

## 骨病変を来したエキノкокクス症のピクトリアル・レビュー Echinococcosis with Bone Lesions : A pictorial review

富樫 伶衣<sup>1</sup>、木村 理奈<sup>\*1</sup>、植松 功<sup>1</sup>、金谷 本真<sup>1</sup>、上石 崇史<sup>1</sup>、加藤 大祐<sup>1</sup>、西岡 典子<sup>1</sup>、常田 慧徳<sup>1,2</sup>、  
吉川 仁人<sup>1</sup>、坂本 圭太<sup>1</sup>、工藤 與亮<sup>1,3</sup>  
Rei Togashi, Rina Kimura, Isao Uematsu, Motoma Kanaya, Takashi Kamiishi, Daisuke Kato, Noriko Nishioka,  
Satorori Tsuneta, Masato Yoshikawa, Keita Sakamoto, Kohsuke Kudo

1 北海道大学病院 放射線診断科、2 北海道大学大学院歯学研究院 放射線学教室、3 北海道大学大学院医学研究院 画像診断学教室  
1 Department of Diagnostic and Interventional Radiology, Hokkaido University Hospital, Sapporo, Japan  
2 Department of Radiology, Graduate School of Dental Medicine, Hokkaido University, Sapporo, Japan  
3 Department of Diagnostic Imaging, Hokkaido University Graduate School of Medicine, Sapporo, Japan

2025年8月4日論文受領、修正依頼2025年9月4日、最終受理2025年9月18日

**【要旨】**多包性エキノкокクス症は、Echinococcus属の幼虫によって引き起こされる寄生虫感染症であり、肝臓に病変を来すことが多く、骨病変は0.5～4.0%と稀である。今回、骨エキノкокクス症を来した3症例(腸骨1例、脊椎2例)を報告する。いずれの症例でも画像検査では溶骨性変化と多発性嚢胞が見られた。病理検査で包虫嚢胞壁を認め、抗体検査ではウェスタンブロット法陽性を示し、骨エキノкокクス症と診断された。骨エキノкокクス症は稀な寄生虫感染症だが、流行地域で骨に溶骨性変化と多発性嚢胞を認めたら、鑑別疾患として念頭に置く必要がある。

**【責任著者の連絡先】**木村 理奈

〒060-8648 札幌市北区北14条西5丁目 北海道大学病院 放射線診断科 Tel : 011-706-7779

E-mail : rkimura@pop.med.hokudai.ac.jp

**【キーワード】**echinococcosis, bone involvement, hydatid cyst, computed tomography, magnetic resonance imaging

**【利益相反】**開示すべき利益相反状態はない。

**【グラント】**なし。

**【Abstract】** Echinococcosis *multilocularis* is a parasitic infection caused by the larvae of the genus Echinococcus, most commonly affecting the liver, with bone involvement being rare (0.5–4.0%). In this report, we describe three cases of echinococcosis of the bone. One case involved the ilium, and two cases involved the spine. In all cases, radiographic examination revealed osteolytic changes and multiple cysts. The diagnosis of bone echinococcosis was confirmed by the presence of echinococcus cyst walls on pathological examination and a positive result on the Western blot test. Bone echinococcosis is a rare parasitic infection. Although rare, bone echinococcosis should be considered in the differential diagnosis when osteolytic changes and multiple cysts are observed in bones from patients in endemic areas.

【諸言】

エキノコックス症は、Echinococcus属の条虫の幼虫が寄生することによって引き起こされる寄生虫感染症である。エキノコックス症(包虫症)には、単包条虫(Echinococcus granulosus)による単包性エキノコックス症と、多包条虫(Echinococcus multilocularis)による多包性エキノコックス症の2種類が存在する。両者は臨床像や病態に大きな差異を有するが、本論文では多包条虫による多包性エキノコックス症を「エキノコックス症」として取り扱う。日本国内では1999年から2018年の間に425例が報告され、その約90%が北海道からの報告である<sup>1</sup>。主に肝臓や肺に病変を形成し、骨への感染は稀で、発生率は0.5～4%とされている<sup>2</sup>。骨エキノコックス症は慢性的な進行を示し、しばしば他の疾患と誤診されることがある。本報告では、骨に溶骨性病変と多発性嚢胞を認めた骨エキノコックス症の3例を提示する。

【症例1】

症例は50代女性。主訴は右臀部痛および右臀部からの滲出液。X-1年8月に右臀部痛および滲出液が出現し、11月に近医で臀部のドレナージが行われたが、原因は特定されなかった。炎症性疾患が疑われ、X年2月に当院整形外科を受診。

既往歴：内膜症性嚢胞、喘息

家族歴：特記すべき事項なし。

生活歴：幼少期よりキツネが生息する地域に居住し、山菜を食していたことがあった。

【画像所見】

単純X線撮影(図1)およびCT(図2)にて右腸骨に不整な溶骨像および石灰化を認めた。造影CTでは、右臀部皮下脂肪織に濃度上昇と液体貯留を認められ、膿瘍を疑う所見であった(図2)。MRIでは、右腸骨内に多発性嚢胞を認め、T1強調像で低信号、T2強調像およびSTIR像で高信号を呈した。拡散で低信号、T2強調像およびSTIR像で高信号を呈した。拡散

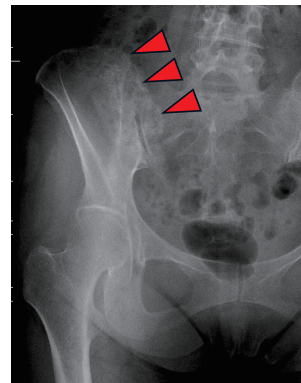


図1 症例1 単純X線撮影  
右腸骨に不整な溶骨像を認めた(矢頭)。



図2 症例1 腹部CT  
右腸骨に不整な溶骨像が見られた(矢頭)。右臀部皮下の脂肪織濃度上昇および被包化された液貯留を認めた(矢印)。

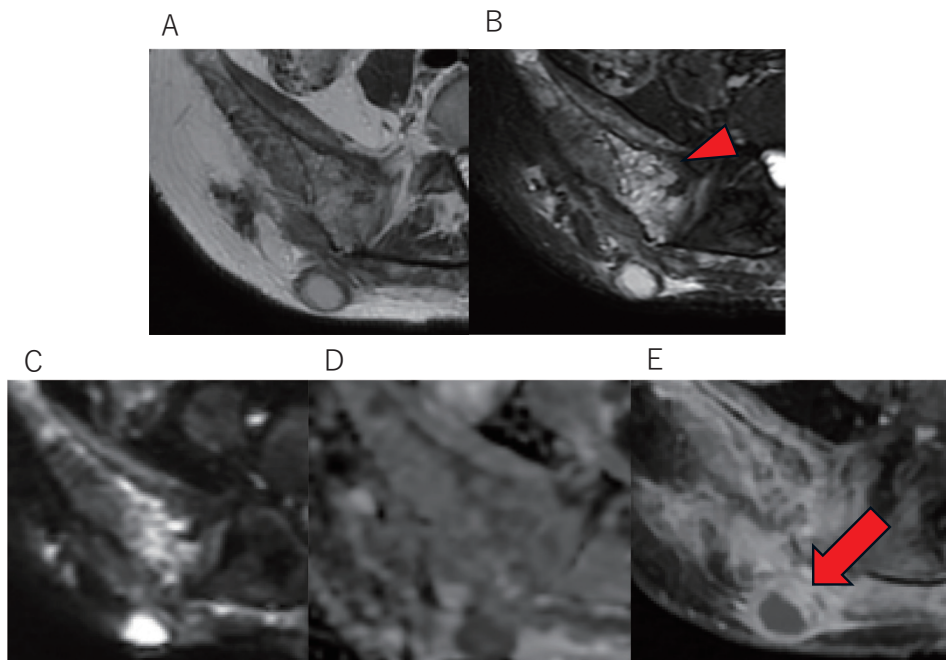


図3 症例1 腹部MRI

A：T2強調像、B：STIR像、C：拡散強調像、D：ADC map、E：造影後T1強調像

右腸骨にSTIR像で多発する小さな高信号を示す、多房性嚢胞を認めた(矢頭)。同部位はT2強調像で高信号、造影後T1強調像で増強効果認め、嚢胞と思われる部位は造影効果を認めなかった。拡散強調像で高信号、ADCmapでは低値を示していた。軟部組織にも増強効果が見られ、壁の厚い嚢胞構造(矢印)も認めた。

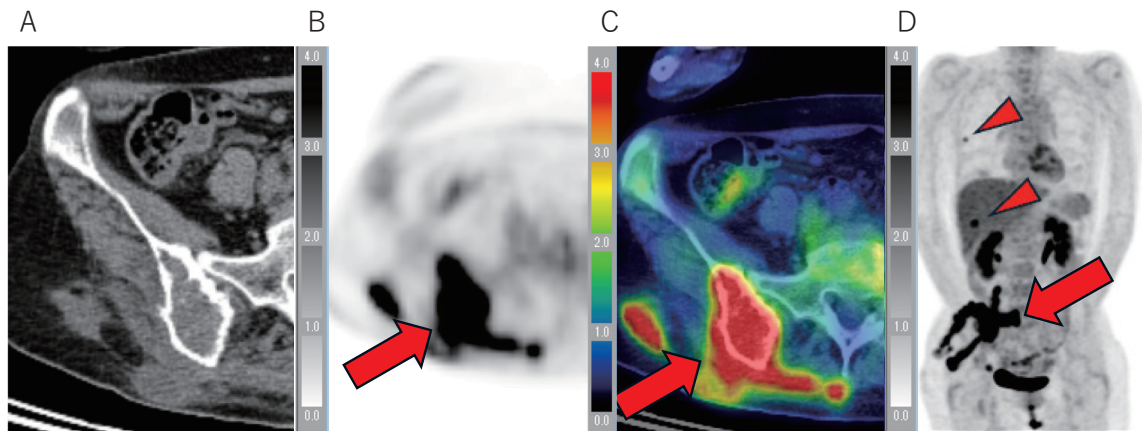


図4 症例1  $^{18}\text{F}$ -FDG PET/CT

A: CT画像、B: PET画像、C: PET/CT fusion画像、D: PET MIP像

右腸骨およびその周囲にSUVmax = 17の集積亢進を認めた(矢印)。肝臓、肺病変にも集積を認め(矢印)、エキノコックス症の所見と考えられた。

強調像では高信号、ADC mapでは $0.95 \times 10^{-3}\text{mm}^2/\text{s}$ と低値を示した。造影後T1強調像では骨内の嚢胞壁に造影効果を認めたが、内部には造影効果がみられなかった。骨周囲の軟部組織にも造影効果が見られた(図3)。これらの所見から初期には炎症性疾患が疑われたが、骨内および軟部組織に多発する嚢胞性病変の存在も考慮し、骨エキノコックス症も鑑別に挙げられた。鑑別診断としては、化膿性骨髄炎、悪性腫瘍(骨肉腫、転移性骨腫瘍)、結核性骨髄炎などが考えられた。 $^{18}\text{F}$ -FDG PET/CT (以下PET/CT)では、右腸骨および周囲軟部組織にSUVmax 17の集積亢進が見られ、肝臓および肺にも集積を認めたため、全身性のエキノコックス症と考えられた(図4)。

#### 【病理所見】

CTガイド下に骨病変に対する針生検を実施され、PAS染色で強陽性の包虫嚢胞壁が確認された。

#### 【治療経過】

ELISA法で疑陽性、ウェスタンブロット法で陽性の結果が得られ、骨エキノコックス症と診断された。治療として、右腸骨の病巣に対し搔爬術およびセメント充填術を行い、全身管理として抗条虫薬アルベンダゾールの内服を開始した。

#### 【症例2】

症例は40代女性、Y年2月に左肋骨部痛、7月ごろに頸部・右肩甲部・背部痛があり、8月に前医初診。10月に撮られたMRIで第2～5胸椎の椎体腫瘍を認め、当院紹介。

既往歴：なし

家族歴：父が胆管癌でY-4年に死亡、母型の叔母が2人乳癌。

生活歴：自宅の周りにはキツネがたくさんいるが、触れたことはない。野良猫を飼っていたことがある。

#### 【画像所見】

MRIでは第2～4胸椎に椎体から一部椎弓にかけて、T1強調像で低信号、脂肪抑制T2強調像で高信号を示す領域を認め、辺縁に微細な嚢胞状構造を呈していた。第3胸椎では椎体が圧潰変形していた。椎体外腫瘍形成も目立ち、胸腔側および脊柱管側にも病変の進展を認めた。内部は不均一に増強されるが、部分的に増強されていない領域があり、嚢胞や壊死などを見ている可能性があった(図5)。

PET/CTで第2～4胸椎にSUVmax 11の集積を認め、CTでは骨破壊と低吸収を示す腫瘤状構造が見られた。脾臓にSUVmax 4.8の集積を認め、CTでは腫瘤状構造が相当しており、低吸収結節が集簇した形態を示していた(図6)。CTで肝内に高吸収が散見された。集積は背景肝と同程度であった。転移性骨腫瘍の可能性が考えられたが、局在が局所に局限しており、特殊な感染性疾患なども鑑別に挙げられた。

#### 【病理所見】

整形外科で第4胸椎の骨生検がなされた。断片化した骨組織と共に壊死が認められ、その一部では辺縁に多核巨細胞を混じる肉芽腫性炎症が見られた。背景にはPAS染色で濃染するクチャラ様の構造物が認められた。これらがGrocott染色では黒色を示し、部分的には層状の縞模様が観察された。以上から組織学的にはエキノコックス症が疑われた。

#### 【治療経過】

病理の結果を受けて抗体検査を提出し、ウェスタンブロット法陽性となり、エキノコックス症の診断となった。肝臓および脾臓の病変も一元的にエキノコックス症に起因するものと判断された。その後病変切除、アルベンダゾール内服を継続している。

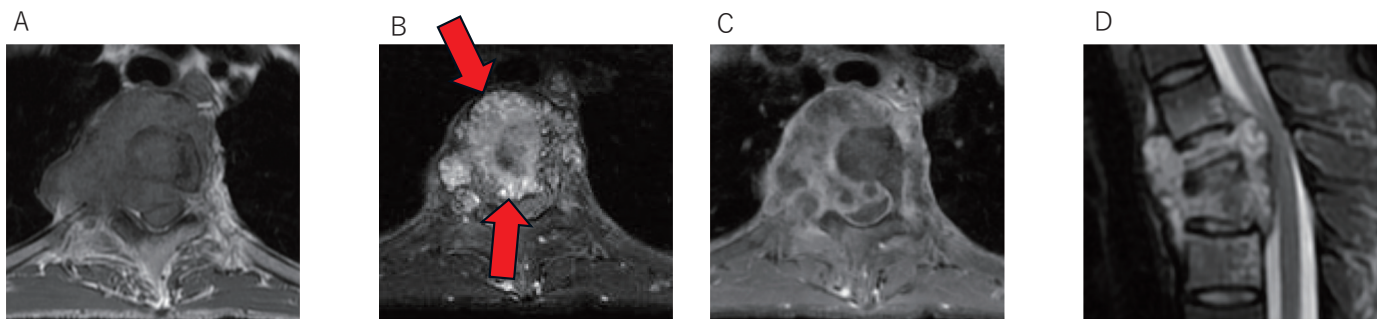


図5 症例2 MRI

A：T1強調像、B：脂肪抑制T2強調像 水平断像、C：造影後T1強調像、D：脂肪抑制T2強調像 矢状断像

第2から4胸椎の椎体および一部椎弓にかけて、T1強調像で低信号、脂肪抑制T2強調像で高信号を示す病変が見られた。脂肪抑制T2強調像で、病変内部に多発する小さな高信号を認め嚢胞と考えられた(矢印)。造影後T1強調像で病変は不均一に染まっていた。第3胸椎に圧潰変形を認めた。

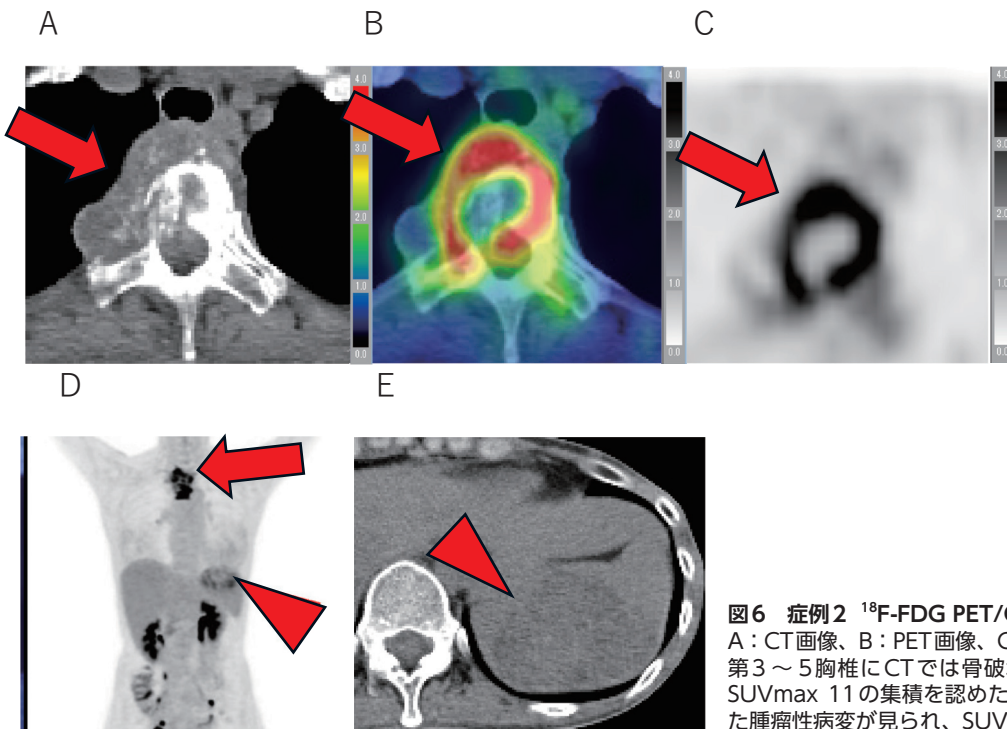


図6 症例2 <sup>18</sup>F-FDG PET/CT

A：CT画像、B：PET画像、C：PET/CT fusion画像、D：PET MIP像  
第3～5胸椎にCTでは骨破壊を示す低吸収な腫瘤状構造が見られ、SUVmax 11の集積を認めた(赤矢印)。脾臓には低吸収結節が集簇した腫瘍性病変が見られ、SUVmax 4.8の集積を認めた(赤矢頭)。

【症例3】

症例は70代男性、転倒し脊椎MRIを撮像された際に、胸椎病変を指摘された。患者はZ-34年に肝エキノコックス症の診断(詳細不明)となった。Z-32年より黄疸が出現したため、肝部分切除と胆嚢摘除術が施行されたが、Z-26年に再度黄疸が出現し、Z-25年に総胆管空腸吻合術がなされた。Z-24年からはメベンダゾールの内服を開始した。Z-18年に両側副腎転移が疑われ、アルベンダゾールに変更。Z年2月に転倒し、脊椎MRIで胸椎病変が指摘された。

カルテ情報を入手できなかったため、既往歴、家族歴、生活歴に関する情報は無い。

【画像所見】

脊椎MRIでは、上部腰椎から下部胸椎にかけて椎体全体が

T1強調像で低信号であった(図7)。椎体周囲には腫瘍性病変を認め、左大腰筋に連続していた。これらの病変は、T2強調像で内部が高信号、辺縁に微細な嚢胞状構造を無数に形成していた。肝後区域にも辺縁にT2強調像で多発する小さな高信号を伴う内部高信号の大きな腫瘍性病変が見られた。(図7)。脊椎の所見は肝病変の画像所見と類似しており、既往も踏まえてエキノコックス症の病変と考えられた。

【治療経過】

Z年7月に後方脊椎固定術が施行された。

【考察】

エキノコックス症は、Echinococcus属の条虫の幼虫が寄生することによって引き起こされる寄生虫感染症である。卵を

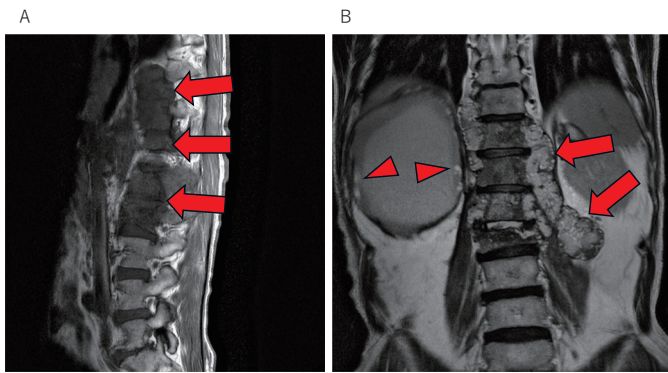


図7 症例3 MRI

A：T1強調像 矢状断像

下部胸椎から上部腰椎にかけて、椎体ほぼ全体にT1強調像で低信号を認めた(矢印)。また、椎体周囲にも病変を認めた。

B：T2強調像 冠状断像

第11胸椎から第4腰椎の周囲に腫瘍性病変が見られ、T2強調像で内部が高信号、辺縁に微細な嚢胞状構造を無数に認めた(矢印)。肝後区域にも辺縁にT2強調像で多発する小さな高信号を伴う(矢頭)、内部高信号の大きな腫瘍性病変が見られ、肝エキノコックス症と考えられた。

含む水や食物から感染し、数年間の潜伏期間を示す<sup>3</sup>。主に肝臓や肺に病変を形成し、骨への感染は稀で、発生率は0.5～4%とされている<sup>1</sup>。

エキノコックス症の骨病変は、腸骨、胸椎、股関節の順に発生頻度が高く、脊椎および骨盤の両方に感染が見られるケースは約13.6%である<sup>4</sup>。骨エキノコックス症に罹患した44名を追跡した研究では感染部位はそれぞれ、胸椎13例(29.5%)、腰椎5例(11.4%)、腰仙骨4例(9.1%)、仙骨7例(15.9%)、腸骨19例(43.2%)、股関節7例(15.9%)、坐骨6例(13.6%)、恥骨5例(11.4%)、大腿骨2例(4.5%)であった<sup>4</sup>。症状は通常、疼痛、腫脹、病的骨折を認める。加えて脊椎病変では神経学的障害を呈することがあり、激しい背部痛、脱力感、筋肉の障害が見られる。エキノコックス症の約98%は肝臓に一次病巣を形成するが、稀に骨のみに病変を認める例もある<sup>5</sup>。確定診断は生検によって行われるが、生検は侵襲性が高く、播種(転移)のリスクも伴うため、抗体検査の併用が検討される。エキノコックスの病理所見は、壁の断面は、内側から胚層、多数のエオジン好性クチクラ層、granulomatous reactionを認め、palisading granulomaを形成する肉芽層を認める。人間は中間宿主であり、成虫、卵は認めないが、原頭節は認められる<sup>6</sup>。

骨エキノコックス症の画像所見として、単純X線撮影やCTでは、溶骨像や多発性の膨張性発育が見られる<sup>7</sup>。また、骨や

軟部組織内に多発性嚢胞が認められ、時に石灰化を伴うことがある<sup>7</sup>。溶骨像が生じるメカニズムとして、(1)病変の増大による物理的圧迫、(2)血管圧迫による虚血性壊死、(3)破骨細胞の活性化による溶骨の3つが考えられる<sup>8</sup>。MRIでは、骨内および周囲の軟部組織に多発性嚢胞が観察されるほか、炎症による強い増強効果も見られる<sup>1,9</sup>。またPET/CTにおいては、肝臓や肺病変と同様にFDGの集積を認める<sup>10</sup>。今回の画像所見について表1にまとめた。今回は腸骨1例、脊椎2例と病変が見られており、いずれも骨エキノコックスの好発部位であった。また、画像所見は症例1,2ともに既知の報告と同様に多発性嚢胞および嚢胞周囲の増強効果を認めた。症例3のMRIでは造影は行われておらず、造影効果の有無は不明だが、多発性嚢胞の所見が骨エキノコックス症と考えられた。PET/CTは症例1,2で撮像されており、骨病変の活動性の有無のほか、骨以外の肝臓や肺などの他臓器の病変の検出に役立ったが、必須の検査ではない。

鑑別診断は、炎症性疾患では結核性脊椎炎や慢性骨髄炎、腫瘍性疾患では動脈瘤性骨嚢胞や巨細胞腫、孤立性嚢胞、神経線維腫症、線維嚢胞性疾患、軟骨肉腫と多岐にわたる<sup>11</sup>。腫瘍や炎症性病変、特に結核との鑑別は難しいが、溶骨性病変や複数の小さい嚢胞を認めた時にはエキノコックス症の可能性を考慮し、肝病変の有無確認や抗体検査を推奨することで診断できる可能性がある。

## 【結語】

骨エキノコックス症は稀な寄生虫感染症であり、慢性的に進行し、しばしば他の疾患と誤診される可能性がある。本報告の3症例では、特徴的な多発性嚢胞および嚢胞周囲の造影効果を認めた。流行地域において骨に多発性嚢胞をともなう不整な溶骨性腫瘍認めた場合には、本疾患を鑑別診断に含め、肝病変の有無確認や抗体検査を含む精査を考慮することが推奨される。

## 【引用文献】

1. エキノコックス症 1999～2018年：IASR, 2019年3月号：Vol. 40 p33-34
2. Martinese, G., Lucidi, V., Masi, P. Di, Adduci, F., Cappelli, A., Renzulli, M., De Paolis, M., Fiore, M., & Golfieri, R. Bone echinococcosis with hip localization: A case report with evaluation of imaging features: Radiology Case Reports,

表1 3症例の画像所見

症例	年齢	性別	部位	CT	MRI	PET
1	50代	女	右腸骨	溶骨像、石灰化	多発性嚢胞、嚢胞周囲に造影効果あり	SUVmax = 17
2	40代	女	胸椎	溶骨像、石灰化	多発性嚢胞、嚢胞周囲に造影効果あり	SUVmax = 11
3	70代	男	胸腰椎	溶骨像、石灰化	多発性嚢胞	-

- 2022 Jul 1917 (9) : 3389-3394.
3. Conraths, F. J., Probst, C., Possenti, A., Boufana, B., Saulle, R., La Torre, G., Busani, L., & Casulli, A. (2017). Potential risk factors associated with human alveolar echinococcosis : Systematic review and meta-analysis : *PLoS Negl Trop Dis*, 2017 Jul 17 : 11 (7)
  4. Yang, L., Tuxunjiang, P., Liu, W., & Guo, H. (2023). Vertebral and pelvic echinococcosis in northwestern China. *International Orthopaedics*, 2023 May : 47 (5) : 1153-1162.
  5. 川中正憲、エキノкокクス症とは : IDWR、2001 : 第48号
  6. 神山俊哉、多包性肝エキノкокクス症の臨床 : IASR、2019年 : vol.40 : 35-36.
  7. Inayat, F., Rana, R. E., Azam, S., Ahmad, R., & Ahmad, S, Pelvic Bone Hydatidosis : A Dangerous Crippling Disease : *Cureus*, 2019 Apr 16 : 11 (4) : e4465.
  8. Cattaneo, L., Manciuilli, T., Cretu, C.-M., Giordani, M. T., Angheben, A., Bartoloni, A., Zammarchi, L., Bartalesi, F., Richter, J., Chiodini, P., Godbole, G., Junghanss, T., Stojkovic, M., Sammarchi, L., Dore, R., Vercelli, A., Benazzo, F., Cuzzocrea, F., Tamarozzi, F., & Brunetti, E, Cystic Echinococcosis of the Bone : A European Multicenter Study : *Am. J. Trop. Med. Hyg.*, 2019 Mar : 100 (3) : 617-621.
  9. Khan, M. S., Hashmi, P. M., & Khan, D, Eradication of advanced pelvic hydatid bone disease after limb salvage surgery-5-Year follow-up : A case report : *Journal of Medical Case Reports*, 2015 Apr 21 : 9 : 21.
  10. Takenaka, J., Hirata, K., Watanabe, S., Takahata, M., & Kudo, K, Bone Echinococcosis Mimicking Malignancy on FDG PET : *Clinical Nuclear Medicine*, 2023 Nov 1 : 48 (11) : e523-e525.
  11. Song, X. H., Ding, L. W., & Wen, H, Bone hydatid disease : *Postgrad Med J*, 2007 Aug : 83 (982) : 536-42.