

5 か月児の上位頸椎に発生した異所性骨化の1例

小張総合病院整形外科

吉井俊貴・江黒日出男

要旨 軟部組織の骨化ないし石灰化は、軟部腫瘍との鑑別を要し時に診断に難渋する。また、幼児の外傷性異所性骨化の報告は少ない。今回5か月児の上位頸椎に発生した外傷後の異所性骨化と思われる1例を経験したので報告する。症例は生後5か月の女児、頸部外傷3週後から急激な頸部の痛みで発症し、X線上C1~C2前方に骨化様の陰影を認めた。ギブスカラーにて局所の安静を図り経過を観察し、初診後2週にて頸部痛消失、4週にて骨化様陰影が退縮、3か月にてほぼ完全に消失した。その後特に問題なく経過し、発症後1年9か月後の現在、頸椎に異常を認めない。本症例は生検が困難なことから診断に難渋したが臨床経過、画像所見より外傷後の異所性骨化が疑われた。比較的早期に骨化様陰影が消失したことから、骨化が未成熟うちに吸収が始まったことが推察される。

はじめに

異所性骨化(化骨性筋炎)は主に外傷後におこり、四肢関節近傍に好発する。また時として骨軟部腫瘍との鑑別診断に難渋する。今回我々は、5か月児の上位頸椎前方に発症し比較的早期に吸収され消失した異所性骨化と思われる1例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症例 : 5か月児, 女児

主訴 : 頸部痛

家族歴・既往歴 : 正常分娩, 生下時特に問題なし

現病歴 : 2002年5月6日ソファから転落し頭頸部を打撲, 捻挫, 以後無症状で経過し, 受傷3週後から頸部を痛がり, 生後3か月ですわっていた頷がすわらなくなり, 5月28日当科初診となった。

・初診時所見 : 身長63.3cm, 体重8500g, 発育上特に問題なし。他動的な頸椎屈曲, 伸展, 回旋にて強く痛がるものの明らかな他動的可動域制限は認めなかった。明らかな神経学的異常所見も

認めなかった。

・血液生化学所見 : ALP 793 U/I(正常値180~762 U/I), その他特に異常なし。

・単純X線所見 : C1前弓上方に骨化様の陰影を認めた(図1)。

・CT所見 : C1右外側塊前内方~C2椎体右前方にかけて不均一な形状の巨大な腫瘤影を認めた。C1外側塊の左右非対称を認めた(図2)。

・MRI所見 : T2WIにて歯突起外前方に高信号領域の周囲に低信号領域が不均一に取り囲む腫瘤影を認めた。頸髄の圧迫はなかった(図3)。

臨床経過 : 5月29日, 外傷後の異所性骨化, 骨軟部腫瘍等が疑われ経過観察のため入院となった。入院中ギブスカラーにて局所の安静を図り経過を観察した。入院後2週にて頸部を痛がる様子がなくなり, 頷もすわるようになった。入院後4週にてCT上腫瘤影の退縮が認められたため(図4), ギブスカラーをはずし退院となった。退院後特に問題なく経過し, 初診3か月後のCTにて骨

Key words : heterotopic ossification (異所性骨化), 5 month old infant (5か月児), upper cervical spine (上位頸椎), trauma (外傷)

連絡先 : 〒411 0801 静岡県三島市谷田字藤久保 2276 三島社会保険病院整形外科 吉井俊貴 電話(055)975 3031
受付日 : 平成16年3月15日

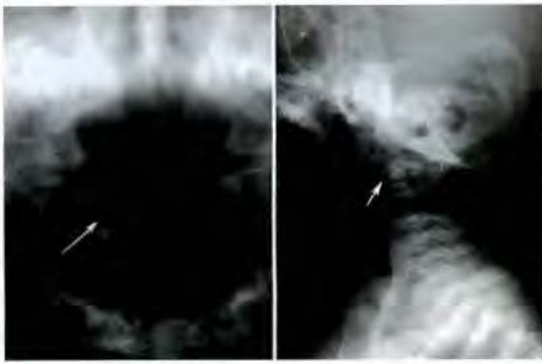


図 1. 初診時単純 X 線像
a : 開口位, b : 側面像

化様の陰影はほぼ消失した(図 5)。臨床経過、画像所見の推移より外傷後の異所性骨化と診断した。初診 1 年 9 か月後 X 線上特に骨の成長障害等認めず無症状で経過している(図 6)。

考 察

異所性骨化は主に外傷後におこり古典的には表 1 のように分類される⁶⁾。小児の場合、全身進行性の疾患である myositis ossificans progressiva⁹⁾ との鑑別が重要であるが、本症例ではこの疾患に特徴的である母指や母趾の変形、他の部位での骨化等は認めなかった。また、小児における外傷後の異所性骨化は Gindele²⁾により数例の報告があり、1 歳未満の幼児においては、Stephen⁷⁾による膝関節後方に異所性骨化をおこした 1 例の報告があるのみである。また外傷後の異所性骨化は四肢関節近傍に好発し、頸部に発生したという報告は少なく、小児の頸椎 傍に発生したという報告例は我々の渉猟しうる限りない。

異所性骨化の発生機序は明確ではないが、外傷等により筋肉や周辺軟部組織に出血がおこり、その部分にカルシウム(Ca)塩の沈着がおこって、異所性骨化の機転となるとされている。アルカリフォスファターゼ(ALP)が高値となる事が多く、エチドロネート(EHDP)の有効性が報告されている⁴⁾。X 線像の特徴は、腫瘤の成熟につれ、典型的には腫瘤の辺縁に石灰化が強く見られ、中心にいくほど濃度の減少がみられる(zoning pattern)。

軟部組織の石灰化は 3 つに大別できる(metastatic calcification, calcinosis, dystrophic cal-

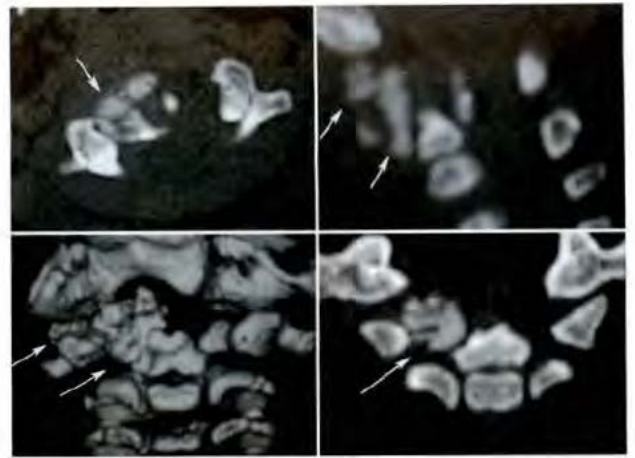


図 2. 初診時 CT 像
a : 水平断, b : 矢状断, c : 3 D, d : 冠状断



図 3. 初診時 MRI 像
a : T2 強調画像矢状断
b : T2 強調画像水平断

cification)⁵⁾ metastatic calcification は主に副甲状腺機能亢進症、ビタミン D 過剰摂取、ミルクアルカリ症候群等に代表される高 Ca 血症に続発し、軟部組織に Ca 塩が沈着する。calcinosis は主に膠原病等に伴い、皮膚、皮下組織を中心に石灰沈着を引き起こす。本症例においては、血中 Ca、PTH 濃度ともに正常範囲内であり、また calcinosis は石灰沈着の層が主に皮膚、皮下組織であるのでこの両者からは鑑別できる。dystrophic calcification は主に何らかの損傷を受けた組織に Ca の沈着をおこすもので、損傷された組織の代謝の低下により、CO₂ 産生の低下、組織内 pH の上昇がおこり、Ca 塩が沈着しやすくなる。動脈、静脈の石灰化、痛風、偽痛風、石灰沈着性腱炎等があり、外傷後の軟部組織石灰化も含まれる。外傷後の石灰化は、血腫がなかなか吸収されないとき、血腫に線維化が生じ、石灰沈着を引き起こす。この状態は異所性骨化の前段階でもあり、これにさ



図 4.
初診 4 週後 CT 像
a : 水平断, b : 矢状断

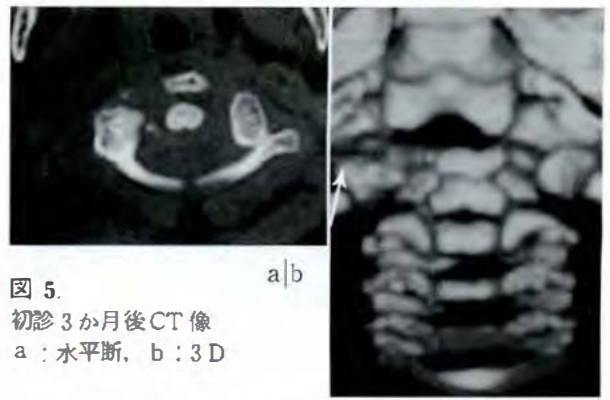


図 5.
初診 3 か月後 CT 像
a : 水平断, b : 3 D



図 6. 初診 1 年 9 か月後単純 X 線像 a|b
a : 開口位, b : 側面像

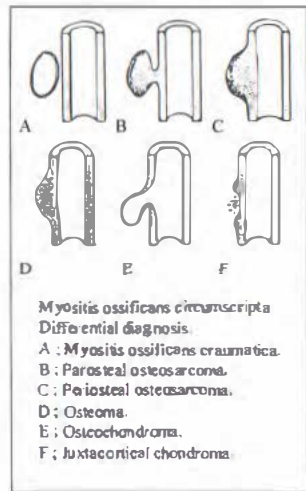


図 7.
文献 1 より引用

らに骨化の機転が動くことにより異所性骨化へと発展する。石灰化と骨化の違いは、石灰化は単に無構造に Ca 塩が沈着することで、それに対し骨化は骨構造、つまり骨皮質と骨髓腔が形成されることにより骨梁が認められる点にあり、典型的には前述のとおり画像上 zoning pattern を呈する。しかし骨化そのものが、Ca 塩の沈着から始まるとされており、骨化が未成熟な段階では骨構造を画

表 1. 異所性骨化の分類

I. Myositis ossificans progressiva (fibrositis ossificans progressiva)
II. Myositis ossificans circumscripta
A. Post-traumatic myositis ossificans (60~75%)
B. Myositis ossificans without history of prior trauma (25~40%)
1. Associated with systemic disease (paraplegia, tetanus, etc.)
2. Idiopathic : so called pseudomalignant osseous Tumor of soft tissue (Fine and Stout)

(文献 6 から引用)

像上認識するのは困難であり、石灰化と骨化の画像上の鑑別が困難なこともある。本症例においては初診時の CT 上明確な zoning pattern は認めないものの、腫瘤は楕円球状で辺縁の density が強い傾向を認め、骨化の未成熟な段階という印象を持つ。また異所性骨化は、時として傍骨性骨肉腫、骨軟骨腫、滑膜性肉腫等の骨化、石灰化を伴う骨軟部腫瘍との画像上の鑑別を要する。異所性骨化においては骨との間にバンド状の透亮像を有する点で鑑別が可能である(図 7)¹⁾。本症例においては CT 上、骨との間に透亮像を有し、また骨化様陰影が吸収される経過をとったことから、それらの骨軟部腫瘍は否定でき、外傷後の異所性骨化と診断した。腫瘤の吸収されたあとの CT 像では C1 右外側塊が左側に比しやや低形成であり、急激に成長した腫瘤に圧排されていた可能性、受傷時に右外側塊が圧迫骨折した可能性等が考えられる。

外傷後の異所性骨化は、通常外傷後 2~4 週で骨化陰影が出現しこの間急激な痛みを伴う。受傷後数か月で骨化が成熟すると痛みは鎮静化し、その後退縮することが多いが、遺残するものもある。

また若年者では、骨化が未成熟なうちに吸収が始まり早期に退縮することもあり、受傷後2か月で吸収されたという報告もある⁸⁾。本症例においても、受傷後2か月で腫瘍が退縮し始め、4か月で完全に吸収された。通常よりかなり早い経過をとった点から幼児ならではの活発な代謝が示唆され、画像上からも骨化が未成熟なうちに吸収が始まり、早期に腫瘍が退縮したことが推察される。本症例では腫瘍が5か月児の上頸椎椎前方に発生したことから生検困難であり、類似した症例の報告もないことから診断に難渋したが、画像所見、臨床経過より外傷後の異所性骨化と考え保存的に観察し、良好な経過をとった。

まとめ

1) 頸部の外傷から数週後に急激な痛みで発症し、上頸椎椎前方にX線で骨化様の腫瘍影を認めた5か月児の1例を経験した。

2) 画像所見、臨床経過より外傷後の異所性骨化が疑われた。

3) 腫瘍は受傷後4か月で消失し、1年9か月を経過した現在、無症状で経過良好である。

文献

- 1) Black AS, Kanat IO : A review of soft tissue calcifications. *J Foot Surg* 24(4) : 243-250, 1985.
- 2) Gindele A, Schwamborn D, Tsironis K et al : Myositis ossificans traumatica in young children : report of three cases and review of the literature. *Pediatr Radiol* 30 : 451-459, 2000.
- 3) Mahboubi S, Glaser DL, Shore EM et al : Fibrodysplasia ossificans progressiva. *Pediatr Radiol* 31 : 307-314, 2001.
- 4) 峰越美和 : 異所性骨化. *THE BONE* 7 : 93-100, 1993.
- 5) 大中恭夫, 游 逸明, 木上祐輔ほか : 異所性骨化症. *THE BONE* 8 : 127-132, 1994.
- 6) Schajowicz F : Myositis Ossificans (Heterotopic Ossification) Tumors and Tumorlike Lesions of Bone and Joints. by Springer-Verlag New York Inc. 490-498, 1981.
- 7) Stephen A, Heifetz MD, Carlos A et al : Myositis (fasciitis) ossificans in an infant. *Pediatr Pathol* 12 : 223-229, 1992.
- 8) Thompson III HC, Garcia A : Myositis Ossificans : Aftermath of Elbow Injuries. *Clin Orthop* 50 : 129-134, 1967.

Abstract

Heterotopic Ossification in the Upper Cervical Spine in a 5 month old Infant : A Case Report

Toshitaka Yoshii, M. D., et al.

Department of Orthopaedic Surgery, Kobari General Hospital

The diagnosis of ossification or calcification in soft tissue is sometimes difficult to differentiate from a malignant osseous tumor in the soft tissue. Heterotopic ossification has been rarely reported in infants. Here we report a case of a 5 month old infant with heterotopic ossification in the upper cervical spine. She presented acute neck pain for 3 weeks after trauma to the cervical spine. A bony mass was observed in the anterior upper cervical spine on X rays. With immobilization using a neck collar, the neck pain had disappeared at 2 weeks later. The bony mass was regressed at 4 weeks later, and had disappeared completely at 3 months later. No symptoms and no abnormality in the cervical spine were observed at 1 year and 9 months later. Although the final diagnosis was difficult in this case, because needle biopsy was impossible, heterotopic ossification was concluded according to the clinical history and radiological findings. In this case, the early disappearance in the bony mass was attributed to resorption before the maturity of the ossification.