顔面非対称を伴った顎関節滑膜性骨軟骨腫症に対して 下顎枝垂直骨切り術を応用した1症例

古 田 治 彦 久 保 諠 修 北 郷 明 成
堀 内 薫 白 数 力 也

A Case of Synovial Chondromatosis of the Temporomandibular Joint with Facial Asymmetry using an Intraoral Vertical Ramus Osteotomy

HARUHIKO FURUTA, YOSHINOBU KUBO, AKISHIGE HOKUGO,
KAORU HORIUCHI and RIKIYA SHIRASU

Abstract

Synovial chondromatosis is a disease of cartilaginous metaplasia of the synovial membrane accompanied with loose bodies within the articular cavity. It occurs frequently in the knee, elbow, and hip joints. However, reports of this lesion of the temporomandibular joint (TMJ) are rare.

A 21-year-old woman visited our hospital complaining of facial asymmetry, malocclusion, and a clicking sound in the left TMJ region. Her purpose was to undergo treatment of orthognathic surgery. But panoramic radiography, 3D-CT, and MRI revealed calcified loose bodies surrounding the condyle of the left TMJ.

After an intraoral vertical left ramus osteotomy was performed (IVRO), removal of all loose bodies, a synovectomy and a discectomy were performed, using the Al-Kayat-Bramley technique. The loose bodies totaled 88 white nodules measuring 3 to 7 mm in diameter. Histological examination of the loose bodies demonstrated cartilaginous metaplasia. Using this technique, this patient was made free from disease and functional disturbances of the TMJ, and at the same time she had an improved facial and occlusal form after surgery.

Key words: Synovial chondromatosis (滑膜性骨軟骨腫症), Temporomandibular joint, (顎関節), Intraoral vertical ramus osteotomy (下顎枝垂直骨切り術)

[Received Jul. 15, 2001]

緒 言

滑膜性骨軟骨腫症は滑膜の増生により軟骨が生じ、さらに新生した軟骨塊が滑膜から遊離し関節腔内に遊離体を形成する疾患である。通常好発部位は、膝関節や肘関節であり、顎関節に発症することはきわめてまれとされてきた^{1,2)}。その理由として顎関節部滑膜性骨軟骨腫症は、顎関節症に類似した臨床症状を呈することが多いことから過去においてはあまり報告がなかったからであると考えられる。しかし、最近の顎関節部に対する画像検査³⁾や関節鏡検査⁴⁾の

進歩に伴い、その手術報告がみられるようになってきた⁶⁻⁸⁾。

今回、著者らは顔面非対称を主訴に来院した本症例を経験し、顎関節開放術施行前に口内法による下顎枝垂直骨切り術を併用し、近位骨片の可動性を求めた上で、口外から側頭耳前部切開にて関節腔内の軟骨塊、滑膜および関節円板を摘出した。その結果、顎関節頭の切除を行うことなく、直視下で腫瘍ならびに関節円板の摘出を容易に行うことができ、同時に顔貌の改善と良好な術後結果が得られたので、その概要を報告する。

症 例

患者：21 歳，女性。

初診：平成 11 年 7 月 1 日。

主訴：顔面非対称を伴う咬合異常および左側顎関節部雑音。

家族歴：特記事項なし。

既往歴：術前検査の結果，本院内科にて von Willebrand 病と診断された。

現病歴：約 3 年前に左側顎関節脱臼の既往があった。7 カ月前より咬合異常と顔面非対称を自覚するも放置していた。その後徐々に顔面非対称の増悪とともに咀嚼障害と顎関節雑音 (clicking) を自覚するようになったため，近医歯科を受診した。その結果，顎関節症を伴う顎変形症と診断され，外科的矯正治療を勧められ当科に紹介されて来院

した。

現症：正貌にてオトガイの右側への偏位が認められた (Fig. 1)。また，咬合所見では下顎歯列正中の 6 mm 右側偏位と，左側臼歯部の開咬が認められた (Fig. 2)。さらに左側顎関節に雑音 (clicking) を認めたが，開口障害や顎関節痛は認められなかった。

X 線所見：パノラマ X 線写真では，左側関節突起の周囲に大小不同の一部類円形を示す X 線不透過像を認めた。また左側顎関節頭は前方に偏位を示していた (Fig. 3)。CT (3D-CT を含む) 像では左側関節突起の全周に骨様構造物を多数認めた (Fig. 4, 5, 6)。

臨床診断：顔面非対称を伴う左側顎関節部骨軟骨腫症。

治療経過

手術は，全身麻酔下で 2000 年 2 月 8 日にまず口内より下顎枝垂直骨切り術を通法に従って施行した。さらに近位骨片の可動性を十分にもとめた (Fig. 7)。しかし，近位骨片の可動性が増加した結果，術後内方への異常な骨片偏

Fig. 1 Pretreatment facial photograph.

Fig. 2 Pretreatment intra-oral view.

Fig. 3 Pretreatment orthopantomography. Calcified loose bodies were revealed surrounding the condyle of left TMJ.

Fig. 4 Preoperative CT scan view.

Fig. 5 Preoperative 3D-CT view.

Fig. 6 Preoperative 3D-CT view.

Fig. 7 Postoperative finding of intraoral vertical ramus osteotomy.

Fig. 8 Postoperative finding of pinning screw at left condyle neck region.

Fig. 9 The removed loose bodies were 88 white nodules 3 to 7 mm in diameter.

位を懸念したことと、術前の左側臼歯部の開咬量が約 3 mm であったことから、近位骨片を下方に約 3 mm 偏位するように下顎角部において 0.36mm ワイヤにて近・遠位骨片を一か所骨縫合した。その後低圧持続吸引用チューブを挿入し骨膜・粘膜縫合を行った。

次に、口外から側頭耳前切開法 (Al-Kayat-Bramley 法⁹⁾にて、頬骨弓と関節包を明示した。関節包の開放前に関節頸部を明示して、ここに長さ 8 mm のチタン製スクリューを植立し (Fig. 8)、ワイヤを結紮した。その後、関節包を開放したところ、関節滑液が多量に流出した。ここで関節頸部のスクリューに結紮したワイヤを外側に牽引し、関節頭を外側に脱臼させることで、直視下で上関節腔内より 88 個の軟骨片を摘出した (Fig. 9)。この操作時に関節頭を外側に牽引することで、関節腔の内側も確認できた

Fig. 10 Operative view of inside condyle head under this technique.

Fig. 11 Pathological finding.

Fig. 12 Pathological finding.

Fig. 13 Postoperative intra-oral view.

Fig. 14 Postoperative facial photograph.

(Fig. 10)。軟骨片は大部分遊離していたが数個は滑膜に癒着していた。この所見より本症例が、Milgram の病期分類¹⁰⁾の第3期と断定できなかったため、滑膜切除と円板切除も同時に行った。

術後は、2週間の顎間固定を行った後、開口訓練をしながら顎間ゴムにて3カ月間咬合の安定を計った。

病理組織所見：摘出物の表面には滑膜様の組織が見られ、その表層下に軟骨の形成および石灰化が認められた。しかし、骨化は認められなかった (Fig. 11, 12)。

現在、術後約1年5カ月が経過し、咬合状態は下顎正中は右側に3mmの偏位を認めるが、左側臼歯部の開咬は改善しており、咬合は安定している (Fig. 13)。また、顔面の非対称はほぼ改善している (Fig. 14)。開口量は術前と

Fig. 15 Postoperative orthopantomography.

Fig. 16 Postoperative CT scan view.

同様 48mm で、左側顎関節頭の前方滑走障害やその他の機能障害も認められない。しかし、開口時小さな関節雑音 (crepitus) の自覚がある。

同時期のパノラマ X 線写真 (Fig. 15), CT 所見 (Fig. 16) においても、再発を疑わせる所見は見られない。

考 察

滑膜性骨軟骨腫症は 1900 年に Reichel¹⁾ により報告された疾患であり、成因については当初感染が原因であるとされていた。しかし、現在は滑膜線維芽細胞が化生をおこして滑膜に軟骨の焦点ができ、これが関節腔に遊離するとした化生説^{11,12)} が有力である。

化生の誘因については外傷による 2 次的変化¹³⁾、または関節内障に伴う関節滑膜への持続的な機械的刺激¹⁴⁾と考えられている。本症例の場合 3 年前に左側顎関節の脱臼の既往があったこと、また、左側顎関節部に関節雑音を認めていたことなどから、化生説により軟骨腫が形成された可能性が高いと考えられる。しかし、この滑膜線維芽細胞が化生を引き起こす誘因については、さらに今後も十分な検討の必要があると考えられた。

治療法については、整形外科領域では軟骨性腫瘍摘出と

滑膜切除が一般的であるが、関節頭切除が行われている場合もある。膝・肘・股関節に生じた 30 例の滑膜性骨軟骨腫症の組織学的観察を行った Milgram¹⁰⁾ は、その病期を、第 1 期：滑膜内で軟骨組織が形成されている時期で遊離体が存在しない時期、第 2 期：滑膜内病変と遊離体の両者が存在する時期、第 3 期：滑膜は軟骨の化生を終了しており遊離体のみとなる時期、の 3 期に分類し、1→2→3 の経過をたどる自己限定性の疾患であると報告している。そして第 3 期であれば遊離体の摘出を行えば、滑膜切除が不要であり、また第 2 期であっても滑膜切除が必ずしも必要でないと述べている。また、大塩ら¹⁵⁾ も股関節の自験例から第 1 期、第 2 期であっても滑膜の完全切除は不要で、肉眼的に病的な部分のみの切除にとどめることが術後の機能回復のうえからも適当ではないかと述べている。さらに、山川ら¹⁶⁾ も同じく股関節部に生じた自験例について、関節の内外旋や亜脱臼操作を加えることで可及的に滑膜を摘出したと報告し、いずれも関節頭切除に対して否定的な意見が多いようである。しかし、膝関節では悪性化の報告¹⁷⁾ もあることから、各病期による治療方法の選択には、未だ検討の余地がある。今回、私たちは本疾患の治療法として、術後機能を考慮する必要性はあるものの、第 1 期や第 2 期と考えられた場合には、滑膜の完全な切除を行うことが必要であると考えた。

一方、顎関節部における本疾患の治療法について Ballard ら¹⁸⁾ は、遊離体の全摘出や滑膜切除は困難であるという理由から関節突起切除の必要があると主張している。また依田ら⁶⁾ も、病的な滑膜だけを部分的に切除することは困難であり、滑膜を完全に切除するには関節円板を摘出することが必要で、さらに病変の広がりによっては遊離体の完全摘出を考慮して関節突起切除を行うことを支持している。また、過去の文献から腫瘍摘出のほかに、滑膜切除が 62%、下顎頭切除が 40% であったことも報告している。さらに、八尾ら¹⁹⁾ も腫瘍摘出のほかに滑膜切除が 61%、下顎頭切除が 39% と報告している。このように狭小な顎関節においては下顎頭切除術が必須の処置と考えられている。しかし、Blankstijn ら²⁰⁾ は、病変が下顎骨までおよぶことは稀であるとし、唯一関節頭切除の必要性を否定している。

著者らは、顎関節部における本疾患の悪性化の報告はないものの再発の報告²¹⁾ があることから、可能なかぎり活動性病変と考えられる部分の切除が必要であるという考えに基づいて、まず第 1 に関節突起切除の併用を、第 2 に Combelles ら²²⁾ の Trans-zygomatic approach によって関節結節から頬骨弓までの骨を一時的に摘出し、腫瘍摘出後に復位する 2 方法を計画した。しかし、術後の顎機能障害

を最小限にし, さらに顔貌形態の改善も考慮して, 第3の方法として今回採用した口内法にて下顎枝垂直骨切り術を施行後, 顎関節頭を外側へ牽引することで関節を外側に脱臼させる方法を考案した。この方法を用いたことで関節頭内側を直視下で操作することが可能となり, 関節滑膜の十分な切除が行えた。また, 関節円板を切除したにもかかわらず顎関節機能の障害もなく, 咬合ならびに顔貌も同時に改善することができ良好な術後結果が得られたことから, 他の顎関節病変に対しても下顎枝垂直骨切り術の併用が有用であると思われたので, その手術術式について報告した。

結 語

今回, 顎関節滑膜性軟骨腫症を経験し, 顎関節への側頭耳前部切開に下顎枝垂直骨切り術を併用することで, 腫瘍の全摘出と十分な滑膜切除を行った。その結果術後の顎関節機能の障害もなく, 咬合ならびに顔貌の改善も同時に獲得することができ良好な術後結果が得られた。このことから, 本治療方法はその他の顎関節病変に対する応用も期待できると考えられた。

本論文の要旨は, 第45回日本口腔外科学会総会(2000年10月13日, 千葉市)にて発表した。

引用文献

- 1) Reichel, P.: Chondromatose der Kniegelenkkapsel, Arch Klin Chir 61: 717-724, 1900.
- 2) Inovay, J. Jr.: A rare case of benign synovialoma of the mandibular joint, Oral Surg Oral Med Oral Pathol 15: 775-780, 1962.
- 3) Dolan, E., et al.: Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint diagnosed by magnetic resonance image: Report of a case, J Oral Maxillofac Surg 47: 411-413, 1989.
- 4) Wise, D. P., et al.: Arthroscopic diagnosis and treatment of temporomandibular joint synovial chondromatosis: Report case, J Oral Maxillofac Surg 52: 90-93, 1994.
- 5) Mendonca-Caridad, J. J., et al.: Synovial chondromatosis of the temporo-mandibular joint: Arthroscopic diagnosis and treatment of a case, J Oral Maxillofac Surg 52: 624-625, 1994.
- 6) 依田哲也, 他: 顎関節に生じた Synovial osteochondromatosis の1例ならびに文献的考察, 日口外誌, 34: 1798-1715, 1988.
- 7) 谷尾和彦, 他: 顎関節鏡視により発見し得た滑膜軟骨腫症の一例, 米子医誌, 45: 20-26, 1994.
- 8) 林 解平, 他: 顎関節 synovial chondromatosis の1例, 日顎誌, 6: 47-53, 1994.
- 9) Al-Kayat, A., et al.: A modified pre-auricular approach to the temporo-mandibular joint and malar arch, Br J Oral Surg 17: 91-103, 1979.
- 10) Milgram, J. W.: Synovial osteo-chondromatosis: a histopathological study of thirty cases, J Bone Joint Surg 59: 792-801, 1977.
- 11) Jaffe, H. L.: Tumors and tumorous conditions of the bone and joint, Lea & Febiger, Philadelphia, 558-567, 1958.
- 12) Jeffreys, T. E.: Synovial chondromatosis. J Bone Joint Surg 49: 530-534, 1967.
- 13) Deboise, A., et al.: Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint possibly secondary trauma, Int J Oral Maxillofac Surg 20: 90-92, 1991.
- 14) Segami, N., et al.: Atypical synovial chondromatosis of the temporomandibular joint, Proceedings of the 16th Congress of IAMFS 423-424, 1992.
- 15) 大塩 至, 他: 股関節に発生した Synovial chondromatosis の5例, 臨整外, 19: 927-932, 1984.
- 16) 山川晃司, 他: 股関節に発症した滑膜性軟骨腫症の一例, 整形外科と災害外科, 48: 177-179, 1999.
- 17) Mullins, F., et al.: Chondrosarcoma following synovial chondromatosis. a case study, Cancer 18: 1180-1188, 1965.
- 18) Ballard, R., et al.: Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint. Cancer 30: 791-795, 1972.
- 19) 八尾正己, 他: 顎関節に生じた滑膜性軟骨腫症の一例—組織化学的検討および文献的考察—, 米子医誌, 45: 443-452, 1994.
- 20) Blankestijn, J., et al.: Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint. report of three cases and a review of the literature, Cancer 55: 479-485, 1985.
- 21) Lustmann, J., et al.: Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint, Int J Oral Maxillofac Surg 18: 90-94, 1989.
- 22) Combelles, R., et al.: Abord transzygomatique de l'articulation temporomandibular. (A. T. M.), Rev Stomatol Chir Maxillofac 91: 139-142, 1990.