

小児骨関節結核の2例

福山医療センター

宮本 正・松下 具敬

要旨 比較的まれな小児の骨関節結核を経験したので報告する。症例1: 2歳3か月の男児。誘因なく、左下肢の跛行が出現し、精査のため受診。下肢単純レントゲンで左踵骨に骨融解を認めた。左踵骨生検にて組織よりPCR法で結核菌を検出し、骨結核と診断した。その後、骨シンチにて全身に集積の亢進を認めた。クウォンティフェロンは陰性であったため多発性BCG骨髄炎と診断。術後はINH, RFP, PZAを内服し感染は沈静化した。症例2: 2歳6か月の男児。歩容異常と脚長差を主訴に紹介された。左膝関節CTで左脛骨の骨端と骨幹端に成長板を超えておよぶ骨溶解性病変を認めた。切開生検にて組織からPCR法にて結核菌を検出。クウォンティフェロン検査は陰性であり、BCG骨髄炎と考えられた。2回にわたり病巣搔爬術を施行し、抗結核薬にて感染は沈静化した。BCG骨髄炎の治療は病巣搔爬と多剤化学療法で良好な結果が得られている。早期の診断が重要であると考えられた。

はじめに

今回我々は比較的まれな小児の骨関節結核の2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1

2歳3か月の男児。主訴は左下肢の跛行。特に誘因なく10日前から突然左下肢を引きずって歩くようになり近医より精査目的で紹介された。既往歴は初診時には特記すべき事項は聴取できなかった。また、生後5か月でBCG接種を受けており、結核患者との接触はなかった。下肢単純X線像にて左踵骨に骨融解を認めたため入院した(図1)。

入院時、体温37.8℃。左下肢の跛行を認めるが同部に明らかな発赤腫脹は認めなかった。また、ツベルクリン反応は中等度陽性であった。血液検査所見ではCRP 20.16 mg/dl 白血球 15300/ μ lと

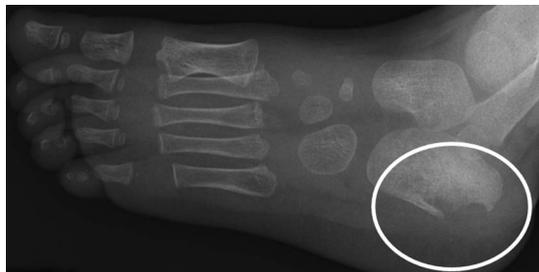


図1. 踵骨単純X線像。左踵骨に骨融解像を認めた。

炎症反応の上昇を認めたが、クウォンティフェロンは陰性で結核抗原も陰性であった。

CT矢状断では左踵骨に溶骨性変化がみられ、骨皮質も断裂。冠状断では左脛骨骨幹内に骨透瞭像を認めた(図2a, b)。左下腿MRIでは踵骨から脛骨骨幹部にかけてT1強調像で低信号、脂肪抑制像で高信号な不均一な信号変化を認めた(図3)。

原発性骨腫瘍や化膿性骨髄炎を疑い、入院3日目に左踵骨切開生検を行った。踵骨外壁はメスにて容易に切開でき、内部は柔らかい淡黄色の膿

Key words : tuberculous osteomyelitis(骨結核), infant(幼児), BCG osteomyelitis(BCG骨髄炎)

連絡先: 〒720-8520 広島県福山市沖野上町4-14-17 福山医療センター(勤務先) 宮本 正 電話(084)922-0001

受付日: 2016年1月18日



図2. CT. a: 踵骨矢状断. 踵骨内に溶骨性変化を認めた. b: 脛骨冠状断. 脛骨骨幹内に骨透瞭像を認めた.

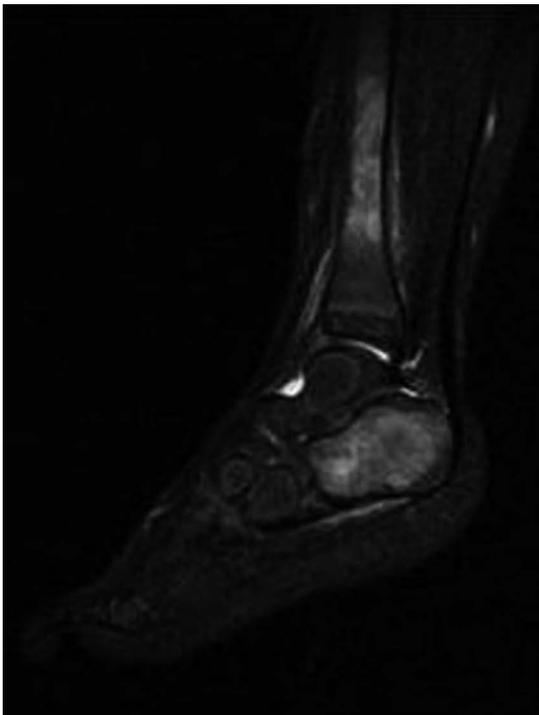


図3. MRI. 脂肪抑制像. 踵骨から脛骨骨幹内に不均一な信号変化を認めた.

様、粕様の肉芽組織が充満していた。内部を可及的に搔爬、洗浄し組織の一部を病理、培養に提出した。病理組織像は高度なリンパ球、好中球、組織球の浸潤がみられ、微小膿瘍を取り囲む肉芽腫形成が認められたが、明らかな結核像は観察されなかった。

組織培養検査はすべて陰性であったが、PCR法により結核菌を検出、これにより骨結核と診断した。その後の検査では菌株の同定はできなかった。その後骨結核の精査のため骨シンチを施行。前頭骨左側、右肩甲骨、両橈骨尺骨、右仙腸関節部、左踵骨など全身に集積の亢進を認めた(図4)。

患者は結核患者との接触がなく、結核感染で上昇するはずのクウォンティフェロンが陰性であったため、BCG接種による多発性骨髄炎と考えられた。

多発性骨結核と診断後、直ちにイソニアジド(INH)、リファンピシン(RFP)、ピラジナミド(PZA)の3剤併用投与を開始した。投与開始後

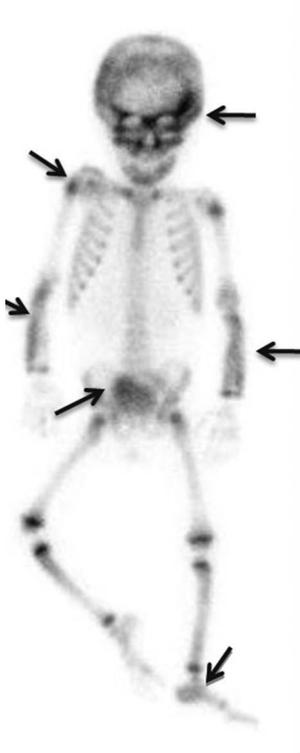


図4. 骨シンチ. 全身各所に集積の亢進を認めた.



図6. 脛骨単純X線像. 膝関節を中心に骨透亮像を認めた.



図5. 最終診察時単純X線像. 踵骨の骨形成を認める.

炎症反応は軽快し、感染は鎮静化した。

抗結核薬投与開始後3か月の現在、跛行は消失し単純X線像でも踵骨の骨形成を認め(図5)、歩行や運動に支障はない。症状の再燃がないか外来

で経過観察中である。

症例2

2歳6か月の男児。1か月前から左下肢を引きずって歩くようになり近医を受診。単純X線像にて左膝に骨透亮像を認められ精査目的で紹介となった。既往歴に特記事項なく、結核患者との接触もなかった。生後4か月時にBCG接種を施行されていた。

体温は38°、左膝には明らかな発赤腫脹はなかったが、圧痛を認めた。ツベルクリン反応は強陽性であった。左膝単純レントゲンにて骨幹端と骨端核に嚢胞性の骨透亮像を認めた(図6)。

CTでは脛骨の骨端と骨幹端に成長軟骨板を越えて及ぶ骨溶解性病変を認めた(図7)。

造影MRIでも左脛骨成長軟骨板を介して骨幹端に及ぶ病変が認められ、一部は内側骨皮質を越えて内側の軟部にも突出しており、炎症性変化が疑われた(図8)。



図7. 脛骨 CT. 脛骨の骨端と骨幹端に成長板を越えて及ぶ骨溶解性病変を認めた。



図8. 脛骨造影 MRI. 左脛骨成長板を介して骨幹端に及ぶ病変がみとめられ、一部は内側骨皮質を越えて内側の軟部にも突出していた。

血液検査所見では CRP 1.25 mg/dl と軽度上昇を認めたがクウォンティフェロンは陰性であった。切開生検を施行したところ、塗抹にてガフキー1号、PCR法、抗酸菌検査にて結核菌を検出し骨結核と診断。切開排膿骨搔把術を施行した。

その後の検査で左膝以外の結核病巣はなく、クウォンティフェロンも陰性であったため、単発性の BCG 骨髄炎と考えられた。また、後日遺伝子検査により BCG 株が検出された。診断後直ちに INH RFP PZA EB の投与を行い炎症反応は沈静化した。

しかし、術後2か月の造影 MRI で一部膿瘍の残存と腐骨の存在が疑われ、再度搔把術を行った。腐骨を搔把し持続洗浄チューブを留置、両下肢シーネ固定とした。

術後4か月の現在、骨形成は良好であり骨端線の閉鎖もない(図9)。跛行は消失しており、今後感染の再発や成長障害に対して厳重に経過観察を行っていく予定である。

考 察

厚生労働省によると BCG ワクチン接種による副反応は2011年度、約100万回接種されたうち全94件であり、そのうち骨炎は7件、全身性 BCG 感染症は1例であったと報告されている。また、小山らによると日本における BCG 骨髄炎発症のリスクは接種10万件に対して約0.2件と推測されており³⁾、極めてまれである。

BCG 骨炎の診断は、確定するためには菌株の同定が必要であるが、症例1では同定できず、症例2では同定可能であった。症例1では PCR 法にて結核が陽性であるにもかかわらずクウォンティフェロンが陰性であったことから、BCG 骨炎と診断した。BCG 接種から骨炎発生までの期間について、保科らは平均11か月(5~46か月)と報告しており²⁾、BCG 接種後、数年経過していても BCG 骨髄炎の発生に留意していなければな



図9. 最終診察時単純X線像. 骨形成は良好であり骨端線の閉鎖はない.

らないと考えた. 本症例はBCG接種後2年経過し発症していた. また, BCG骨炎はほとんどが単発例であり, 2例の多発例はいずれも免疫遺伝子異常のある患者であったと報告している¹⁾. 多発例では免疫遺伝子異常の存在を念頭に置いて診断することが重要と思われた. その後の検査の結果, 症例1の男児は本人, 父親, 父方祖母から同一の免疫遺伝子異常が発見された.

諸家の報告によると, 小児のBCG骨髄炎は四肢の長幹骨骨幹端に好発し単発に限局性の骨破壊を呈することが多いが, CRP値などの炎症反応が乏しく骨膜反応も弱い. 発赤, 腫脹, 疼痛などの所見が乏しく診断が困難であるとされている¹⁾⁵⁾⁶⁾. 本症例でも跛行はみられたが, 発赤, 腫

脹, 痛みなどの所見は軽度で診断は困難であった.

BCG骨炎の治療は抗結核薬に良く反応し予後は良好である. 病巣搔爬と12~18ヵ月の多剤化学療法で良好な結果が得られている¹⁾³⁾. またBCG骨髄炎の搔爬により骨端線が広範囲に障害を受けた例でも成長障害がなかったとの報告もあり⁴⁾, 早期の診断が重要で, そのために早期の抗酸菌培養と遺伝子検査の実施が重要であると考えられた.

結 論

- ・小児の骨関節結核を経験した.
- ・病巣搔爬と抗結核薬投与により良好な結果を得た.
- ・BCG接種後の骨髄炎が考えられた.
- ・好酸菌培養や遺伝子検査等による早期の診断が重要と思われた.

文献

- 1) Bergdahl S, Fellander M, Robertson B: BCG osteomyelitis, experience in the Stockholm region over the year 1961-1974. *J Bone Joint Surg* 58-B: 212-216, 1976.
- 2) 保科隆之, 高田英俊, 佐々木由佳ほか: BCG骨髄炎27例の検討. *小児感染免疫* 23-3: 227-232, 2011.
- 3) 小山 明, 戸井田一郎, 中田志津子: BCG接種後の骨炎. *結核* 84-3: 125-132, 2009.
- 4) Kozo O, Hideji K, Toshihiko Y et al: Long-term follow up of tuberculosis of the proximal part of the tibia involving the growth plate. A case report. *J Bone Joint Surg* 89-A: 399-403, 2007.
- 5) 上島篤史, 遠藤宏治, 岡野 徹ほか: 乳幼児に発症した骨関節結核の2例. *中四整会誌* 22: 167-171, 2010.
- 6) 山下倫徳, 木寺健一, 井上博文ほか: ウシ型結核菌(BCG)による骨結核の1例. *整外と災外* 51: 653-658, 2002.