

膝関節に発生した色素性絨毛結節性滑膜炎の1例

高橋 新, 安倍 吉則, 関谷 元彦
渡辺 克司, 門馬 弘晶, 大江 桂成

はじめに

色素性絨毛結節性滑膜炎 (Pigmented villonodular synovitis, 以下 PVS と略す) は, 関節内滑膜の増殖とヘモジデリン沈着をきたす原因不明の疾患で, 年間 100 万人に 2 人の発生率とされる比較的古来な疾患である。今回, 外傷によって膝関節症状が発現し, 関節鏡と病理組織的検索により確定診断を得た PVS の一症例を経験したので報告する。

症例および経過

症例: 42 歳, 女性

主訴: 左膝関節の腫脹, 重苦感

既往歴, 家族歴: 特記すべきことなし

現病歴: 平成 9 年 7 月 27 日, 風呂場で足を滑らせ左膝関節を過伸展した後より, 左膝の腫脹と重苦感が生じた, その後 bone setter でマッサージ, ハリなどを受けたが, 左膝腫脹が増強したため, 平成 9 年 8 月 28 日, 近医を受診した。受診時, 左膝関節の著明な腫脹を認め, 関節穿刺で茶褐色の淡血性関節液を 80 ml 吸引した。以後, 膝関節を包帯で固定し, 安静を指示されていたが, ふたたび腫脹が増強したため平成 9 年 9 月 12 日, 当科紹介となった。

初診時現症では, 主訴は左膝関節周囲の重苦感で, 左膝関節周囲の著明な腫脹と軽微な熱感, 膝蓋骨跳動をみとめた。膝関節 ROM に制限はなく, 側方動揺性もなかった。前方および後方引き出しテストは陰性で, McMurray test も陰性であった。膝関節穿刺で茶褐色淡血性の関節液が 15 ml 吸引されたが, 針に関節内組織がすぐつまってし

まうため, 十分な吸引はできなかった。

血液検査所見: 血清総蛋白 6.3 g/dl とやや低値のほかは耳血, 肝機能, 腎機能, 出血時間などに異常を認めなかった。

単純 X 線所見: 膝蓋上窩周囲の軟部組織腫脹の所見はあるが, 骨破壊などはみとめられなかった (図 1)。

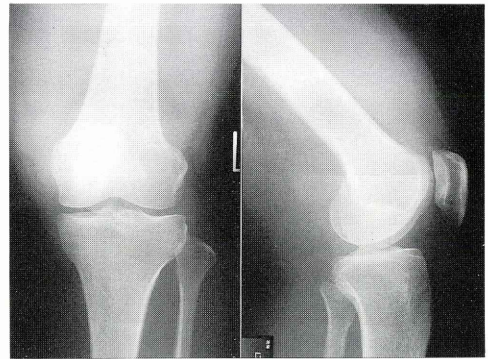


図 1. 初診時単純 X-p
膝蓋骨上方に軟部組織の腫脹をみとめる

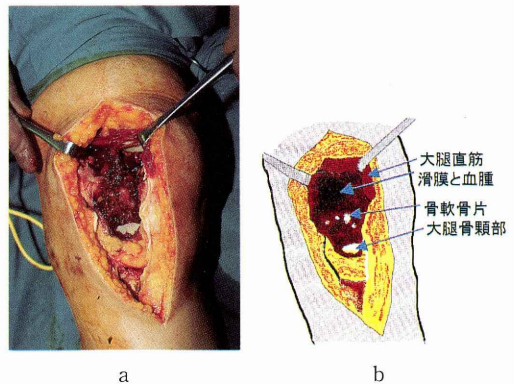


図 2 a, b. 術中所見
膝蓋上窩に増生した茶褐色の滑膜や血腫, 骨軟骨片などをみとめる

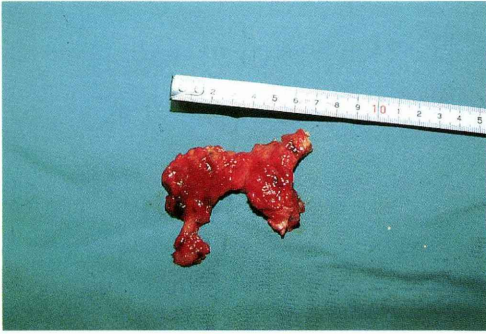


図3. 滑膜切除片
滑膜は肥厚し、茶褐色の増生した絨毛におおわれている

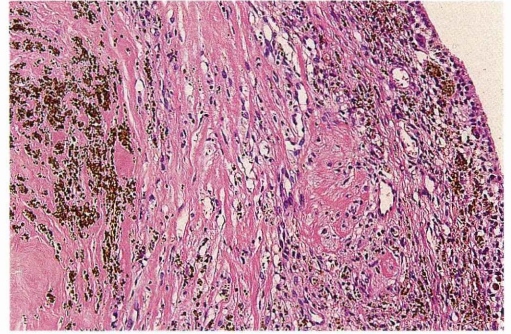


図5. 絨毛横断面 (H-E, 中拡大)
表層に近い間質にヘモジデリンの沈着、血管の増生、小円球細胞の浸潤をみとめる



図4. 絨毛横断面 (H-E, 弱拡大)
中央部にヘモジデリンの沈着した結節性組織をみとめる

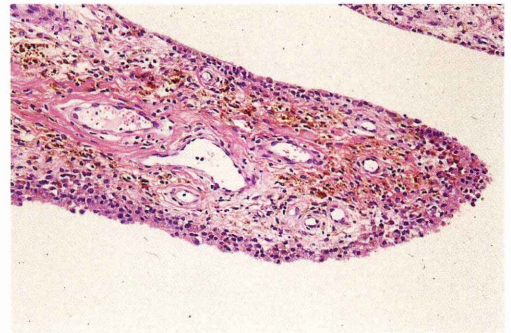


図6. 絨毛縦断面 (H-E, 弱拡大)
中央部血管周囲は細胞に乏しく、表層には多数の小円球細胞をみる

以上より外傷に起因する滑膜炎を疑い、平成9年9月18日関節鏡検査をおこなった。

関節鏡視所見：膝蓋上関節腔全体に、長さ10mmほどの茶褐色の絨毛が密生し、その基部に数個の骨軟骨片をみとめた。絨毛は膝関節腔内滑膜にくまなく存在し、ACL, PCLも絨毛でおおわれていた。しかし顆間窩の絨毛は薄く、後方関節包部の絨毛はまばらであった。関節軟骨に色素沈着の所見はなく、軟骨の欠損、潰瘍などもみとめなかった。

これらの関節鏡所見から、diffuse typeのPVSで後方関節包への絨毛侵入はすくないと判断し、平成9年9月25日、前方から滑膜切除をおこなった。

術中所見：手術は傍膝蓋骨縦切開でおこなっ

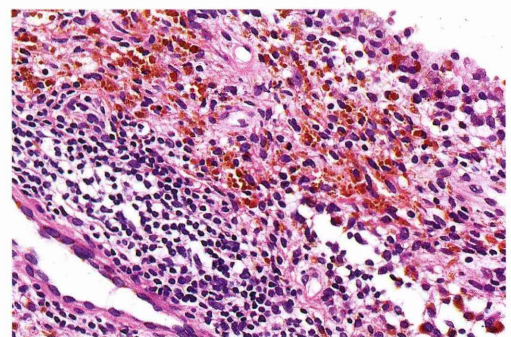


図7. 絨毛縦断面 (H-E, 強拡大)
表層近くの間質に小円球細胞の浸潤は多いが、多核巨細胞はすくない

た。膝蓋骨を反転すると、膝蓋上関節腔内には血液凝結塊が充満しており、関節包は茶褐色の絨毛におおわれていた。絨毛は膝蓋骨周囲にもっとも

多く密に存在しており、膝蓋上関節腔の滑膜には、絨毛のあいだに 10 数個の骨軟骨片が存在した(図 2a, b)。これら絨毛と骨軟骨片を前方から確認できる限り切除した(図 3)。

病理組織所見：絨毛横断面では、絨毛中心部に、結節性の血管に乏しい組織が存在し、多数のヘモジデリン沈着がみとめられた。またその外側に、ヘモジデリン沈着の少ない比較的密な線維組織が存在している。さらに外側の間質には小血管の増生がみとめられ、組織内には多数のヘモジデリン沈着がみられた。絨毛の表層には小円球細胞の浸潤が多数みられ、活発な炎症活動の状態にあることがうかがわれた(図 4, 5)。絨毛縦断面では中央部に血管の増生が見られ、その周囲から表層にかけヘモジデリン沈着と、多数の小円球細胞の浸潤がみとめられた(図 6, 7)。

治療経過：滑膜切除後、4 週後より CPM をもちいた他動 ROM 訓練を開始し、部分荷重を開始した。術後 5 ヶ月の現在、膝関節 ROM は制限なく、疼痛の訴えはない。膝関節腫脹も認めず、再発を思わせる所見はない。

考 察

PVS は 1941 年、Jaffe が報告して以来、これまで多数の報告例があるが、病因は外傷説、炎症説、腫瘍説、脂質代謝異常説などの諸説があり、いまだ不明である。本症例は膝関節過伸展を転機に発症してはいるが、病巣の広がりや時間経過とを考えると、病歴のみから病因は推測できない。そこで病理組織から病因を推測すると、絨毛横断面組織で絨毛中心部にヘモジデリン沈着を伴う結節性組織があり、その周囲にヘモジデリン沈着のない組織が存在している。さらに表層になるにしたがい、小円球細胞の浸潤が密になり、多数のヘモジデリンの沈着がみられるようになる。これらは典型的な PVS の所見であるが、時間経過を考慮してこの所見を解析すると、はじめに出血をとまなう滑膜炎が存在し、中心部の間質が次第に線維性組織で置換されて密な結節性組織になり、その過程でマクロファージに取り込まれたヘモジデリンが沈着して中心部に残存したと思われる。炎症の

場は表層で、血管に富んだ間質が何らかの外傷で関節内出血をきたした時期に、ヘモジデリンを貪食、沈着させ、さらに表層に血管と炎症細胞が進入することにより、絨毛がより成長していったとみることができる。このことから本症例の進行には、外傷がきわめて密接に関与していると考えられ、関節内に球形の小軟骨片が存在していることを考えあわせると、本症例の病態は外傷による骨軟骨炎に起因する絨毛の異常成長の結果ではないかと推測される。

PVS の診断について、近年 MRI による検索が一般的となるにつれ、その有用性が多数報告されている²⁻⁴⁾。術前のスクリーニングや術後の再発の確認には、MRI が第一選択と考えられるが、切除範囲の決定や確定診を得るためには、直視下に病巣を確認できる関節鏡による検索が、より有用である⁵⁾。

治療上、切除範囲については、前方からのみの滑膜切除術では術後の膝関節 ROM 制限をきたしやすしいといわれていて^{6,7)}、後方も含めた全滑膜切除術が、前方からのみの滑膜切除術よりも再発率が少ないとする報告が多い^{5,8)}。本症例は関節鏡視により後方の滑膜増生はみられたものの、膝蓋上窩や、内、外側の谷にくらべ後方部の病変が軽微なものであったため、前方からの可及的な滑膜切除にとどめた。術後 5 ヶ月の現在、膝関節 ROM 制限や再発を示唆する所見はないが、今後 MRI や関節鏡視での注意深い経過観察が必要と考えている。

ま と め

- 1) 比較的まれな膝関節 PVS の一例を報告した
- 2) 組織学的には、間質内に多数の小円球細胞と浸潤とヘモジデリンの沈着があり、絨毛中心部に結節性組織もみられた典型的な PVS の像と思われた
- 3) 前方からの total synovectomy をおこなった術後膝関節 ROM 制限は生じなかったが、再発の可能性もあるので注意深い経過観察が必要である。

文 献

- 1) Myers BW et al: Pigmented villonodular synovitis and tenosynovitis: A clinical epidemiologic study of 166 cases and literature review. *Medicine* **50**: 223, 1980
- 2) Stephen MB et al: Pigmented villonodular synovitis. *Radiol Clin North Am* **34**(2): 311-326, 1996
- 3) 今井 浩 ほか: 膝関節に発生した色素性絨毛結節性滑膜炎の1例. *愛媛医学* **13**: 462-466, 1994
- 4) 荒木 裕 ほか: 膝関節色素性絨毛結節性滑膜炎のMR像. *日本医放会誌* **53**: 806-811, 1993
- 5) 真島任史 ほか: 膝関節に発生した色素性絨毛結節性滑膜炎に対する radical excision の小経験. *北海道整形外科災害外科雑誌* **37**: 62-68, 1993
- 6) 荻野幹夫 ほか: 色素性絨毛結節性滑膜炎の14例—再発病変組織により病理機序の考え—. *臨整外* **12**: 745-756, 1977
- 7) 大平信広ほか: Pigmented villonodular synovitis に対する synovectomy. *膝* **6**: 58-64, 1980
- 8) Frandry F et al: Diagnostic Features of Diffuse Pigmented Villonodular Synovitis of the Knee. *Clin Orthop* **298**: 212-220, 1994