

汎発性線維性骨炎の1例

厚生年金玉造整形外科病院 (指導 院長医学博士 塩津徳政)

香 川 徹

(原稿受付 昭和33年4月30日)

A CASE REPORT OF OSTITIS FIBROSA GENERALISATA

by

TETSU KAGAWA

From the Tamatsukuri Welfare Pension Orthopedic Hospital

(Director : Dr. NORIMASA SHIOTSU)

1. The present author experienced one case of ostitis fibrosa generalisata. The patient was a 23 year-old female and the chief complain was dull pain in the back and waist. The affected sites were the spine and ribs.

2. The x-ray photographs disclosed the flattened 8th and 12th thoracic vertebrae and clarifications of the size of the tip of the thumb in the right 7th and 8th ribs. The border of the lesions was relatively sharp. The inside of each clarification was polycystic and partitioned by fine walls. Neither narrowing of the intervertebral disc, abscess, reactive production of bone, nor bone new growth was found.

3. Therefore, operational removal was attempted. Laminectomy was made on the 7th, 8th and 12th thoracic and 1st and 2nd lumbar vertebrae and posterior spondylodesis after Albee-Henle was combined. The lesions in the right 7th and 8th ribs were also resected. The result of this operation was fair.

4. From the above stated data the present author supposes that, to treat this disease radically, resection of affected lesions with the surrounding normal tissue combined with bone graft would be recommended.

汎発性線維性骨炎は左程稀な疾患ではないが、最近私が経験した脊椎骨、肋骨の夫れは比較的例数が少ないと思われるので報告する

症 例

梶○修○ 23才 女 会社員

主 訴：背、腰部の鈍痛

家族歴：特記する事はない。尚特に遺伝性疾患は証明されない。

既往歴：生来健康で著患を知らない。ツベルクリン反応は17才の時陽転。ワッセルマン氏反応は陰性。

現病歴：1年前より特に誘因と思われるものなく背部に鈍痛を訴える様になつたが、某医により結核性胸

椎炎の診断を下され6ヵ月間入院してギブスベッドに安静臥床していた。所が最近になって背痛がその程度を増強すると同時に腰痛も高度となり、起床時や軀幹の屈伸時に特に著明となつて来た。

盗汗(-)、咳嗽及び喀痰(-)、枯声(+)

食欲、中等度、睡眠、良好、便通、正常。

現 症：全身所見：体格、栄養共に中等度、体温、脈膊共に正常。顔面、頭蓋に変形なく、頭髮は黒色光沢を有し正常。甲状腺の肥大は認められない。又四肢の変形、疼痛、運動障碍等も証明されない。

局所々見：脊柱全般に亘り軽度の亀背と強剛性が証明される。第6～8胸椎には圧痛及び叩打痛が、第2～3腰椎には叩打痛が又第5腰椎には圧痛及び叩打痛

が夫々証明される。左坐骨神経、両側上髁神経に圧痛を認め、又ラセグー氏症候は右130度左100度で共に陽性。膝及びアヒレス腱反射両側共に亢進しているが、搔癢その他の異常反射は証明されない。又左大腿部全般に軽度の知覚鈍麻を証明する。尚何処にも膿瘍は証明されない。

X線像所見：前後面像

第8胸椎を中心に左方凸の軽度の側彎を認める。第8胸椎は扁平化し特に右側に於いて高度である(図1)右第8肋骨の後面には母指頭大に膨隆した透明巣を証明し、その辺縁は境界比較的鮮明で、陰影少々濃厚で

ある。同様の像は第7肋骨にも認められる。透明巣内部は多房性で繊細な壁で区切られている。(図2)次に第1腰椎を中心に右凸の側彎を認め、第12胸椎々体も扁平化している。

側面像：第8胸椎は楔状に扁平化し、胸腰椎移行部では後彎は増強し、第12胸椎は扁平となつている。

(図3)

尚前、後面、側面像を通じて何れも椎間板狭小、膿瘍像、反応性骨増殖或は骨新生像等は全く証明されない。

胸部X線像所見：結核性病変等の異常像は証明され

図 1

図 2

図 3



ない。

四肢骨X線像所見：何れも全く正常で、膨隆部、透明巣、陰影濃厚像等は証明されない。

手術所見並びに経過

① 昭和29年6月21日

術式：椎弓切除術並びに病巣搔爬兼アルビーヘンレー氏脊椎後方固定術(腸骨移植)第1腰椎を中心に約10cmの皮切を加え、第12胸椎、第1、第2腰椎に達するに各椎弓の右側は非常に、菲薄、軟性且、脆弱で之をリウエル氏骨鉗子にて削除して行くと第1腰椎々弓に於いてその右側に小指頭大の囊腫様の空洞を認め、中に漿液性水様液を証明した。充分に搔爬後、該部に左腸骨稜より採取した骨片を移植固定して手術を終る。

② 昭和29年9月30日

術式：肋骨切除術、椎弓切除術並びに病巣搔爬兼アルビーヘンレー氏脊椎後方固定術(肋骨移植)

第7胸椎を中心に約10cmの皮切を加え病巣部に達す。第7、第8胸椎々弓の右側は菲薄、脆弱で之をリウエル氏骨鉗子にて可及的に削除し、次いで右第8肋骨を追究した所X線像に一致して母指頭大の囊腫様空洞を認め中に漿液性水様液を証明した。第7肋骨に於いては肋膜に接する部が脆弱となり髓質消失の状態を認めた。従つて第7、第8肋骨に充分骨膜剝離を行い健康部も含めて切除した。同時に切除肋骨の健康部を使用して第7、第8胸椎に移植固定術を施行した。

病理組織所見：椎弓部の組織像では散在性の囊腫を認めた。之は比較的厚い膜で覆われ、中に少量の赤血球及び単核細胞を認める。骨髓は囊腫の為、圧迫され骨髓性細胞も殆んど認められず、略々完全な線維髓の構造を呈している。(図4、5)

術後経過：ギブス床に静臥させたが、創面は何れも第1期癒合を営み、第2回手術後約5週より胴コルセットを装用させ昭和29年12月25日退院した。その後今日

図 4



図 5



に至る迄病状の再発或は悪化等は認められていない。

総括並びに考按

原因並びに成立機構について。

汎発性線維性骨炎は1891年 V. Recklinghausen により初めて報告された疾患で、一般には主として正常脂肪髄質が結合繊維性間質の増殖によつて線維髄に置き換えられると同時に、正常なる骨質は窩状に吸収され広汎な破壊を蒙ると共に、他方類骨質の新生を伴うものであると云われている。然し乍らその本態或は原因に就いては今日尚諸説紛々として、定説なき状態である。

V. Recklinghausen はその本態を炎症に帰し、骨髓組織より結締組織の増殖せられるのは形態学的にみて一種の肉芽組織と見做すべきもので、この骨髓基質の産出性炎症による骨髓間質の増殖の為に周囲組織の破壊消失を来すのであると述べている。

次に本症と佝僂病或いは骨軟化症との関係に就いては、既に V. Recklinghausen(1891)が石灰欠乏性骨疾患と汎発性線維性骨炎との間には著明な相似点がある事を指摘しており、Stumpf, Pfeifer, Lacge 等も此の説に賛成しているが、一方1912年藤井氏は線維性骨炎は骨軟化症より厳密に区別せられるべき疾患であると主張し、G. Schmorl も線維性骨炎は必ずしも骨軟化症と合併するものではないと云っている。更に近時擡頭した説で最も熱心に考究されつゝあるのは内分泌機能との関係であるが、就中最も重要な意義を有するのは上皮小体の石灰物質代謝に関してである。

Hoffheing (1925) は上皮小体腫を有するもの45例の剖検で、同時に骨系統の変化を有するもの27例を発見し、その中17例に線維性骨炎を証明し、又 Mandl (1926) Schmorl (1926) 等も同様の成績を報告している。

これに反し Bergmann (1928), Winter(1929) 松丸, 山根氏(1932), 高橋氏(1937)等は上皮小体腫を認めないと述べている。

次に組織学的には限局性と汎発性との間には特にその差異は認められないが、臨床上には可成りの相違があり特に上皮小体腫の出現、石灰新陳代謝異常等の問題を考慮すると限局性の場合には単純なる限局性疾患、汎発性の時は之と全くその本態を異にする全身的疾患と見做すのが妥当であろう。

年齢及び性別：

年齢：Gangete, Konjetzny, Elmslie, Landon, Sauer, Caan, Nagel, Ehrlich, Hallermann, Kienböck 等は少年期に少いと論じているが、他方Fraugenheim は11~12才に50~60%発見すると云っている。本邦では松井氏が大多数は年少者で未だ骨組織の發育旺盛なる時期に来ると云っているが、高橋氏は成人に多いと述べている。私の症例は23才で高橋氏の説に一致している。

性別に関しては Lotseh, Säuer, Kienböck, 高橋氏等は女性に多いと云い、松井氏は両者間に著しい差は認めないと云っている。本症例は女性であつた。

好発部位：一般に線維性骨炎の好発部位はKolodny Looser 等によると50%が膝部で、上腕骨25%、骨盤肩胛骨、脊椎が20%を占めると云っている。又脊椎では腰椎に頸、胸椎の2倍以上の割合で好発し又殆どどの症例が同時に2個以上の椎骨を侵していたと報告している。本症例では胸椎、腰椎、肋骨に発現したもので稀なものと思われる。

予後並びに治療：予後：生命に対しては良好であるが、畸型及び機能障害に対しては一に病変発見及び処置の時期、発生部位及び手術の種類等によるもので、自然治療はAdamus氏によると4%であると云い、又骨折を起したゞけで病竈の内圧が降下し、新生骨の硬

化により囊腫の閉塞を招来した例も報告している。

治療：一般に外科的処置を行うが、その方法、手段には種々ありその応用は各症例によつて決定すべきで根治的には該病巣部並びに隣接健康部を一部含めて共に切除する。その際同時に骨移植術の併用を行うのが望ましい。之により術後の再発、悪性変化をさけ得ると共に美容的、機械的障礙が少い点からLexer, Hofmeister, Briiff, Bower 等が推奨しているものである。

結 論

①：私は23才の女子に発現した汎発性線維性骨炎の1例を報告した。

②：発生部位は第8、第12胸椎、第1腰椎並びに第7、第8肋骨で比較的稀なものに属する。

③：手術的療法(骨移植、搔爬並びに切除術)により良好なる結果を得た。

(終りに臨み御校閲を賜つた京都大学近藤鋭矢教授並びに御指導、御校閲を賜つた塩津徳政博士に深甚の謝意を表する)

文 献

- 1) Bloodgood, T. C. Benign bone cyst. Ostitis fibrosa. Ann. Surg. **52**, 145, 1910 ibid.
- 2) Konjetzny, G. E. Die sogenannte "lokalisierte Ostitis Fibrosa," Arch. f. klin. Chir., **121** : 567. 1922
- 3) R. Kienböck, Über die sogenannte Ostitis fibrosa F. Schrtte auf d. Geb. d. R-str, 1930
- 4) Hans, Selye. Textbook of Endocrinology 575, 1947.
- 5) J. Garcean, Solitary Unicameral Bone cyst J. of Bone And Joint Surg. April. 1954.
- 6) 松丸：Ostitis fibrosa generalisataについて日整会誌 **5**, 250, 昭5
- 7) 野本：V. Recklinghausen氏汎発性線維性骨炎に就いて。長崎医学会誌 **16**, 858, 昭26.
- 8) 山田：V. Recklinghausen氏病の石灰代謝に関する知見。日整会誌 **16**, 263, 昭16.
- 9) 塩津：定型的孤立性囊腫の1例北野病院業績報告3巻5冊
- 10) 藤本：汎発性線維性骨炎に就いて。日整会誌 **17**, 1450, 昭18.
- 11) 津下：Ostitis fibrosa generalisataに就いて。整外科 **4**, 2, 97. 昭28.
- 12) 松永：汎発性線維性骨炎(レックリングハウゼン氏病)の1例。日整外会誌 **27**, 5, 444. 昭28.
- 13) 加藤：副甲状腺機能亢進症(いわゆる Ostitis fibrosa generalista von Recklinghausen)の1例。外科 **16**, 6, 451, 昭29.