

急性白血病に関連した小児化膿性肘関節炎の1例

上村 卓也 横井 卓哉
 大阪市立大学大学院医学研究科整形外科学

Elbow Septic Arthritis Associated with Pediatric Acute Leukemia; A Case Report

Takuya Uemura Takuya Yokoi

Department of Orthopaedic Surgery, Osaka City University Graduate School of Medicine

白血病は関節症状を初発として診断されることがある。ここで急性白血病に関連した小児化膿性肘関節炎の1例を報告する。症例は3歳男児。感冒症状と持続する発熱のため当院小児科に転院した。右肘関節に熱感・腫脹・発赤を認め、血液検査では炎症反応上昇・リンパ球数上昇・血小板減少を認めた。臨床経過と血液検査から急性白血病が疑われ、即日骨髄生検が施行された。MRIで肘関節液貯留を認めたため化膿性肘関節炎と診断し、同日緊急で切開排膿を行った。術後は3週間抗生剤を投与した。術後3日目に急性リンパ性白血病と診断が確定し、術後10日目から化学療法が開始された。術後1年3か月で右肘関節症状はなく、単純X線で肘関節の骨融解像もない。急性白血病に関連する関節症状として化膿性関節炎がある。ほとんどは股関節や膝関節であるが、まれに肘関節に発症する。小児の化膿性関節炎は緊急を要する疾患であるが、急性白血病の併存を考慮する必要がある。

【結 言】

小児の急性白血病は、関節痛や筋痛など全身に多彩な筋骨格系の症状を呈することが知られている¹⁻⁴⁾。これまで股関節や膝関節に、急性白血病に関連した化膿性関節炎が生じることも報告されている^{1,3,5)}。しかし、急性白血病に関連した化膿性肘関節炎は非常に稀である。また、化膿性肘関節炎の治療を行ってしばらく経過してから急性白血病の基礎疾患が判明するため、白血病に対する治療が遅れてしまう⁶⁻⁸⁾。今回われわれは、化膿性肘関節炎を合併し、早期治療が可能であった小児の急性リンパ性白血病の1例を経験したので報告する。

【症 例】

3歳男児。感冒症状と抗生剤投与でも改善しない発熱が2週間以上続き、血液検査で貧血と血小板減少を認めたため、急性白血病が疑われ近医から当院小児科へ転院となった。転院時に右肘関節の熱感・腫脹・発赤を認めたため、当科を紹介受診となった。既往歴に右肘内障の徒手整復歴があった。初診時の体温は38度、右肘関節に熱感・腫脹、発赤があり、正中に皮膚擦過傷を認めた(図1)。単純X線画像では関節面の不整像はなく明らかな骨端線損傷や骨融解像は認めなかった(図2)。MRI T2強調画像では肘関節内に関節液貯留を認めたが、股関節や膝関節には関節液貯留を認めなかった。血液検査ではCRP7.93mg/dL、血沈1時間値55mmと炎症反応の

上昇を認め、白血球4100/ μ L、リンパ球数は68.8%と増大し、少量の赤芽球を認めた。またヘモグロビン値は10.8g/dL、血小板は5万/ μ Lと貧血および血小板減少を認めた。臨床経過および血液検査所見から急性白血病が疑われ、また右肘については局所所見とMRI画像から化膿性肘関節炎と診断した。

急性白血病については診断確定のために、転院当日に骨髄生検が施行された。また化膿性肘関節炎については、同日緊急で全身麻酔下に切開排膿手術を行った。転院(術後)3日後に、骨髄生検の結果で急性リンパ性白血病と診断が確定した。このためできるだけ早期に化学療法を開始する必要があった。



図1 初診時右肘関節外観 (a: 正面, b: 側面)

Key words : leukemia (白血病), septic arthritis (化膿性関節炎), elbow (肘)

Address for reprints : Takuya Uemura, Department of Orthopaedic Surgery, Osaka City University Graduate School of Medicine, 1-4-3 Asahimachi Abeno-ku, Osaka 545-8585 Japan

この論文は既に掲載された論文である。(Elbow septic arthritis associated with pediatric acute leukemia: a case report and literature review. Eklem Hastalik Cerrahisi [Joint Diseases and Related Surgery]. 2015; 26: 171-4.)

現在、急性リンパ性白血病に対する早期治療法は、ステロイド投与による全身化学療法と脳や脊髄への転移を予防するためのメトトレキサート大量髄腔内投与による局所化学療法であるが、化膿性肘関節炎を合併しているため、感染が沈静化するまではこれらの先行化学療法は待機とした。切開排膿手術では、肘関節外側および後方の小切開から関節包切開を行ったところ赤褐色の関節液が排出され、この関節液を培養検査に提出した。十分に生理食塩水で関節洗浄を行い、閉鎖型吸引ドレーンを留置してギプス固定とした。術後はまず前医から投薬されていた抗菌薬の投与を継続し、小児科主治医とも相談の結果、ミノサイクリン・メロペネム・ミカファンギンを2週間投与した。術後10日目に血液検査でCRPが正常化したため、急性リンパ性白血病に対するステロイド大量療法とメトトレキサート髄注による先行治療が開始された。しかし、その後の血液検査で再度

CRPの上昇を認めたため、血液培養および関節液培養検査の結果は陰性であったがMRSA感染を疑い、化学療法も併行していることからミノサイクリンをバンコマイシンに変更してさらに1週間抗菌薬を投与した。その後血液検査でCRPが正常化したため、計3週間で抗菌薬の投与は終了した。術後7日目にドレーンを抜去し、ギプス固定は術後12日間行った。術後17日目に寛解導入療法へと化学療法が続けられた。術後17日目の血液検査では白血球2500/ μL 、CRP0.02 mg/dL、血沈1時間値は18mmと炎症反応の低下を維持してした。術後1年3か月では右肘関節の疼痛・腫脹はなく、感染の再発は認めなかった。また肘関節の可動域制限もなかった。単純X線画像において骨端線の不整像は認めなかった。急性リンパ性白血病に対する維持化学療法は依然として継続していた。

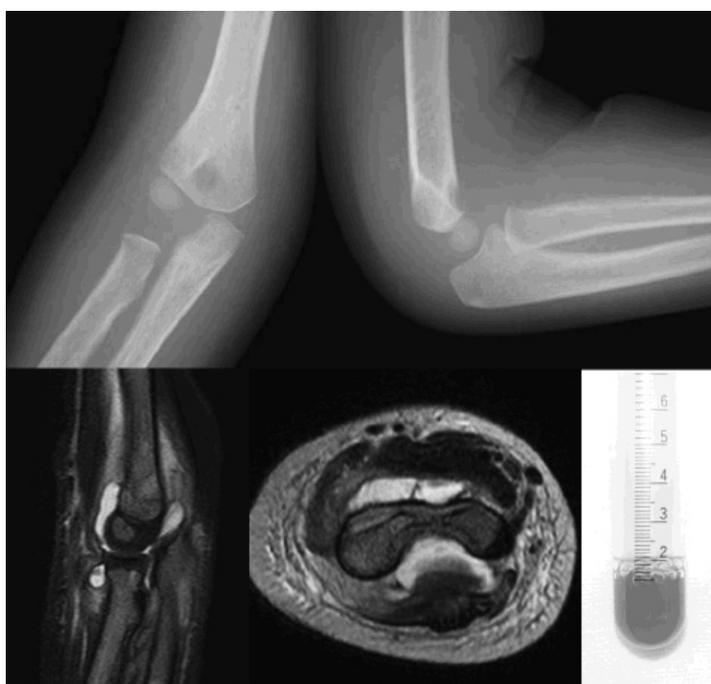


図2 初診時単純X線画像 (a: 正面, b: 側面) とMRI T2強調画像 (c: 矢状断, d: 水平断)
e: 切開排膿手術時に採取した関節液

a	b
c	d



図3 術後1年3か月時単純X線画像 (a: 正面, b: 側面) と右肘関節外観 (c: 側面, d: 屈曲位)

a	b
c	d

【考 察】

小児の急性白血病では14～33%に骨痛、関節痛や筋痛などの筋骨格系の症状を来すと報告されている^{3,4)}。このため急性白血病の小児患者は整形外科や救急外来を初診することが多い。しかし、筋骨格系の症状で整形外科や救急受診をしても71.4%で白血病を正しく診断できないとの報告もある⁹⁾。周知のとおり白血病の診断の遅れは治療開始の遅れにつながるため、小児が筋骨格系の症状を呈するときは白血病を念頭に置いておく必要がある。骨端線の透亮線いわゆる classic leukemia line が、小児白血病の44～70%に認められる単純X線画像の特徴として長年知られており、診断の一助となる^{3,4)}。

また小児の急性白血病は関節痛や筋痛の他に化膿性関節炎の症状を呈することがある。Rogalskyらは小児急性白血病107例中4例(3.7%)に、Riccioらは328例中7例(2.1%)に、Chellらは24例中に3例(12.5%)に化膿性関節炎の合併を生じたと報告している^{2,3,5)}。その多くは一般的な小児化膿性関節炎と同様に、股関節や膝関節に生じることが多いと報告されている。本症例のように白血病に関連した化膿性肘関節炎の報告は、われわれが渉猟しうる限りこれまで症例報告が3例あるのみである⁶⁻⁸⁾。いずれの症例も化膿性肘関節炎の初診から急性白血病の診断が確定するまでに、1～3週間の経過を必要としており、本症例に比べて白血病の治療開始が遅延していた。小児急性白血病では早期治療が良好な治療成績につながるため、早期確定診断は非常に重要である⁹⁾。

本症例では関節液培養検査が陰性であったが、小児の化膿性関節炎では関節液培養検査が陰性となる頻度が45～60%と比較的高い^{6,10,11)}。細菌感染による化膿性関節炎か悪性腫瘍による炎症性関節炎かの判断は非常に難渋するところであるが⁶⁾、小児の化膿性関節炎は軟骨破壊や骨端線損傷を来す緊急を要する疾患であるため、たとえ関節液培養結果が陰性であっても、臨床経過、局所所見、血液および画像所見から総合的に診断を行い、抗生剤加療に反応しない場合は早期に関節穿刺や関節切開などの外科的治療を行う必要があると考える¹⁾。

【結 語】

急性白血病の関節症状の一つとして化膿性関節炎がある。今回、小児急性白血病に関連した化膿性肘関節炎の1例を経験した。小児の化膿性関節炎は緊急を要する疾患であるが、急性白血病を含めた基礎疾患の併存を念頭において早期診断・早期治療を行う必要がある。

【文 献】

- 1) Uemura T, Yagi H, Okada M, et al : Elbow septic arthritis associated with pediatric acute leukemia: a case report and literature review. *Eklemler Hastalik Cerrahisi*. 2015 ; 26 : 171-4.
- 2) Riccio I, Marcarelli M, Del Regno N, et al : Musculoskeletal problems in pediatric acute leukemia. *J Pediatr Orthop B*. 2013 ; 22 : 264-9.
- 3) Rogalsky RJ, Black GB, Reed MH : Orthopaedic manifestations of leukemia in children. *J Bone Joint Surg Am*. 1986 ; 68 : 494-501.
- 4) Silverstein MN, Kelly PJ : Leukemia with osteoarticular symptoms and signs. *Ann Intern Med*. 1963 ; 59 : 637-45.
- 5) Chell J, Fernandes JA, Bell MJ : The orthopaedic presentation of acute leukaemia in childhood. *Ann R Coll Surg Engl*. 2001 ; 83 : 186-9.
- 6) Robinson JL : Leukemia presenting as purulent septic arthritis. *Orthopedics*. 2001 ; 24 : 281-2.
- 7) Yang WC, Huang YC, Tsai MH, et al : Salmonella septic arthritis involving multiple joints in a girl with acute lymphoblastic leukemia at diagnosis. *Pediatr Neonatol*. 2009 ; 50 : 33-5.
- 8) Cimaz R, Lippi A, Falcini F : Elbow arthritis: a rare inaugural manifestation of acute leukemia. *Rev Rhum Engl Ed*. 1999 ; 66 : 520-2.
- 9) Teo WY, Chan MY, Ng KC, et al : Bony presentations of childhood haematological malignancy to the emergency room. *J Paediatr Child Health*. 2012 ; 48 : 311-6.
- 10) Caksen H, Oztürk MK, Uzüm K, et al : Septic arthritis in childhood. *Pediatr Int*. 2000 ; 42 : 534-40.
- 11) Bowakim J, Marti R, Curto A : Elbow septic arthritis in children: clinical presentation and management. *J Pediatr Orthop B*. 2010 ; 19 : 281-4.