

## Microgeodic Disease の4例

今井 弘子, 西下 淑文, 井上 猛, 渡辺 良

生検を施行した1例を含む4例の **microgeodic disease** を検討し報告した。指中節骨の X 線像所見では小円形透明像と骨皮質の硬化, 吸収像を認めた。骨髓の組織像ではわずかな小円形細胞浸潤をともなう幼弱な結合織の増殖が認められた。予後は一般に良好であるが, 1例の中節骨に山形の骨端線いわゆる “**cone-shaped epiphysis**” を認め, 中節骨は短縮し骨幅は増大していた。したがって治療はたんに経過観察のみならず, 時には副子固定による関節の安静や **splintage** が必要と思われる。(昭和63年3月31日採用)

### Four Cases of Microgeodic Disease

Hiroko Imai, Yoshifumi Nishishita, Takeshi Inoue and Ryo Watanabe

Four cases of microgeodic disease including a case with open biopsy, were reported. Radiographs of the phalanges showed small lacunae (micro geode), and sclerotic and lytic changes of the cortical bone. Biopsy of the bone marrow showed scattered small round cell infiltration and an increase in poorly proliferated connective tissue. The prognoses were good, with the expectation of one case with residual deformities, including cone-shaped epiphysis and shortening of the phalangeal bone. It is suggested that splintage of the fingers is occasionally needed to prevent deformities. (Accepted on March 31, 1988) *Kawasaki Igakkaiishi* 14(3): 494-497, 1988

**Key Words** ① Sclerotic and lytic change ② Micro geode  
③ Cone-shaped epiphysis

#### はじめに

microgeodic disease は小児の手指骨に誘因なく腫脹, 発赤, 疼痛が出現し, いわゆる “しもやけ” 症状を呈する疾患である。X線所見では特徴的な小円形透明像や骨破壊吸収像を示す。1969年 Maroutheaux が報告して以来<sup>1)</sup> 本邦でも100例が報告されている。<sup>2)</sup> 自然緩解するものがほとんどであるが, 最近後遺症を残す予後不良な症例も報告されている。我々は骨生

検を施行した1例を含む4例を経験したので文献的考察を加えて報告する。

#### 症 例

<症例1> 7歳, 男子

家族歴: 祖母に “しもやけ”

既往歴: “しもやけ” の既往がある。

現病歴: 1月中旬に右示指中節の腫脹に気付くも放置する。1ヵ月後には左示指, 小指にも

腫脹が出現したため小児科に入院となる。

一般検査所見：末梢血検査では赤血球  $420 \times 10^4/\mu\text{l}$ ，白血球  $4200/\mu\text{l}$ （好中球 45%，リンパ球 45%，単核 8%，好酸球 1%），ヘマトクリット 35.9%，ヘモグロビン 12.2 g/dl，血小板  $28.1 \times 10^4/\mu\text{l}$  とリンパ球と単核球の軽度増加を認めた。赤沈は1時間値 12 と正常，血液生化学検査では異常を認めなかった。ASLO 値は 320 と上昇していた。

軟線撮影像所見：前後画像では右示指および左示指，小指中節骨に小円形透明像を認めた。側面像では3指ともに背側骨皮質の硬化と，掌側骨皮質の硬化と吸収像の混在を認めた (Fig. 1)。

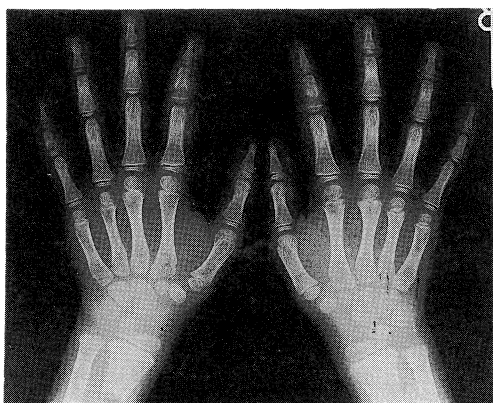


Fig. 1. Case 1. A-P view shows small lacunae in the phalangeal bones of the right index finger, the left index and little fingers.

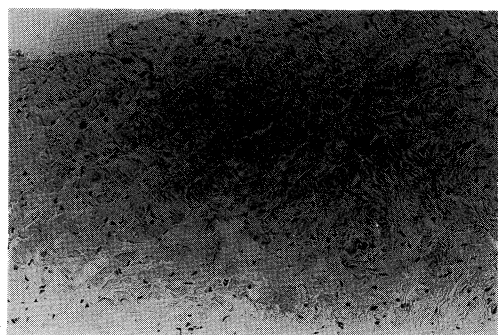


Fig. 2. Bone marrow shows scattered small round cells infiltration and increase of poorly proliferated connective tissues (HE,  $\times 200$ ).

骨髓炎との鑑別のために左示指中節骨の骨生検を施行した。骨皮質は硬く骨髓は砂状を呈していたが，色調の変化はなく感染を思わせる所見はなかった。

組織像では骨髓は幼弱な結合織で占められ，わずかに小円形細胞浸潤が認められた (Fig. 2)。あきらかな炎症所見は認められなかった。

<症例 2> 7歳，男子

家族歴および既往歴：特記すべきことなし

現病歴：2月に右示指中節の腫脹と疼痛が，右中指，左示指に発赤が出現した。

一般検査所見：特に異常を認めなかった。

単純X線像所見：正面像では右示指中節骨の骨幅は増大し，骨幹端部は辺縁不整となり (Fig. 3)，側面像では背側掌側骨皮質ともに硬化を認めた (Fig. 4)。



Fig. 3. Case 2. A-P view shows irregularity in the metaphysis in the right phalangeal bone.

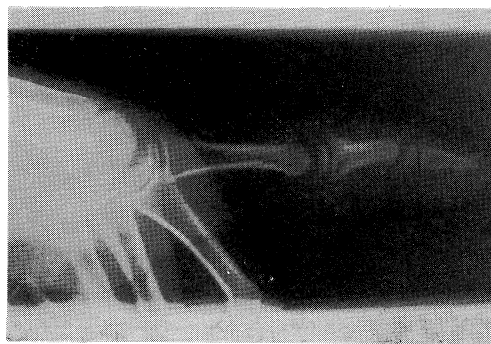


Fig. 4. Lateral view shows sclerotic and lytic change in the cortical bone.

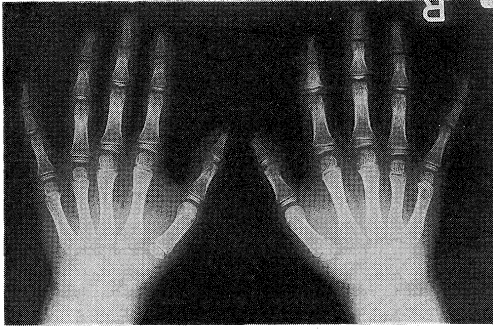


Fig. 5. After 6M. The phalangeal bone shortens and widens. Cone-shaped epiphysis is seen.

臨床経過: 1カ月後発赤は消失したが6カ月後腫脹はまだ残っていた。X線像では右示指中節骨の長径は短縮し、epiphysisは山型となり cone-shaped epiphysis を呈していた (Fig. 5)。

#### <症例3> 12歳, 男子

家族歴および既往歴: 特記すべきことなし

現病歴: 3月に右中指中節の腫脹と発赤が出現した。

一般検査所見: 特に異常を認めなかった。

単純X線像所見: 正面像では右中指中節骨の骨幹端部に辺縁不整を、側面像では背側掌側骨皮質の硬化像を認めた。

臨床経過: 2カ月後には腫脹は消失し6カ月後も臨床症状なくX線像でも異常を認めない。

#### <症例4> 8歳, 男子

家族歴: 母, 祖母に“しもやけ”の既往歴がある。

現病歴: 12月に右示指中節と末節, 左示指および中指中節に発赤, 腫脹が出現した。

一般検査所見: 特に異常を認めない。

軟線撮影像所見: 骨硬化吸収像を認める。

臨床経過: 1カ月後臨床症状は消失しX線所見でも異常を認めない。

## 考 察

Maroutheauxは小児の手指に発赤, 腫脹, 熱感とわずかな疼痛が出現し, X線所見で small lacunae (小窩) を特徴とする原因不明の自然

緩解する疾患を“Microgeodic disease of unknown aetiology”として報告した。<sup>1)</sup> 現在原因としては, 比較的温暖な地方で春先に多く, 患児に遺伝傾向が強いとされる“しもやけ”の家族歴が多いことから, 遺伝的な末梢循環不全が基本にあり, 格差の大きい寒冷が患指に繰り返し負荷されて起こった微小循環機能失調の一つと考えられている。<sup>3), 4)</sup>

発症年齢は, 本邦は7~9歳が過半数を占めているのに対し欧米では1~2歳の幼児である。発症時期は, 本邦は12月から3月までで特に春先に集中しているのに対し欧米では夏に発症した例もあり特に一定していない。罹患部位は本邦では1側が多いが欧米では両側が多い。<sup>3)</sup> 手指中節骨に多いが, 足趾の報告例もある。<sup>5)</sup>

症状はいわゆる“しもやけ”症状を呈し腫脹が著明で発赤, 疼痛を伴う。血液一般検査では特に異常を認めないことが多い。X線検査所見では Maroutheaux が報告した小円形透明像 (geode=small cavity) が特徴的で microgeodic disease の由来となっているが, 本邦報告例では小円形透明像はあまり著明ではなく, 骨幹端部の辺縁蚕食像を伴う陰影の希薄化と骨皮質の硬化の混在を示すことが多い。そこで大塚らは骨幹端部辺縁不整型を Type 1 (類似型), 小円形透明巣型を Type 2 (microgeodic 型) と分類している。<sup>6)</sup>

生検例の病理組織所見では, 骨髄には非特異的幼弱結合織が増殖し, 小血管の新生や小円形細胞浸潤を認めることもあり, 骨皮質には骨新生や骨壊死を認める。<sup>5)-7)</sup> 大多数の症例は数カ月で自然緩解するが最近一部に障害を残す症例も報告されている。<sup>8), 9)</sup> 合併症, 残遺障害を松本ら<sup>5)</sup> は以下のように分類している。

1. 病的骨折
2. 短縮 (cone-shaped epiphysis)
3. 骨幅増大
4. DIP 関節の伸展障害, swann-neck 変形

病的骨折は, 症状が軽快した頃が最もX線像所見で骨病変が広範囲に及んでおり, 軽微な力でも骨折を起こす可能性があると考えられてい

る。短縮については、骨幹端部の硬化および山形の骨端線いわゆる“cone-shaped epiphysis”がみられ早期骨端線の閉鎖を来し長径の短縮を認める。骨幅の増大は比較的多くみられる。我々が経験した症例2では右示指中節骨の長径は12 mmで左側に比べて2 mm短縮し、最大骨幅は10 mmで左側に比べて1 mm長くなっている。一過性のDIP関節伸展障害の報告があるが、PIP関節病変部でlateral extensor tendonおよび周辺の軟部組織が何らかの障害を受け、力の伝導がterminal extensor tendonに十分に伝わらないためにDIP関節の伸展が障害されるのではないかと考えられている。swann-neck変形はこれに加えて骨端部での病的骨折によりPIP関節部での伸展が増強され、この変形が永続する結果と考えられている。したがって病変が骨幹端部にまで及び修復の遅れ

る症例では、単なる経過観察だけでなく、副子固定による関節の安静やsplintageが必要である。

鑑別診断は、炎症性疾患(osteomyelitis, tuberculosis dactylitis, syphilisなど)、腫瘍(類骨骨腫、好酸球性肉芽腫など)、侵蝕性変化(PVS, a. v-mallformationなど)、その他(os-sifying hematoma, fibromyositis ossificans, posttraumatic cystなど)が挙げられるが、本疾患の特徴的な臨床経過とX線所見から容易に鑑別できる。いわゆる“しもやけ”との鑑別は困難であるが、この疾患の存在を念頭において診療することが重要と思われる。

本論文の主旨は第19回中国四国整形外科学会(昭和61年11月22日)において発表した。

## 文 献

- 1) Marouteaux, P.: Cinq observations d'une affection microgéodique des phalanges du nourrisson d'étiologie inconnue. Societe Europeenne de Radiologie pediatrique 13: 229—236, 1969
- 2) 大野 司, 小林明正, 二見俊郎, 横関 淳, 塚本行男, 山本 貢: いわゆる microgeodic disease の6症例. 第35回東日本臨床整形外科学会抄録集 107, 1986
- 3) 井上五郎, 紫藤徹郎, 原田 敦: 双生児にみられた microgeodic disease. 臨整外 17: 1267—1271, 1982
- 4) 河原史朗, 嶋 良宗, 原田 基, 壇上茂人, 前田敏正: 凍宗に合併したと思われる小児指節骨の骨変化に付いて. 整形外科 33: 1767—1770, 1982
- 5) 松本吉隆, 天野寿男, 平野信夫, 山中三知夫, 日浅浩成: Microgeodic disease の5例. 中部日整災外会誌 28: 1642—1645, 1985
- 6) 大塚隆信: Microgeodic disease と類似疾患. 整外と災外 24: 383—388, 1981
- 7) 杉浦 勲, 杉浦 皓, 米田 実: Transient phalangeal osteopathy in children (microgeodic disease). 整外と災外 28: 754—755, 1985
- 8) Carrea, G. F., Franklin, K. and Lawrence, F.: Radiographic changes in the hands following childhood frostbite injury. Skeletal Radiol. 6: 33—37, 1981
- 9) 河原史朗, 岡 正孝, 木下裕文: Microgeodic disease の予後(骨端線早期閉鎖を来した症例を中心に). 整外と災外 28: 756—759, 1985