

## 当科における小児骨腫瘍症例の検討

愛媛大学大学院医学系研究科運動器学

藤 潤 剛 次・木 谷 彰 岐・中 村 篤 志

中 田 浩 史・三 浦 裕 正

**要 旨** 1999年4月から2011年3月の間に当科を受診し加療を行った15歳以下の骨腫瘍および骨腫瘍類似疾患、骨腫瘍疑いも含む69例について、その傾向と診断に関する問題点につき考察を行った。全骨軟部腫瘍のうち骨腫瘍が占める割合は成人27.0%に対し小児67.0%であった。頻度が高かったものは順に骨軟骨腫30.4%、単発性骨嚢腫15.9%、多発性骨軟骨腫11.6%、骨肉腫11.6%の順、また、全症例のうち小児が占める割合が多かったものは多発性骨軟骨腫66.7%、単発性骨嚢腫47.8%、骨軟骨腫43.8%であった。初発症状は単発性骨嚢腫、骨肉腫では疼痛の訴えが多く、骨軟骨腫では腫瘤の訴えが多かった。骨腫瘍や骨腫瘍類似疾患は小児期を中心に発症するものが多い。骨軟骨腫や単発性骨嚢腫など頻度の高い腫瘍、小児例の占める割合の大きい腫瘍は画像所見や臨床症状などに特徴をもつものが多かったが、一方、稀な疾患や、良悪性の鑑別が困難な症例も存在し注意が必要であると考えられた。

### はじめに

骨腫瘍や骨腫瘍類似疾患(以下、骨腫瘍性疾患)は小児期を中心に発症するものが多い。この中には悪性疾患も含まれており、その場合には早期に適切な診断を行い、治療計画を立てることが重要である。小児骨腫瘍性疾患の診断を進めるうえで、その頻度や臨床所見の特徴を知ることが有用であると考えられるが、日本整形外科学会骨軟部腫瘍委員会による全国骨腫瘍患者登録一覧表などの資料は存在するものの、発症の傾向や臨床所見に関する報告は多くはないのが現状である。このため、今回我々は当科において加療を行った症例に関して調査、検討を行った。

### 目 的

当科における小児骨腫瘍性疾患症例についてそ

の傾向と臨床所見を調査し、成人例との比較も行いながら、小児例骨腫瘍症例の統計学的特徴、また、診断に関する問題点について考察を行うこと。

### 対象と方法

対象は1999年4月から2011年3月に当院にて治療を行った15歳以下の原発性骨腫瘍、骨腫瘍類似疾患、骨腫瘍疑いも含む骨腫瘍性疾患の症例。対照として成人骨腫瘍性疾患症例、軟部腫瘍症例の調査も行った。症例は入院台帳より抽出し、各症例のカルテ、画像より初発症状、部位、病理学的診断について調査を行った。症例数は69例(0~15歳、平均10.3歳)、これに対し成人例は245例(16~92歳、平均44.8歳)、軟部腫瘍症例は552例(2~91歳、平均54.0歳)であった。

Key words : bone tumors(骨腫瘍), children(小児)

連絡先 : 〒791-0295 愛媛県東温市志津川 愛媛大学大学院医学系研究科運動器学 藤潤剛次 電話(089)960-5343

受付日 : 平成24年2月22日

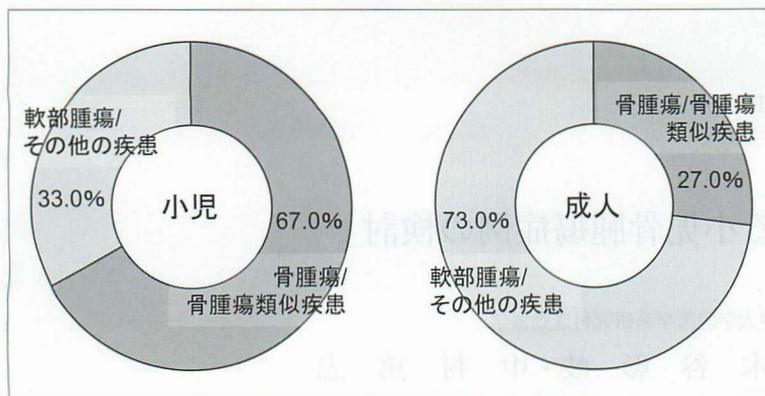


図 1. 小児，成人における骨腫瘍性疾患の割合  
成人に比べ小児では骨腫瘍性疾患の占める割合が高い。

小児例	症例数(%)	成人例	症例数(%)
骨軟骨腫	21(30.4%)	転移性骨腫瘍	39(15.9%)
単発性骨嚢腫	11(15.9%)	内軟骨腫	34(13.9%)
多発性骨軟骨腫症	8(11.6%)	骨巨細胞腫	28(11.4%)
骨肉腫	8(11.6%)	骨軟骨腫	27(11.0%)
類骨骨腫	4(5.8%)	軟骨肉腫	18(7.3%)
骨髄炎	4(5.8%)	骨肉腫	13(5.3%)
線維性骨異形成	3(4.3%)	単発性骨嚢腫	12(4.9%)
その他	10(14.5%)	その他	74(30.2%)
合計	69(100%)	合計	245(100%)

表 1. 小児，成人における骨腫瘍性疾患の診断名

## 結 果

### 1. 小児における骨腫瘍性疾患の割合

小児では成人と比較すると骨腫瘍性疾患の占める割合は高かった(図1)。

### 2. 小児に多い骨腫瘍性疾患

小児骨腫瘍性疾患のうち最多であったものは骨軟骨腫，続いて単発性骨嚢腫，多発性骨軟骨腫症，骨肉腫の順であった。これに対し，成人では転移性骨腫瘍が最多であり，内軟骨腫，骨巨細胞腫，骨軟骨腫，軟骨肉腫の順であった(表1)。

### 3. 発症年齢

小児に多い骨腫瘍性疾患の初診時年齢をみると，多発性骨軟骨腫症や単発性骨嚢腫では発症年齢が比較的小児に偏っていたが，骨髄炎，骨肉腫などは15歳を超える症例も多数みられた(図2)。成人例も含めた全症例数のうち，小児が占める割合が多い腫瘍は多発性骨軟骨腫症，単発性骨嚢腫，骨軟骨腫，類骨骨腫などであり，逆に，内軟骨腫，骨巨細胞腫や軟骨肉腫，転移性骨腫瘍は小児では稀であった(図3)。

### 4. 初発症状

初診時の症状は成人，小児例ともに疼痛を主訴とする症例が最多であったが，小児では腫瘤を訴えた症例が比較的多く存在した(図4)。疾患別に初発症状をみると骨軟骨腫では腫瘤を，その他の疾患では疼痛を主訴とする症例が多く，単発性骨嚢腫では病的骨折の合併を，骨肉腫では疼痛に加え腫瘤や腫脹を主訴とする症例が多かった(図5)。

## 考 察

小児では骨腫瘍性疾患の占める割合が高く<sup>3)8)</sup>，疾患のスペクトラムも成人と比べると異なる。日本整形外科学会骨軟部腫瘍委員会による全国骨腫瘍登録一覧表<sup>5)</sup>，全国軟部腫瘍登録一覧表<sup>6)</sup>から算出すると15歳未満の症例全体に占める骨腫瘍性疾患の割合は77%に及ぶ。また，全骨腫瘍性疾患のうち42%が20歳未満に発生するが，実際にはもっと多くの割合を占めるであろう，との報告<sup>3)</sup>もある。当院における調査では，全骨軟部腫瘍症例のうち骨腫瘍性疾患の占める割合は成人では27.0%であったのに対し，15歳以下では67.0%

図 2.  
各疾患の初診時年齢

いずれも小児において症例数が多い疾患であるが、疾患により全年齢にわたって多い疾患と小児例に偏っている疾患とがみられる。

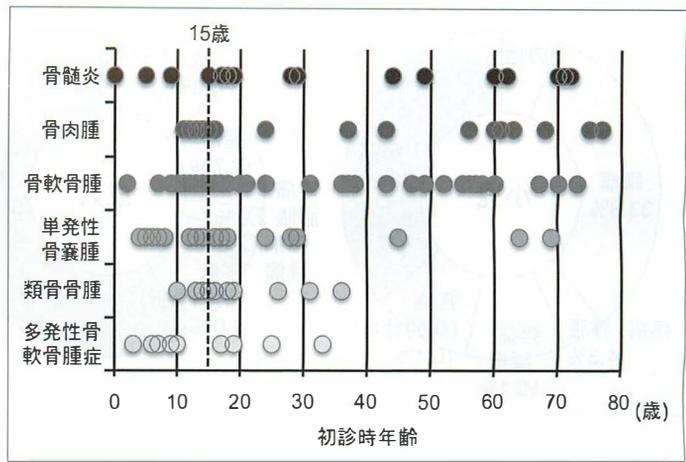
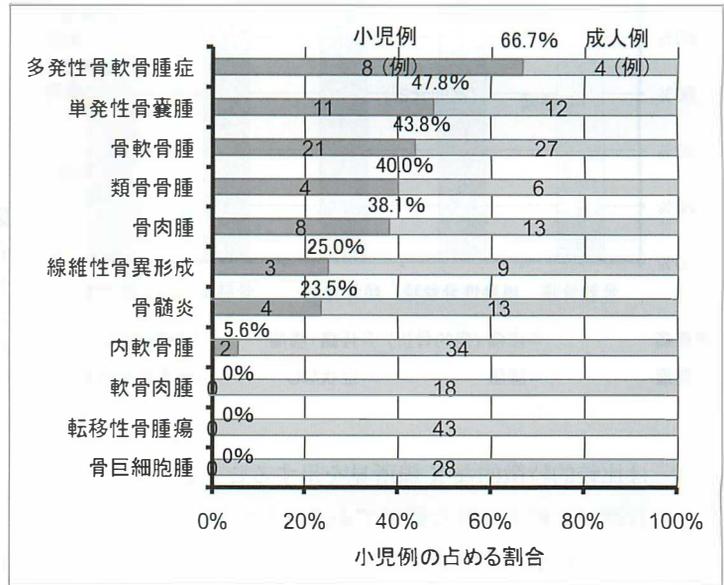


図 3.  
各疾患における小児例の占める割合

小児例の占める割合が高い疾患は多発性骨軟骨腫症、単発性骨嚢腫などであり、逆に軟骨肉腫、転移性骨腫瘍などの小児例はみられなかった。



であった。本調査からも小児では骨腫瘍性疾患の占める割合が高いことが示された。小児において症例数の多いものは骨軟骨腫、多発性骨軟骨腫症、単発性骨嚢腫、骨肉腫であり、小児例の占める割合が高いものは骨軟骨腫、多発性骨軟骨腫症、単発性骨嚢腫、類骨骨腫であった。これは過去の統計、報告<sup>15)</sup>と同じ傾向であった。この他に、統計的には小児例の占める割合が高い疾患として Langerhans 細胞肉芽腫症、非骨化性線維腫などが挙げられる<sup>15)</sup>。症例数の少なさによる偏りや、外科的治療を必要としない症例の存在により、今回の調査ではこれらの疾患の頻度がそれほど高くなかったものと思われる。

臨床症状の特徴として疼痛を初発症状とする症例が最多であった。一般的には骨腫瘍の初発症状

としては疼痛の訴えが多いとされている。単発性骨嚢腫や非骨化性線維腫など良性腫瘍の初発症状としては病的骨折による疼痛が多く、悪性腫瘍では徐々に増強する運動時痛や腫脹、腫瘤であることが多い。悪性腫瘍では病的骨折の頻度は低いとされている<sup>1)~3)</sup>。本研究でも単発性骨嚢腫では病的骨折の合併が比較的多く見られ、また、骨肉腫では疼痛とともに腫脹や腫瘤を訴える症例が多かった。加えて、小児骨腫瘍性疾患の初発症状として成人例と比較すると腫瘤を訴える症例が多く認められた。これは小児に頻度の高い疾患である骨軟骨腫では腫瘤を主訴とする症例が多いことが関連しているものと考えられた。

今回の調査で小児において症例数の多かった骨腫瘍性疾患のうち、骨軟骨腫、単発性骨嚢腫など

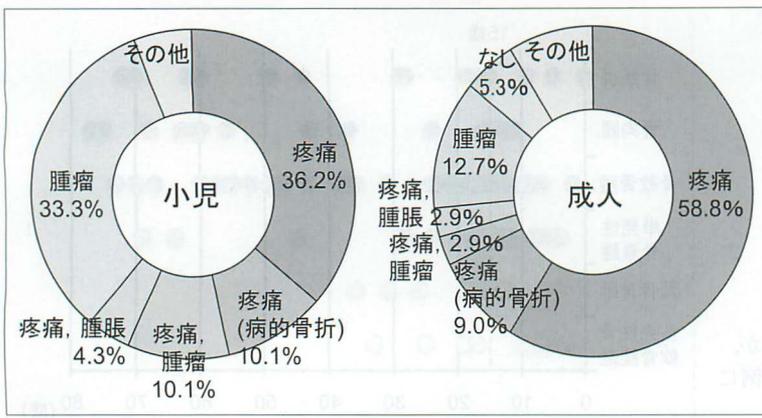


図 4. 小児，成人における骨腫瘍性疾患の初診時症状  
 成人，小児とも疼痛を主訴とすることが多いが，小児例では比較的腫瘍を主訴とする症例も多くみられた。

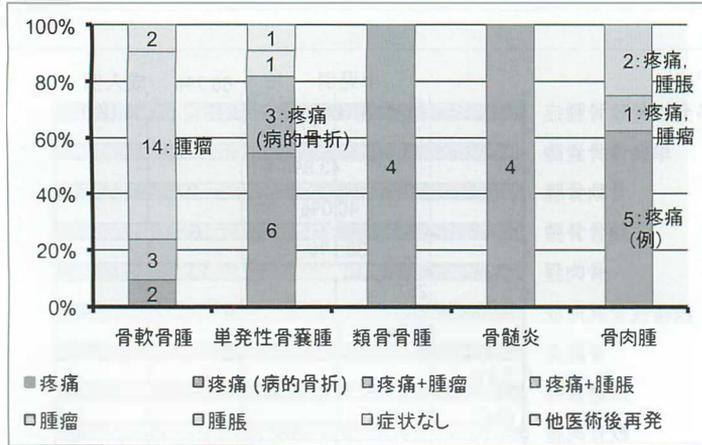


図 5. 各疾患の初診時症状  
 骨軟骨腫では腫瘍が，単発性骨嚢腫では病的骨折による疼痛が，骨肉腫では疼痛とともに腫脹や腫瘍を訴える症例がみられた。

は比較的特徴的な X 線所見を呈することが多く，診断が比較的容易な腫瘍である。しかし，その一方で，鑑別，診断が容易ではない病変，腫瘍も存在する<sup>3)</sup>。例えば，Langerhans 細胞肉芽腫症や骨髄炎とユーイング肉腫，疲労骨折と骨肉腫<sup>4)8)</sup>などは類似した像を呈し，その鑑別はしばしば困難なことが多い。ある報告では，骨腫瘍専門施設あるいは非専門施設にて診断された骨腫瘍症例に関して専門の委員会において症例の再検討を行ったところ，当初の診断が正しかった症例は全体の 60%のみであった<sup>7)</sup>，としており，小児骨腫瘍性疾患の診断確定の難しさを示している。今回の調査でも小児の悪性骨腫瘍として骨肉腫は最多であり，また，症例数はそれほど多くないものの骨髄炎や Langerhans 細胞肉芽腫症の症例は存在するため，これらの疾患の診断確定には慎重を要する。このように，小児骨腫瘍性疾患では画像所見，臨床所見に特徴のある腫瘍が比較的多く存在するが，鑑別が困難な疾患や症例数が少ない疾患もあり注意が必要であると考えられた。

## 結 論

- 1) 当科における小児骨腫瘍性疾患の症例について検討を行った。
- 2) 成人に比べると小児では骨腫瘍，骨腫瘍類似疾患の占める割合が高かった。
- 3) 小児において頻度の高い腫瘍，小児例の占める割合が高い腫瘍は骨軟骨腫，単発性骨嚢腫，骨肉腫などであった。
- 4) 初発症状は疼痛を主訴とするものが最多であった。小児では腫瘍を主訴とする症例の割合が成人と比較して多かった。
- 5) 画像所見，臨床所見に特徴のある腫瘍が比較的多かったが，鑑別が困難な症例もあり注意を要すると考えられた。

## 文 献

- 1) 別府保男：腫瘍性疾患，小児整形外科テキスト，日本整形外科学会教育研修委員会・編，メジカルビュー社，東京，p.216-224，2004。

- 2) Kenneth MY : Pediatric Bone Tumors. *Semin Surg Oncol* **16** : 173-183. 1999.
- 3) Mary RW : Evaluation of pediatric bone lesions. *Pediatr Radiol* **40** : 468-473. 2010.
- 4) McCarville MB : The child with bone pain : malignancies and mimickers. *Cancer Imaging* **9** : S115-S121. 2009.
- 5) 日本整形外科学会骨軟部腫瘍委員会 : 全国骨腫瘍登録一覧表. 国立がん研究センター, 東京, 2009.
- 6) 日本整形外科学会骨軟部腫瘍委員会 : 全国骨腫瘍登録一覧表. 国立がん研究センター, 東京, 2009.
- 7) van den Berg H, Slaar A, Kroon HM et al : Results of Diagnostic Review in Pediatric Bone Tumors and Tumorlike Lesions. *J Pediatr Orthop* **28** : 561-564. 2008.
- 8) 吉川秀樹 : 小児骨腫瘍の診断と治療. *日整会誌* **84** : 1142-1149. 2010.

## Abstract

### Bone Tumors in Childhood

Taketsugu Fujibuchi, M. D., et al.

Department of Bone and Joint Surgery, Ehime University Graduate School of Medicine

We report the incidence and type of bone tumors and suspected bone tumors seen in childhood, at our institution from 1999 to 2011. A total of 69 children at 15 years of age or younger presented a bone tumor, a tumor-like lesion, or a suspected bone tumor. We investigated their age at diagnosis, presenting symptoms, and pathological diagnosis. Among all musculoskeletal tumors, bone tumors account for about 67.0% in children, and only 27.0% in adults. In our 69 children, the tumor most frequently seen was osteochondroma in 30.4%, followed by solitary bone cyst in 15.9%, then multiple osteochondromatosis, and osteosarcoma. The tumor seen with highest incidence child-to-adult ratio was multiple osteochondromatosis at 66.7%, solitary bone cyst at 47.8%, and osteochondroma at 43.8%. The most common presenting symptom was pain in cases of solitary bone cyst and in cases of osteochondroma, and a painless mass in cases of osteochondroma. Clinical and radiographic findings of tumors that is frequently seen in childhood are typical, so improved awareness of the clinical and radiographic findings should help to prevent early misdiagnosis. On the other hand, there were some rare tumors and some tumors in which malignancy was difficult to diagnose.