

AMCoR

Asahikawa Medical University Repository <http://amcor.asahikawa-med.ac.jp/>

ペインクリニック (1987.06) 8巻3号:371～374.

掌蹠膿疱症を合併した胸鎖肋骨肥厚症による難治性前胸部痛に対する疼痛管理の経験

岩崎 寛、並木昭義、高橋俊彦、太田孝一、塚本哲夫、高橋長雄

掌蹠膿疱症を合併した胸鎖肋骨肥厚症による 難治性前胸部痛に対する疼痛管理の経験

症例報告

Clinical Report

岩崎 寛 並木昭義
高橋俊彦 太田孝一
塚本哲夫 高橋長雄
札幌医科大学麻酔学教室

要 旨

掌蹠膿疱症を合併した胸鎖肋骨肥厚症による難治性前胸部痛を呈した1症例の治療経過を報告した。本症例は43歳の男性で、扁桃摘出術により掌蹠膿疱症は約6カ月後にはほぼ消失したが、胸鎖肋骨肥厚症による前胸部痛は数年にわたり持続し、各種の鎮痛薬は無効でペインクリニック科受診となった。前胸部痛に対して、持続硬膜外ブロックおよび圧痛著明な胸鎖肋関節部への局所ブロックにて疼痛の緩和を得ることができた。胸骨、胸肋鎖骨部および前胸壁の疼痛、腫脹を伴い、X線写真上で同部位の特異な骨化像を呈する胸鎖肋骨肥厚症を報告するとともに、その疼痛管理について言及した。

(ペインクリニック 8:371-374, 1987)

索引用語：掌蹠膿疱症，胸鎖肋骨肥厚症，神経ブロック

胸骨、胸肋鎖骨部および前胸壁の疼痛、腫脹を伴い、X線写真上で胸肋鎖骨部を中心に特異な異常骨化像を呈する疾患は、掌蹠膿疱症 (pustulosis palmaris et plantaris ; 以下 PPP と略す) を高率に合併し、胸鎖肋骨肥厚症¹⁾、胸肋鎖関節炎²⁾、Sterno-Kosto-Klavikuläre Hyperostose (SKKH)³⁾ などの名称で報告されている。

この疾患は、整形外科領域で最近注目され、その報告は増加しているがペインクリニック領域での報告は見当たらない。

今回、著者らは、前胸部および肩甲部の難治性頭痛を主訴とする PPP 合併の胸鎖肋骨肥厚症の疼痛管理を経験したので文献的考察を加えて報告する。

Management of persistent fore-chest pain caused by sterno-cost-clavicular hyperostosis with pustulosis palmaris et plantaris

Hiroshi Iwasaki, et al.

Department of Anesthesiology, Sapporo Medical College

I 症 例

患者：43歳，男性。

主訴：前胸壁疼痛・腫脹，右肩甲部痛。

既往歴：急性虫垂炎（15歳時）。

家族歴：特記すべきことはない。

現病歴：昭和58年11月、特に誘因なく前胸部全体の疼痛を自覚し、同時に両側手掌に膿疱状の皮疹が出現した。1～2カ月で膿疱疹は手掌ばかりでなく、両側足蹠にも多数密生するようになった。また、右肩甲部痛も自覚し、前胸部痛はその程度を増し、呼吸運動や軽い労作時のみならず安静時にも出現し、夜間睡眠をも妨げるほどであった。近医にて肋間神経痛との診断で鎮痛薬を主とする内服治療を受けていたが、症状の軽快を認めなかった。前胸部痛の増悪とともに両側手掌、足蹠の膿疱疹も悪化し、皮膚以外の爪の変形をも認めるようになった。昭和59年1月、皮膚科にて両側手掌、足蹠の膿疱疹は掌蹠膿疱症 (PPP) と診

断され、昭和59年8月、前胸部痛およびPPPが扁桃の病巣感染の結果である可能性を指摘され、両側扁桃摘出術を受けた。このとき扁桃の大きさは正常で、各種の扁桃誘発試験も陰性であった。PPPによる膿疱疹は、扁桃摘出術後約6カ月ではほとんど消失したが、疼痛は依然として残存し、日常的な体動も不自由になり、ベッド上で安静を保つという状態であった。昭和60年1月ごろ、ブレドニゾン40~50mg/day内服が疼痛に一時著効を示したが、減量すると疼痛も再燃した。昭和61年2月に前胸部痛とともに同部位の腫脹、膨隆が著明となり、X線写真所見より胸鎖肋骨肥厚症と診断された。各種鎮痛薬内服も効果なく昭和61年4月疼痛管理の目的で当科入院となった。

入院時所見：体格中等度、栄養状態良好で血圧、体温、姿勢に特異な所見なく、触知するリンパ節腫脹も認めなかった。しかし、両側胸鎖関節の可動性はなく、同部位から鎖骨中央、胸骨に骨性の腫瘤を認め、両側肋軟骨部の圧痛は著明であったが、局所の発赤、熱感はなかった。右肩甲骨痛のため右肩関節挙上障害を認めるが、脊椎の可動性は正常で仙腸関節にも疼痛はなかった。

X線写真所見：胸骨柄部体部間関節（manubriosternal joint；以下MS関節と略す）に帯状の著明な骨硬化像を認めた。特に第1肋骨と胸骨は関

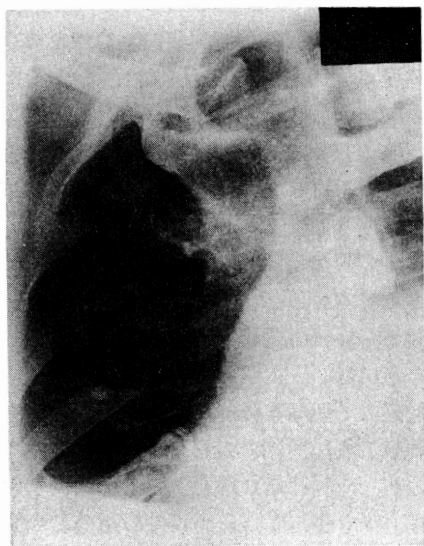


写真1
右側胸肋鎖骨関節部X線所見。

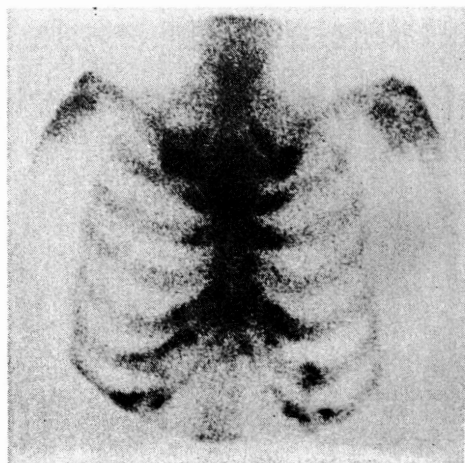


写真2
骨シンチグラム所見。

節腔が消失し、骨融合しており、両側の肋軟骨は認められず、瀰漫性の骨化像を示し肺門リンパ節は石灰化していた（写真1）。

骨シンチグラム所見：^{99m}Tcによるシンチグラム所見では、MS関節、胸鎖関節部および肋軟骨部など、疼痛部位に一致して異常集積像を認めた（写真2）。

臨床検査所見：軽度の白血球増加（8,900）、赤沈値亢進（104/1h, 154/2h）、CRP3（+）と炎症性所見を示す以外には、IgM値の軽度上昇（123mg/dl）を認めるのみで、血清電解質に異常はなくRA（±）であった。

治療経過：初診時C₇-Th₁より硬膜外腔に0.5%メピバカイン6mlを注入すると、直後より15~20分間にわたり前胸部の軽い熱感が出現し、その後6~8時間、安静時痛の軽減効果が認められた。入院後は、持続硬膜外ブロックとし、0.125~0.25%プピバカイン6ml、3~5回/dayの注入を行った。同時に非ステロイド性消炎鎮痛薬の内服、カルシトニン製剤の筋注を併用した。持続硬膜外ブロック開始約1週間後には安静時および夜間の疼痛は軽快したが、運動時痛は依然として残存し、特に起床直後が強かった。約1カ月後には、硬膜外薬液注入を中止しても疼痛の増強を認めなかったため退院した。軽作業にて自宅療養していたが、約2週間後より安静時痛が再燃し、夜間睡眠も不可能となり再入院となった。

硬膜外ブロックを再開すると、1～2週間で安静・夜間時疼痛は徐々に軽減した。さらに圧痛著明な胸骨第1・2肋骨関節部や右第6～10肋軟骨部に1～2%リドカイン1～2mlの局所注入を併用すると、同部位の疼痛は直後より著明に改善した。1～2回の局所ブロックにより1カ月以上に及ぶ鎮痛効果が得られた。現在は、安静時の疼痛や著明な圧痛・運動時痛は軽減し、前胸部、肩甲部に板状の圧迫感が残るものの自制可能となった。

しかし、CRPや赤沈値などから炎症所見が認められるので、非ステロイド性消炎鎮痛薬内服を継続し、自宅療養を行っている。

II 考 察

胸骨、肋骨、鎖骨に異常骨化をもたらし疾患は、1967年、佐々木ら⁴⁾が掌蹠膿疱症(PPP)を合併した両側鎖骨骨髓炎として報告したのが最初とされている。1974年、園崎ら⁵⁾は、鎖骨第1肋骨間に異常骨化を示す4症例を報告し、1975年、Köhlerら³⁾は、3症例で両鎖骨の紡錘状肥大と胸鎖関節部の強直を示す疾患をSterno-Kosto-Klavikuläre Hyperostoseとして、新しい疾患群であると提唱した。これによると、X線写真所見で両側ほぼ対称性に鎖骨内側部、第1肋骨、胸骨に紡錘状、雲架状の異常骨増殖骨化像を呈し、胸鎖関節の破壊、骨性融合が特徴的で骨シンチグラムで異常集積像を示す。検査所見では、赤沈値亢進以外に著変なく病理組織学的には非化膿性骨化性骨髓炎像であり、疼痛は緩解、増悪を繰り返しながら長期化すると記載されている。

最近、本疾患は1つの疾患群と考えられ、化膿性骨髓炎、結核菌や梅毒による骨炎、または骨髓炎、Paget病、強直性脊椎炎などとの鑑別が重要となる。本疾患は、靭帯炎、関節炎を主体とするenthesopathy型と骨の硬化、肥厚を主体とするhyperostosis型を示すものまで種々あり、いずれも互いに移行型がある。また、病変部位も上位胸肋鎖骨部ばかりでなく、下位胸部部、肩甲部、脊椎をも含め全身の骨関節にも及ぶものもあると報告されている^{1,2)}。

表 本症に対する症状のチェックポイント¹⁰⁾

- | | |
|----|--------------------------------|
| 1. | 前胸部の疼痛、腫脹あるいは膨隆 |
| 2. | 肩甲帯周辺部痛 |
| 3. | 異常骨化像 |
| 4. | RI集積像 |
| 5. | 赤沈値亢進、CRP値陽性、Al-P高値、免疫グロブリン値上昇 |
| 6. | 掌蹠膿疱症の合併 |
| 7. | 不定愁訴の存在 |
| 8. | 更年期女性に多い |

本疾患が手掌や足蹠に無菌性膿疱を生ずる原因不明の皮膚疾患であるPPPを高率に合併し、その消長が本症の症状と比較的一致するとの報告^{1,2,6)}や、感冒、扁桃炎がその発症に関連しているとの報告^{7,8)}があり、本態は、免疫学的異常を伴った病巣感染性疾患である可能性が指摘されている。一方、局所病巣より嫌気性菌などの証明により、細菌による日和見感染による骨髓炎であるとの報告⁹⁾もある。現在のところ本疾患の本態はまだ不明である。

さて本疾患は、胸骨、胸鎖肋部の疼痛、腫脹、膨隆などの自覚症状、X線写真で同部位の骨関節破壊像や異常骨増殖像、骨シンチグラムで異常集積像を認めた場合に診断され、外傷、腫瘍、RAなどの明らかな炎症性疾患は除外される。小島ら¹⁰⁾は、8項目の特徴的臨床像をあげ(表)、X線写真所見により胸鎖関節型、肋軟骨型、胸骨柄体部型、混合型の4型に分類¹¹⁾している。本症例は混合型に属すると考えられる。

本疾患の治療で確立したものはなく、対症的に疼痛の除去、軽減を主とし、拘縮や神経血管圧迫症状は重要な問題とはならない。疼痛に対しては通常、インドメサシン、フェニルブタゾンなどの非ステロイド性消炎鎮痛薬が投与される。これらの鎮痛薬内服が奏効しない例ではその後の治療に難渋すると報告されている¹⁰⁾。疼痛の予後を予測するのに初診時の愁訴の程度、局所の骨化像や血液炎症症候はあまり確実ではなく、骨シンチグラム所見は、本疾患の早期発見と病巣の活動性の判断に有用である。

各種の薬物療法にても頭痛が持続する場合には手術療法が考慮され、鎖骨や第1肋骨などの罹患

部の広範囲骨切除術や病巣感染巣除去の目的での扁桃摘出術が著効を示す症例も報告¹²⁾されているが、全例に有効ではなく適応もかぎられるようである。

著者らの症例では、扁桃摘出術が PPP には劇的な効果を示したが、疼痛には無効であった。この疼痛は前胸壁全体、右肩甲部と広範囲であるため、手術療法が適応であるとの考えには問題があるので、頸部硬膜外ブロックを施行した。このブロックは安静時痛のコントロールには著効を示したが、運動時痛、圧痛には奏効しなかった。この疼痛に対しては1~2%リドカイン1ml程度の少量の局所麻酔薬を圧痛局所に注入することが著効を示し、その効果が1カ月以上も持続した。この効果の機序は不明である。しかし、骨シンチグラムでの異常集積像の存在、CRP 値陽性、赤沈値亢進などの所見は入院後も緩解、増悪を繰り返し持続しているのも今後とも経過観察が必要であると思われる。

以上、掌蹠膿疱症を合併した前胸部、肩甲部の難治性頭痛を主訴とする胸鎖肋骨肥厚症に対して、持続硬膜外ブロック、局所ブロックで疼痛管理を行った症例を報告した。

参考文献

- 1) 安倍吉則, 船山完一, 岩井和夫, 他: 胸鎖肋骨肥厚症について—自験27例から—。整・災外 27: 749-753, 1984
- 2) 土屋 崇, 鈴木明夫, 望月宗範: 胸肋鎖関節炎の14症例。関節の外科 8: 65-70, 1980
- 3) Köhler H, Uehlinger E, Kutzner J, et al.: Sterno-Kosto-Klavikuläre Hyperostose. Dtsch Med Wochenschr 100: 1519-1523, 1975
- 4) 佐々木 正: 掌蹠膿疱症を伴った両鎖骨骨髄炎の症例。臨整外 2: 333-337, 1967
- 5) 園崎秀吉, 古沢清吉, 関 寛之, 他: 左右対称的に鎖骨と第一肋骨との間に骨化をみた4症例。関東整災誌 5: 244-247, 1974
- 6) 園崎秀吉, 東 晃, 岡井清士, 他: 掌蹠膿疱症に伴う骨-関節炎。リウマチ 20: 132-139, 1980
- 7) 梅谷芳雄, 小野多知夫, 五十嵐文雄, 他: 扁桃病巣感染と思われる胸肋鎖骨過形成症 (Sterno-Kosto-Klavikuläre Hyperostose) の2症例。日扁桃誌 19: 82-87, 1980
- 8) 喜多正鎮, 西崎博己, 江口正雄: 胸骨柄部硬化性骨髄炎について。臨整外 13: 235-242, 1978
- 9) 川上俊文, 豊島良太, 古瀬清夫, 他: いわゆるSterno-Kosto-Klavikuläre Hyperostose (Köhler) の成因とその病態について。臨整外 15: 650-658, 1980
- 10) 小島國利: いわゆる胸肋鎖骨異常骨化症の病態について。整・災外 25: 243-248, 1982
- 11) 小島國利: 胸肋骨異常骨化について。整・災外 23: 527-535, 1980
- 12) 加藤 正, 蒲原 宏, 星 栄一: 掌蹠膿疱症を伴った両側鎖骨骨髄炎の1例。整形外科 19: 590-593, 1968