

## 64 歳の男性にみられた胸椎好酸球性肉芽腫の 1 例

<sup>1</sup> 東京女子医科大学 附属第二病院 整形外科<sup>2</sup> 八戸平和病院 整形外科<sup>3</sup> 岩手医科大学 医学部 第一病理学講座タカヤマ アツシ オオツジ タカアキ サワイ タカシ イノウエ カズヒコ  
高山 篤<sup>1</sup>・大辻 孝昭<sup>2</sup>・澤井 高志<sup>3</sup>・井上 和彦<sup>1</sup>

(受理 平成 16 年 6 月 8 日)

## A Case of Eosinophilic Granuloma of the Adult Thoracic Spine

Atsushi TAKAYAMA<sup>1</sup>, Takaaki OTSUJI<sup>2</sup>, Takashi SAWAI<sup>3</sup> and Kazuhiko INOUE<sup>1</sup><sup>1</sup>Department of Orthopedics, Tokyo Women's Medical University Daini Hospital<sup>2</sup>Division of Orthopedics, Hachinohe Heiwa Hospital<sup>3</sup>First Department of Pathology, Iwate Medical University

Eosinophilic granuloma is a condition typically found in children and is characterized on plain radiographs by the appearance of vertebra plana. There have been several cases of eosinophilic granuloma, however, reported in adults should therefore be included in the differential diagnosis of a destructive vertebral lesion in any age group. We present the case of a 64 y.o. male patient with progressive back pain and an osteolytic lesion in the thoracic 12 vertebral body. By open biopsy, the pathological diagnosis showed an eosinophilic granuloma and the patient got relief after spinal instrumentation.

**Key words:** eosinophilic granuloma, adult thoracic spine

## はじめに

好酸球性肉芽腫は主に小児期に発生し、扁平椎病変を見た場合の鑑別診断の一つにあげられている。しかし成人における発症例も散見、報告されており、成人脊椎破壊性病変の鑑別診断として留意する必要がある。今回、我々は骨生検により第 12 胸椎好酸球性肉芽腫と病理診断された成人発症例を治療する機会があり、現在もこの症例の臨床所見、脊椎画像の経過を観察しているので報告する。

## 症 例

患者：64 歳，男性。

主訴：腰背部痛。

既往歴，家族歴：十二指腸潰瘍，胆嚢ポリープ。

現病歴：平成 12 (2000) 年 4 月頃から次第に増強する腰背部痛を主訴として，同年 5 月初診となった。受診前 1 ヶ月で 4kg の体重減少があった。痛みのために歩行困難があり，日常生活も不自由となり，同日入院となった。感染性疾患も否定できなかったが，画像診断上，転移性脊椎腫瘍が最も疑われたため入

院翌日，針生検を施行した。針生検結果が得られる以前に，画像上で認められた病変による脊髄への圧排により神経症状が悪化することが予想されたため，腫瘍生検と同時に一次的な後方固定術を行った。全身精査により転移性脊椎腫瘍の原発巣などの確定診断が得られ，後方固定術後の評価を得た上で前方固定術を考慮することとした。

現症・理学的所見：身長 173cm，体重 54kg，体温 38.2℃。下肢に軽度筋萎縮があり，深部反射はやや亢進していたが病的反射は陰性で，明らかな麻痺，知覚障害は認められなかった。

入院時データ：赤血球数  $420 \times 10^4/\mu\text{l}$ ，ヘモグロビン 13.6g/dl，ヘマトクリット 37.8%，白血球数  $1.02 \times 10^4/\mu\text{l}$  (好塩基球 0.3%，好酸球 1.0%，好中球 79.0%，リンパ球 13.2%，単球 6.4%) と末梢血中好酸球上昇を認めなかった。血小板  $41.7 \times 10^4/\mu\text{l}$ ，総蛋白 7.8g/dl，アルブミン 3.5g/dl，AST 18IU/l，ALT 16IU/l，ALP 275IU/l，LDH 344IU/l， $\gamma$ -GTP 13IU/l，総ビリルビン 0.5mg/dl，直接ビリルビン 0.3mg/dl，CPK

45IU/l, アミラーゼ 78IU/l, 血清尿素窒素 13mg/dl, 血清クレアチニン 0.79mg/l, 血清ナトリウム 137 mEq/l, 血清カリウム 4.6mEq/l, 血清 Ca 99mEq/l, 血糖値 131mg/dl, CRP 7.8mg/dl と上昇を認めた。しかし尿検査は異常なく, 咽頭および喀痰培養も陰性で喀痰 Ziehl-Neelsen 染色も陰性であることから, 結核も含めて明らかな感染は見出せなかった。腫瘍マーカーは CEA, CA19-9, DUPAN-2 が陰性であった。

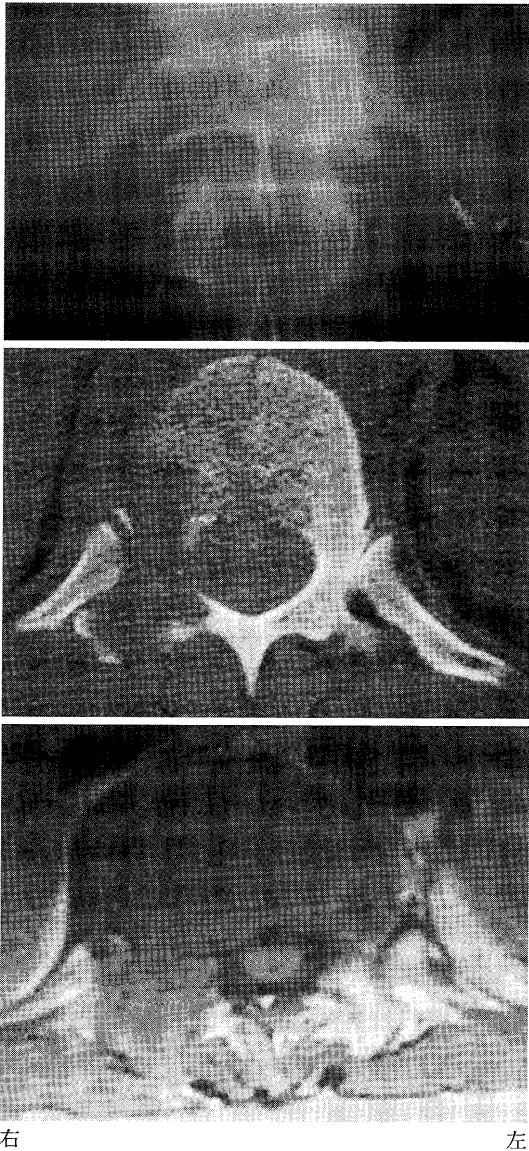


図1 初診時画像所見

上：X-P 第12胸椎の右椎弓根の溶解像が認められた。  
 中：CT 第12胸椎椎体, 右椎弓根, 右椎弓での溶骨性病変がより明瞭であった。  
 下：MRI 溶骨性病変部に浸潤性腫瘍が観察され転移性脊椎腫瘍が疑われた。第12胸椎圧潰により同部の脊髄も軽い圧排があった。

**画像所見：**平成12年5月初診時, 単純レントゲン像で第12胸椎の右椎弓根の溶解像が認められた(図1上)。CT画像では第12胸椎椎体, 右椎弓根, 右椎弓での溶骨性病変がより明瞭であった(図1中)。MRI画像では溶骨性病変部に浸潤性腫瘍が観察され転移性脊椎腫瘍が疑われた。第12胸椎圧潰により同部の脊髄にも軽い圧排があった(図1下)。ガリウムおよびテクネシウムシンチグラムでは第12胸椎以外に集積を認めなかった。

**針生検所見：**針生検所見は骨組織および結合組織片に混じって豊富な胞体を有する細胞が集族して認められ, 免疫染色上 cytokeratin 陰性, S-100 陽性を示し, AB-PAS 染色では胞体内に粘液は認めず, 組織球性の炎症性疾患の可能性が高いとの報告であった。

**手術所見：**全身麻酔下に後方進入で手術を行った。第11, 12胸椎棘突起, 右椎弓を切除すると右椎弓に浸潤する腫瘍を認めた。可能な限り椎体まで腫瘍塊を搔爬し, 第11胸椎から第1腰椎までの一次的後方固定術を行った(図2)。術中, 暗褐色の柔らかい腫瘍を搔爬した際に悪臭が感じられたので, 感染

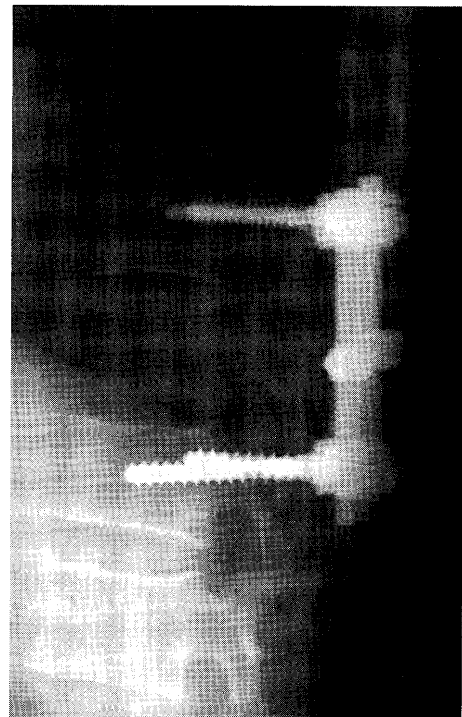


図2 手術後 X-P

後方進入で第11, 12胸椎椎弓切除, 可及的に腫瘍塊を搔爬し, 第11胸椎から第1腰椎までの一次的後方固定術を行った。

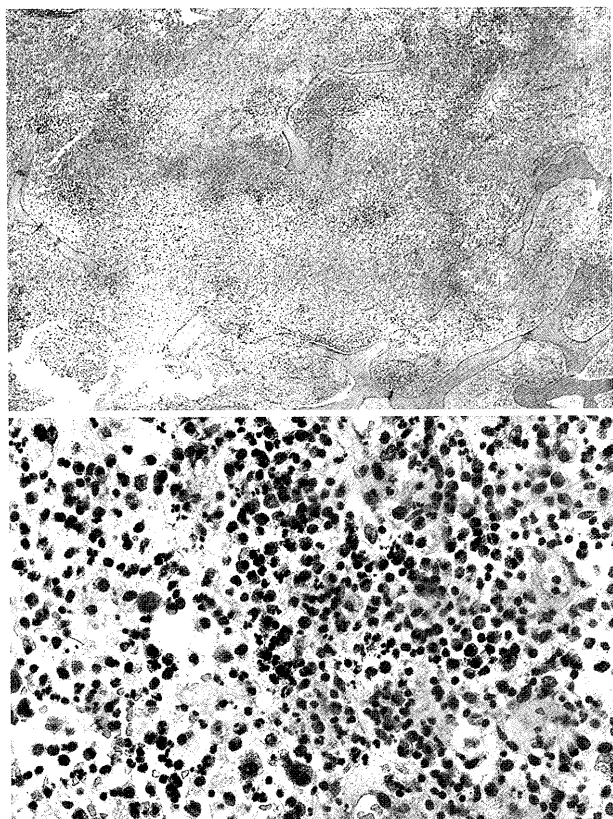


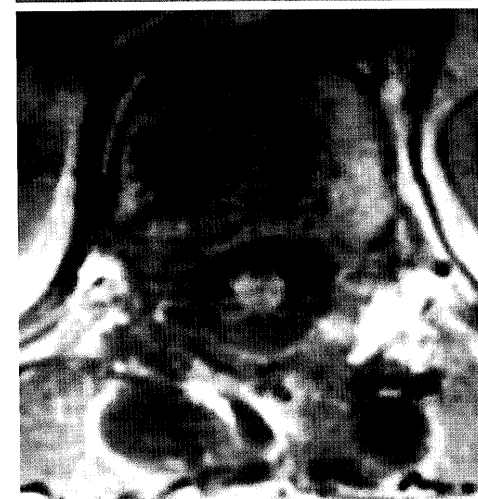
図3 病理組織学的所見

骨および骨髄組織を中心として多数の好酸球, リンパ球, 多核巨細胞の浸潤を伴う高度な炎症性変化がみられ類上皮細胞を伴っていた. 骨の破壊も認められた. 病変部の大型の細胞と類上皮細胞は CD68 が (+) で cytokeratin は (-) であり肉芽腫性の変化であった. 好酸球優位であったため診断は好酸球性肉芽腫に相当した.

性病変を疑わせたが, 転移性病変を否定するものではなかった. 二次的に前方固定手術を考慮していたので骨移植は椎弓切除時に得られた骨を後側方に置くのみとし, あえて腸骨採骨などの侵襲は加えなかった. 出血量 270g と転移性病変と考えた場合でも少ないと思われた.

**病理組織学的所見:** 病理所見は骨および骨髄組織を中心として多数の好酸球, リンパ球, 多核巨細胞の浸潤を伴う高度な炎症性変化がみられ類上皮細胞を伴っていた. 骨への浸潤も認められた. 病変部の大型の細胞と類上皮細胞 CD68 が陽性で cytokeratin は陰性であり肉芽腫性の変化であった. 好酸球優位であったため診断は好酸球性肉芽腫に相当した (図3).

**経過:** 平成 12 年 5 月初診時に入院し, 翌日, 透視下に針生検を施行した. 針生検の結果が出る以前に生検および後方固定を施行した. 術当日のみソルメ



右 左

図4 術後7ヵ月画像所見

X-P(上)およびCT(中) 第12胸椎の骨構築, 硬化が認められ, もはや病変は鎮静化していると思われた. MRI(下) 脊髄の圧排は解除されている.

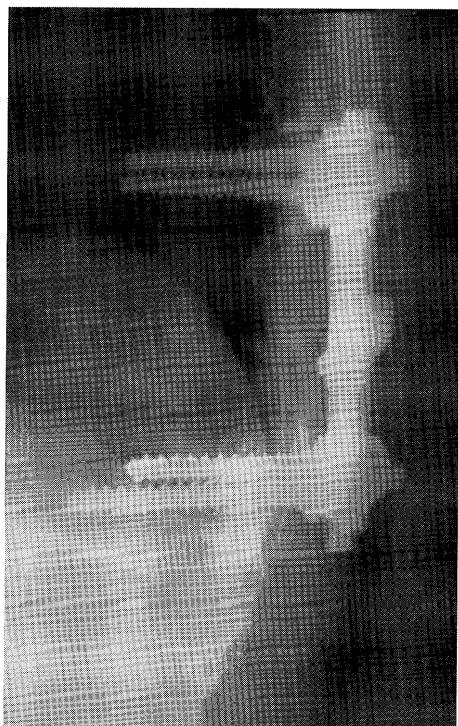


図5 術後3年 X-P  
椎体高の低下は著明だが骨硬化が認められた。

ドロール 7.5 g を投与した。術直後から疼痛は消失し、下肢運動および知覚に異常を認めなかった。同6月、病理診断で好酸球性肉芽腫の診断を得た。CRP値は術後4週で正常になった。同7月テクネシウムシンチグラムを、その2日後ガリウムシンチグラムを施行した。第12胸椎に集積を認めたが、胸郭および全身に集積は認めなかった。術前から二次的に前方固定術を施行する予定を患者にも説明していたが愁訴消失のため、追加手術を希望されず、経過をみることになった。

術後7ヵ月時の X-P (図4上) および CT (図4中) の画像所見では第12胸椎の骨硬化が認められ、MRI (図4下) では脊髓の圧排は除去されており椎体の高さ低下および後弯変形も軽度に認められた。

術後3年時画像所見では X-P では椎体高の低下は著明であったが骨硬化が認められた (図5)。MRI でも脊髓圧排もなく、信号強度もほぼ正常であった後弯変形も進行していなかった。

### 考 察

骨好酸球性肉芽腫は histiocytosis X のうち骨に限局したものと考えられており、若年者に好発する良性腫瘍である。鎖骨、脊椎、骨盤、大腿骨などに発症することが多く、その病因、病態については不明

表 脊椎好酸球性肉芽腫 成人発症例

1954	MGH	35 歳男性	Th11 body
1963	Gibson ら	33 歳男性	Th10, 11 bodies, pedicles
1969	Kaye ら	21 歳女性	L2 transverse process, body, parsinterarticularis
1981	Casson ら	58 歳女性	C5 body
1984	Sanchez ら	55 歳女性	C6, 7 bodies
1985	Martin ら	31 歳女性	C5, 6 pedicles
1987	Herring ら	20 歳男性	C2 body, odontoid
1988	Padovani ら	20 歳男性	Th12 lamina, pedicle, body
1988	Kanterewicz ら	38 歳女性	L1 body
1991	Dickinson ら	33 歳女性	C2 body, odontoid, pedicle
1992	Acciarri ら	44 歳男性	Th1 body, pedicle
1993	Johnson ら	29 歳男性	C2 spinous process
1994	Cardon ら	25 歳男性	L3 body
1995	Bilge ら	34 歳	L5
1995	Lauffenburger ら	35 歳女性	C3 body
1997	Castoldi ら	44 歳男性	L2
1999	Boutsen ら	36 歳男性	胸椎
1999	Duarte-Silva ら	42 歳男性	頸椎
2000	Reddy ら	47 歳男性	Th11 body
2002	Bartram ら	46 歳	頸椎

である。治療についても保存療法もしくは搔爬を施行するまでにとどめるか、さらに放射線および化学療法まで施行するか適応が問題となっている。

正岡ら<sup>1)</sup>は小児例を含む13症例のうち脊椎発症例を3例報告し、骨折を生じる危険性の高い症例を除いては生検をかねた搔爬で全例良好な経過を得て、放射線および化学療法を必要とした例はなかったと報告した。しかし寺内ら<sup>2)</sup>や薄井ら<sup>3)</sup>は小児例では多発性に骨好酸球性肉芽腫を認めた場合、腫瘍搔爬の後、放射線および化学療法まで施行することもあると報告している。

本症例では放射線療法は施行していないが、脊椎手術後に脊髓ショックを予防するために定期的に用いていた副腎皮質ステロイドを腫瘍搔爬と、一次的な後方固定術施行当日のみ用いた。術後、症状は軽快し、それ以降に放射線および化学療法などを追加することはなかった。

脊椎好酸球性肉芽腫における成人発症例は稀であり、現在まで1例報告が散見されているのみである (表)<sup>2)~10)</sup>。Reddy ら<sup>4)</sup>は自験例1例を加えた報告で、成人発症例では小児例で多くみられる扁平椎の形態をとるものは少ないと報告している。Lauffenburger ら<sup>5)</sup>は同様の報告に加え、成人例では椎弓、椎弓根の発症が多いことを報告している。本症例においても椎体、椎弓および椎弓根に病変を認めたが、扁平椎の形態は認めなかった。椎弓、椎弓根の病変が多く、

椎体が少ないとすれば扁平椎になりづらくなり，腰痛発症時期が遅れて成人になり発症するとも考えられる。

我々が渉猟しえた限りでは脊椎好酸球性肉芽腫成人発症例は海外での報告が多く，本邦での報告例は少ない。人種間の発症頻度に違いがあるのか否か，病因，病態と同様に不明である。本症例は我々が渉猟しえた現在までの報告例の中で最高齢発症にあたるものであった。

#### 結 語

64歳男性の第12胸椎に発生した好酸球性肉芽腫の1症例を報告した。初診時，転移性脊椎腫瘍と鑑別が困難な脊椎画像を呈した。搔爬と後方固定で良い経過が得られており，本症例では必ずしも侵襲の大きな徹底治療を必要としない良性の病態であることがうかがわれた。

#### 文 献

- 1) 正岡俊二，河合 章，井上 一ほか：当科における好酸球性肉芽腫の検討。中四整会誌 8 (2): 435-438, 1996
- 2) 寺内和樹，榑崎克之，楠田喜三郎ほか：好酸球性肉芽腫の5例—臨床病理学検討を中心に。整形外科 39: 71-75, 1988
- 3) 薄井正道，松野丈夫，小林三昌ほか：骨好酸球性肉芽腫について。臨整外 18: 591-599, 1983
- 4) Reddy PK, Vannemreddy PS, Nanda A: Eosinophilic granuloma of spine in adults: a case report and review of literature. Spinal Cord 38 (12): 766-768, 2000
- 5) Lauffenburger MD, Dull ST, Toselli R: Eosinophilic granuloma of the adult spine: a case report and review of the literature. J Spinal Disord 8 (3): 243-248, 1995
- 6) Dickinson LD, Farhat SM: Eosinophilic granuloma of the cervical spine. A case report and review of the literature. Surg Neurol 35 (1): 57-63, 1991
- 7) Castoldi G, Mariani C, Albisetti W: Osteoid osteoma and eosinophilic granuloma of the lumbar vertebral body. Chir Organi Mov 82 (2): 199-203, 1997
- 8) Duarte-Silva EB, Noujaim J el-K, Carnevale F: Cervical spine cord compression by eosinophilic granuloma. Case report. Arq Neuropsiquiatr 57 (2 B): 498-503, 1999
- 9) Boutsen Y, Esselinckx W, Delos M et al: Adult onset of multifocal eosinophilic granuloma of bone: a long-term follow-up with evaluation of various treatment options and spontaneous healing. Clin Rheumatol 18 (1): 69-73, 1999
- 10) Bertram C, Madert J, Eggers C: Eosinophilic granuloma of the cervical spine. Spine 27 (13): 1408-1413, 2002