

Case 16-2010: A 48-Year-Old Man with a Cough and Pain in the Left Shoulder

(New England Journal of Medicine 2010; 362: 2013-22)

【患者】 48 歳男性 【主訴】 咳嗽、左肩の疼痛

【現病歴】

患者は約 2.5 ヶ月前に左肩の疼痛を発症した。痛みは当初間欠的であったが、次第に持続痛となった。2 ヶ月前、緑色調の痰を伴う咳嗽が始まった。咯血や胸痛、呼吸困難、発熱、寒気、体重減少、倦怠感はなかった。他院で撮られた胸部 X 線では肺炎像及び左肩甲骨の透過性亢進疑いの所見が得られた。抗菌薬開始となり咳嗽は一旦改善したが、再び始まった。5 日後、骨スキャン施行され、左肩甲骨棘及び右大腿骨骨幹部内側骨皮質の活動性亢進が認められたとのことだった。胸腹骨盤部 CT では左肩甲骨棘の透過性亢進像と腹側皮質表面の糜爛（背側皮質は正常）がみられた。また、縦隔及び両側肺門部リンパ節の多数軽度腫大、境界不鮮明な肺結節影、肝左葉の不明瞭な病変部（直径 5mm）、及び盲腸壁の明らかな肥厚が認められた。大腸内視鏡の結果は正常とのことだった。

約 6 週間前、dual CT 及び FDG-PET 施行され、¹⁸F-FDG の取り込みが亢進した直径 13mm の境界明瞭な溶骨性病変が左肩甲骨棘に認められ、腫瘍が疑われた(Fig.1B, 1C)。PET-CT では甲状腺左葉下極及び肝左葉に低吸収の結節、縦隔にリンパ節の点在（直径 1cm 未満）がみられたが、¹⁸F-FDG の取り込みはなかった。CT ガイド下での肩甲骨病変部の針吸引細胞診では血液と散在する炎症細胞がみられ、診断はつかなかった。Gd 造影での左肩と右大腿部 MRI では、左肩甲骨棘に T1 で等信号・T2 で高信号の 23mm×14mm の病変があり、不均一な造影効果を示し、肩甲骨腹側皮質まで進展しており、骨膜反応もみられた。右大腿骨骨幹部遠位部骨皮質には境界明瞭で造影効果を示す溶骨性病変があり、軽度の骨膜反応と骨皮質の肥厚がみられた(Fig.1D)。患者は当院整形外科を紹介受診となった。

患者によると、痛みは主に左肩甲骨棘部に位置し、休んでいるときでも起こり、夜に痛みで目が覚めることもあった。持続的な拍動痛で、痛みの程度は 5/10、じっとしていると軽快し、麻薬性鎮痛薬も効果があったが、左を下にして横になったり、腕を挙上したり、物を持ち上げたり、首を動かしたりすると強くなった。発熱、寒気、食欲や体重の変化、脚の痛みはなかった。

【既往歴】 双極性障害、盲腸切除

【アレルギー歴】 NKDA

【薬剤】 oxycodone（疼痛時頓用）、lamotrigine、lithium、pantoprazole

【生活歴】 右利き、離婚している、事務職

喫煙：過去 3 年間毎日 1~2 パック(過去数ヶ月は 3 パック以上)、アルコール(-)、違法薬物(-)

【家族歴】 父：結腸癌の転移で 68 歳で死亡、母：Paget 病、兄：糖尿病

【受診時身体所見】 身長 175cm、体重 90.7kg、バイタルサイン正常

受動及び他動運動時に左肩・肩甲骨後部の痛みのため軽度苦悶様、水平位以上での腕の動きが制限される左肩甲骨棘部に圧痛(+)、感覚・筋力・脈の触知は四肢で正常、右肩及び右腕の運動も正常

【受診時検査所見】

WBC 13,000/mm³(分画は正常), CRP 1.17mg/dl,

Plt, ESR, Glu, 電解質, Ca, タンパク質, アルブミン, グロブリン, Bil, LDH, 免疫グロブリン, 尿 Bence Jones 蛋白, 血清タンパク電気泳動, 腎機能検査, 肝機能検査は全て正常

紹介受診 6 日後、患者は当院入院となった。

【入院時検査所見】

WBC 15,800/mm³(分画は正常), CRP 1.9mg/dl

その他の CBC, 血清 ACE, ANCA, ビタミン D は正常

〔胸部 X 線〕 肺容量低下、境界明瞭で透過性亢進を示す溶骨性病変が左肩甲骨に認められる(Fig.1A, 2A)

【入院後経過】

左肩甲骨棘の生検及び搔爬術が施行された。病理検査では壊死性肉芽腫及び急性炎症が認められ、肉芽腫性骨髄炎の所見と合致すると考えられた。Gram 染色では少数の単核細胞と、多形核白血球がわずかにみられたが、病原微生物は認められなかった。細菌、マイコバクテリア、真菌の培養も陰性であった。

入院 2 日目、感染症内科のコンサルタントが詳細な病歴を聴取したところ、患者は過去数週間、強い疲労感と発汗、筋肉痛と不安感があったことを認めた。1 年前行った結核の皮膚テストは陰性であり、2 年前の HIV テストも陰性だったとのことである。患者は過去 16 年の間に東欧と南アメリカに旅行しているが、田舎に行ったことはなく、動物との接触歴、ハイリスクの性行為や職業上の暴露、アメリカ中西部・南西部への旅行も

なかった。Coxiella burnetii, Treponema pallidum, Bartonella henselae, Bartonella quintana, Burkholderia pseudomallei の検査及び尿中ヒストプラズマ抗原は全て陰性であった。患者はその日のうちに退院となった。

退院 5 日後のフォロー受診で、患者は肩甲骨の痛みの増強を訴えた。左肩甲骨の X 線では左肩甲骨棘の溶骨性変化と骨折が指摘された。肺機能検査では DLco の低下 (予測値の 68%) と残気量の減少 (予測値の 47%) がみられた。

それから後の 3 日間、疲労感、倦怠感、筋力低下、発汗、筋肉痛、肩甲骨の疼痛が増強したため、患者は再度入院となった。

【再度入院時身体所見】 バイタルサイン正常

左肩甲骨の手術創部周囲に軽度の紅斑あり、創部は汚染無く乾燥している

その他の身体所見は変化無し

【再度入院時検査所見】

WBC 15,000/mm³(分画は正常), brucella, cryptococcus 検査は陰性

〔心電図〕 正常

〔胸腹骨盤 CT〕 両側肺中上肺野の多発結節(直径 2~4mm、小葉中心性の分布がみられる)及び嚢胞、両側腋窩のリンパ節(直径 1.2cm 以下)、腹部のリンパ節(直径 1.7cm 以下)、甲状腺結節(1.2cm) (Fig.2B, 2C)

【再入院後経過】

空気感染対策を開始した。血液と痰の細菌、マイコバクテリア、真菌培養を提出したが、結果は陰性であった。vancomycin と doxycycline が開始された。呼吸器系ウイルス及び HIV 検査は陰性であり、痰の抗酸菌染色も何度試みても陰性であった。再入院 3 日目に空気感染対策は解除された。vancomycin は中止され、ceftriaxone と gentamicin が開始となった。

ここで、ある診断的手技が施行された。

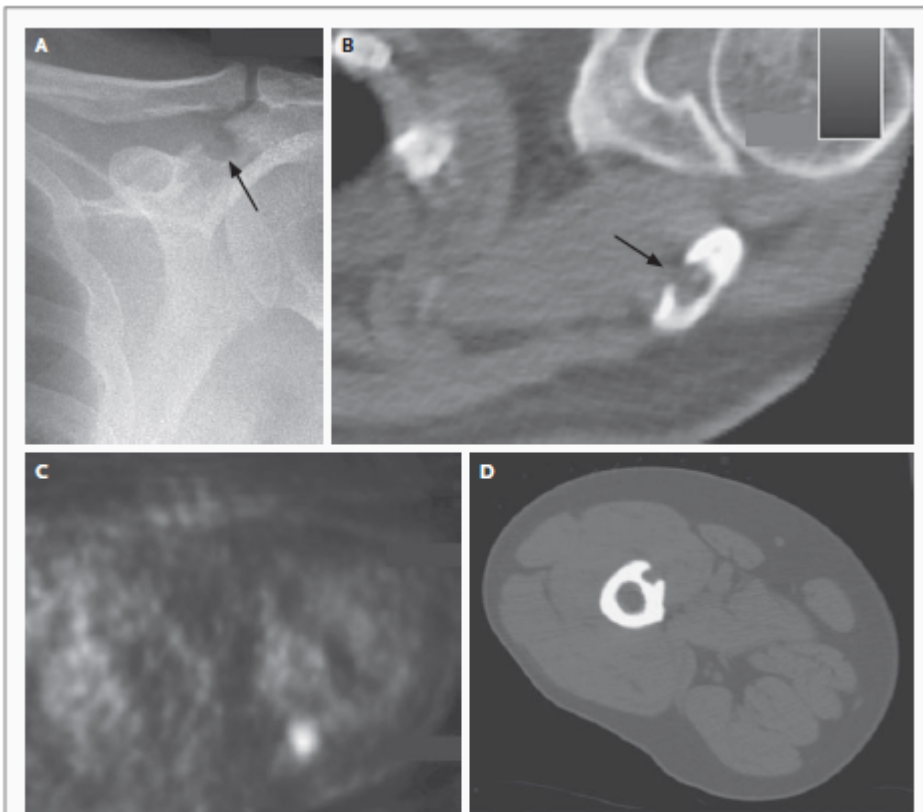


Figure 1. Images of the Left Shoulder and Femur.

A chest radiograph (Panel A) shows a sharply defined lucent lesion in the left scapula (arrow). A scan from combination positron-emission tomography and CT performed 6 weeks earlier shows a sharply defined lytic lesion with a "punched-out" appearance (Panel B, arrow) and intense ¹⁸F-fluorodeoxyglucose uptake in the lesion (Panel C). An axial unenhanced CT scan of the distal shaft of the right femur obtained at the time of the CT-guided fine-needle aspiration biopsy (Panel D) shows a sharply defined lucent defect in the cortex of the femur. The lesion has a punched-out appearance, with margins that resemble those of the left scapular lesion.

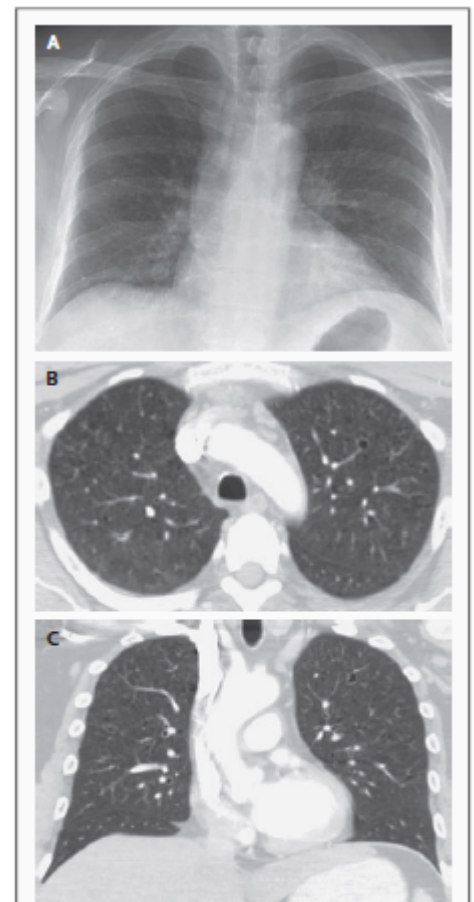


Figure 2. Images of the Lungs.

A chest radiograph obtained at the time of admission to this hospital (Panel A) shows subtle, fine reticulonodular opacities in both lungs that appear to spare the costophrenic sulci. An axial CT scan of the chest (Panel B) shows small, irregular pulmonary nodules that measure 2 to 3 mm in diameter; some nodules appear to be cavitating, and there are small central areas of low attenuation. Small cysts of various sizes are also seen in both lungs. The small nodules and cysts predominantly involve the upper and middle zones of the lungs and appear to spare the lung bases and costophrenic sulci. This distribution of findings is more apparent on a reformatted coronal CT image (Panel C).