右第3、4中足趾関節の軽度の運動制限がある外、足関節、膝関節、股関節のいづれにも運動制限は認められない。

下肢長左右とも75厘、足長右21.5厘、左22厘、大腿周径は右39厘、左40.5厘、下腿周径右32.5厘、左34厘である。

(写真 II)

X線像；図3の如く右踵骨より立方骨、第3楔状骨、第3、4中足骨及び趾骨にかけて、境界明瞭なる斑点状濃厚陰影を認める。特に第3、4中足骨に於いては、全体的に硬化像が見られ、特有な蠟が垂れるが如き像を呈している。しかも第3、4中足骨は Synostosis の状態を呈している。第3、4中足趾関節の関節裂隙は明瞭であるが、軽度の変形があり。周囲の軟部組織中には石灰化像と思われる所見を認める。その他の足骨に於いては、第2中足骨の短縮を認める外、骨硬化像は見られない(写真II)。

次に右腓骨上1/3部にも、特有なる骨硬化像が認められるが、特に左右像に於いて骨表面に膨隆しているのが判る。又膝関節外側部の軟部組織中に、境界明瞭なる石灰化像と思われる所見がある(写真III)。

(写真 III)

その他骨盤、上肢等の全身的X線撮影を行つたが右下肢以外の骨には全く変化を認めなかつた。

組織学的所見；右第3中足骨基部及び第3、4中足趾関節部の試験片採取を行い、組織学的検査を行うに、標本の一端は関節軟骨の附着があり、此れに接する骨梁には Osteoblasten の配列が認められ一般に骨梁は肥厚していた。又骨梁中の Havers 氏管も明視されるものが多く、骨髓腔は軽度の Fibrosis を呈していた。その他炎症像は全く見られなかつた。(写真IV)

考 按

元来 Melorheostosis の病因に関しては、Lèri(1922) の栄養神経障害説、Putti(1927) の交感神経障害説、

(写真 IV)

Zimmer (1927) の胎生期障害説, Schinz (1952) の遺伝病説等がある。Boecker (1951) によれば、外骨腫、オステオポイキリー、メロレオストーゼ等すべて斑点状又は帯状の骨硬化像を示す骨疾患はいずれも同一の先天性原因によるもので、この間に移行型と思われるものがあり、1つの疾患群として配列すべきものと考えている。更に Hill (1939) は外傷が誘因になるとして居り、我が国でも 福田等は外傷に誘発されたと思われる一例を報告している。しかしそれらはいずれも仮説の域を脱しておらず、原因は未だ不明といわざるを得ない。我々の症例に於いても認めうべき原因はなかつた。

本疾患の臨床症状は極めて漠然としており、時に疼痛及び関節の運動制限を来すことがあるが、関節の強直を来すことはない。又 Schinz は症例の 16% に Scleroderma 等の皮膚変化を認めているが、我々の症例では皮膚変化はなかつた。

X線上的骨硬化を来す疾患は多数あるが、局所性のものは骨髓炎、骨結核、その他の炎症性疾患があり、全身的には、大理石骨病、オステオポイキリー、メロレオストーゼ、変形性骨炎、その他の系統的疾患があげられる。この中でメロレオストーゼは一般に局限し、その所見が肢骨の長軸に沿い、恰も蠟が流れるが如き感を呈する事から、最初 Léri により Melorheostose と名付けられたものである。その後同様な症例報告あり、Osteosclerosis, Osteosis eburnisans monomelia, Osteopathia hyperostotica, monomelic hyperos-

tosis と名付けられている。

Schinz 及び Hinkel (1957) によれば、特異な骨硬化像の他に軟部組織中に骨様硬化像を認めることありと云っているが、前記の如く我々の症例でも右膝関節部及び右第三、四中足趾関節部に骨様硬化像を認めることが出来た。

本症例では、他の報告例と同様にいつから起つたかは不明であるが、かなり早期に発病せるものと思われ、これが無症状のまま経過し、第三、四中足趾関節部の足底側の軟部化骨が増大し、漸次歩行時の圧痛を来した為、レ線検査により始めて発見されたものである。約1年後の再診時のレ線像では、軽度ではあるが末梢側へ骨硬化像の進行が認められる。

今後尚長期間観察の要ありと思われるが、以上の臨床症状及び、レ線所見より本症例は一応 Melorheostosis としてよいのではないかと考えられる。

む す び

我々は 34 才の女子で、右下腿、足部に局限した特徴ある骨硬化像を来し、足部及び腓骨小頭上部の軟部組織の化骨を来した Melorheostosis と思われる一例を経験したが稀有なる疾患なので、2, 3 文献的考察を加え報告した。

(終りに臨み御指導、御校閲を賜った恩師宮城教授に深謝す。)

文 献

- 1) Bocker: Fortschr. Röntgenstr., 74, 299, 1951.
- 2) Dillehunt: J. Bone Joint Surg., 18, 991, 1936.
- 3) Howorth: Textbook of Orthopedics, 1952.
- 4) Hinkel: Clinical Orthopaedics, 9, 1957.
- 5) Schinz: Lehrbuch der Röntgendiagnostik, 1, 1952.
- 6) Wallace: J. Bone Joint Surg., 32-A, 422, 1950.
- 7) 荒木: 整形外科, 5, 2, 113, 昭 29.
- 8) 金子: 日整会誌, 25, 6, 332, 昭 27.
- 9) 篠原: 日整会誌, 16, 3, 4, 昭 17.
- 10) 福田: 整形外科, 5, 1, 49, 昭 29.
- 11) 榎方: 整形外科, 5, 3, 169, 昭 29.