滑膜性骨軟骨腫症と関節円板の石灰化を併発した 顎関節部ピロリン酸カルシウム結晶沈着症の1例

片山良子^{1,2)}・栗田賢一¹⁾・福田幸太¹⁾
近藤倫弘¹⁾・杉田好彦³⁾・前田初彦³⁾

A case of calcium pyrophosphate dehydrate crystal deposition with synovial chondromatosis and calcification of the disc in the temporomandibular joint

KATAYAMA Yoshiko^{1,2)}・KURITA Kenichi¹⁾・FUKUDA Kota¹⁾
KONDO Norihiro¹⁾・SUGITA Yoshihiko³⁾・MAEDA Hatsuhiko³⁾

Abstract: We report a case of calcium pyrophosphate dehydrate crystal deposition with synovial chondromatosis and calcification of the articular disc in the temporomandibular joint (TMJ). A 59-year-old-woman was referred to our hospital because of pain in the left TMJ and difficulty in opening and closing her mouth. The first clinical examination revealed that her maximal mouth opening was 18 mm, with open bite at the left molars. Radiological examination revealed a calcified mass in the left TMJ. The clinical diagnosis was synovial chondromatosis. Since arthroscopy showed no abnormal findings in the upper joint space, we tried to open the lower joint space. During surgery, we found a whitish-yellow mass on the lateral side of the capsule. When the lower joint space was opened, two loose solid masses were found in the anterior space. The lower surface of the disc was found to be calcified, and considerable white-yellow deposition was found in its posterior space. The disk, the loose masses, and the deposition were removed. Histological examination showed calcium pyrophosphate dehydrate crystal deposition, chondromatosis, and calcification of the disc. Three years 6 months postoperatively, the patient was found to be free of symptoms, without relapse.

Key words: temporomandibular joint (顎関節), calcium pyrophosphate dehydrate deposition disease (ピロリン酸カルシウム結晶沈着症), synovial chondromatosis (滑膜性骨軟骨腫症), calcification of articular disc (関節円板の石灰化)

緒 言

ピロリン酸カルシウム（以下 CPPD）結晶沈着症は、CPPD 結晶の沈着によりさまざまな病態を示す疾患である^{1,2)}。一方、滑膜性骨軟骨腫症は滑膜組織内の結合組織増生から軟骨組織を形成し、ときに関節遊離体を形成する疾患である。これら2つの疾患は膝関節で多く認められるが、顎関節で両疾患が併発することは極めてまれである。また滑膜性骨軟骨腫症で関節円板の石灰化を伴うこともま

れである^{3,4)}。

今回われわれは、左側顎関節部に滑膜性骨軟骨腫症と関節円板の石灰化を併発した CPPD 結晶沈着症の1例を経験したので報告する。

症 例

患 者：59 歳，女性。

初 診：2007 年 6 月。

¹⁾ 愛知学院大学歯学部顎口腔外科学講座
(主任：栗田賢一教授)

²⁾ 名古屋掖済会病院歯科口腔外科
(主任：足立守安部長)

³⁾ 愛知学院大学歯学部口腔病理学講座
(主任：前田初彦教授)

¹⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, School of Dentistry, Aichi Gakuin University (Chief: Prof. KURITA

Kenichi)

²⁾ Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Nagoya Ekisaikai Hospital (Chief: Dr. ADACHI Moriyasu)

³⁾ Department of Oral Pathology, School of Dentistry, Aichi Gakuin University (Chief: Prof. MAEDA Hatsuhiko)

受付日：2011 年 2 月 9 日

採択日：2012 年 3 月 27 日

写真1 初診時口腔内写真
咬合は切端咬合位で、左側上下臼歯部離開を認める。

写真2 初診時 CT 画像および MRI 画像（左側顎関節部矢状断）
A: CT 画像；1は2個の関節内遊離体を示す。dは石灰化した関節円板を示す。
B: MRI 画像；関節円板は前方位で下顎頭前方部に底信号の塊状物を示す。

主 訴：左側顎関節部の疼痛と開閉口障害。

既往歴：Ⅱ型糖尿病，高血圧症，高脂血症，腺腫様甲状腺腫。

家族歴：特記事項はない。

現病歴：20年前より両側顎関節部に雑音を自覚するも放置していた。数年前より左側顎関節部に時折疼痛を自覚するも自然寛解を繰り返した。当院受診4日前，左側顎関節部に激痛，開閉口障害を自覚して近医を受診した。非ステロイド系消炎鎮痛薬を投与され，疼痛は緩和するも，開閉口障害の改善は得られないため，精査，治療目的で紹介により来科した。

現 症：無痛開口域 10mm，有痛開口域 18mm で，左側顎関節部には自発痛，圧痛および開閉口時痛を認めた。咬合は切端咬合位を示し，閉口時に左側上下臼歯部離開を認めたことから，左側下顎頭部の異常が示唆された（写真1）。パノラマ X 線像では左側下顎頭前方部に不透過像を認めた。CT 像では左側下顎頭前方部に2個の石灰化物を認め，また，関節円板の位置に相当して石灰化を認めた。左側下顎頭の皮質骨には不整を認めた。MRI 像では関節円板の前方転位を認め，左側下顎頭前方部に塊状石灰化物を認めた（写真2）。

処置および経過：2007年7月，左側顎関節部滑膜性骨軟骨腫症の診断のもと，左側顎関節上関節腔に対し顎関節鏡視を試みた。しかし上関節腔には異常を認めなかった（写真3）。病変は下関節腔にあると判断し，顎関節開放手術に移行した。関節包外側部には黄白色の病変を認めた。下関節腔を解放後，顎関節鏡を用いて同腔内を確認すると，下関節腔後方滑膜間腔から円板後方結合組織の移行部にかけて淡黄白色粥状物の沈着を認めた（写真3）。また関節円板下面には石灰化を認め，下関節腔前方滑膜間腔内には2個

の関節内遊離体を認めた（写真4，図1）。下関節腔と関節円板に及ぶ病変と判断し，関節円板切除術，および下関節腔中央部から後方部にかけて淡黄白色粥状物の沈着を可及的に電気メスで切除した。術後1日目より万能開口器を用いて開口練習を開始し，術後1か月より開口域 47mm となった。咬合不全は術後約1か月で閉口時に切端部Ⅰ級咬合に改善し，左側上下臼歯部離開は消失した。疼痛は術後6か月時には消失した。術後4年経過した現在，画像所見上再発徴候は認めず，開口域 47mm，疼痛症状や開閉口障害，咀嚼障害などは認めず，経過良好である。

病理組織学的所見：下関節腔滑膜部では，線維性組織内に浸潤する細顆粒状あるいは結節状の結晶沈着物を認めた。結晶沈着物はヘマトキシリン・エオジン染色では紫色，アリザリン・レッド染色では赤色，フォン・コッサ染色では黒色を呈したことから CPPD 結晶沈着症と診断した（写真5）。

脱灰した関節円板の標本所見（写真6）では上関節腔に接する面は平坦であり（写真6Ⅰ），中央部から下面には硝子化した線維性組織，および軟骨や骨組織を認めた（写真6Ⅱ）。関節円板から連続した後方滑膜部では，硝子化した線維性組織内に下関節腔滑膜部にある細顆粒状の沈着物と類似した構造を認めた。脱灰標本のため推定ではあるが後方滑膜部にも CPPD 結晶沈着を認めた（写真6Ⅲ，写真7）。

2個の関節遊離体には硝子様組織，軟骨様組織および線維性骨組織を認めたが CPPD 結晶沈着と類似した構造は認めなかった（写真8）。

X 線解析，定性・定量分析：下関節腔滑膜部沈着物質の微細組織を，微小 X 線回析装置（リガク，RAD-rC + PSPC）にて定性分析した結果，CPPD 結晶に近い回析図形を測定

写真3 術中関節鏡写真

*は前方を示す。

上関節腔には異常を認めなかった。
下関節腔後方滑膜部には淡黄白色粥状物の沈着を認めた。

写真4 摘出標本

摘出標本下面を示す。

*は前方，縫合部は外側を示す。

Lは関節遊離体を示す。

▲：矢印部に石灰化を認める。

C：関節円板後方滑膜部の CPPD 結晶沈着を示す。

L：下関節腔前方滑膜間腔内より摘出した。

図1 本症例顎関節の模式図

点で示す領域は下関節腔滑膜部と関節円板後方滑膜部の CPPD 結晶沈着を示す。

U：上関節腔 L：下関節腔

I：関節遊離体 D：関節円板

M：下顎頭 T：関節隆起 E：外耳

写真5 下関節腔滑膜部の病理組織像 (C'はCPPD結晶沈着を示す)

A：ヘマトキシリン・エオジン染色×40；C'は線維性組織内に細顆粒状，結節状のCPPD結晶を示す。

B：フォン・コッサ染色×40

；C'は黒色の細顆粒状のCPPD結晶を示す。

C：偏光顕微鏡像

；C'は複屈折性の菱形や長方形の構造を示す。

写真6 摘出した関節円板部の脱灰

標本病理組織像 (関節円板矢状断面)

ヘマトキシリン・エオジン染色×40

*は前方を示す。

I：関節円板上面は異常を認めない。

II：関節円板の下面には骨組織と硝子化した線維性組織を認める。

III：関節円板後方は写真7参照。

写真7 写真6Ⅲの強拡大を示す

ヘマトキシリン・エオジン染色×200

脱灰標本ではあるがCは細顆粒状，結節状の結晶構造を示している。

写真8 関節遊離体の病理組織像

ヘマトキシリン・エオジン染色×40

硝子様組織，軟骨様組織および線維性骨組織を認める。

表 1 定性・定量分析結果

定性・定量分析した結果では Ca と P が検出され、酸化物として定量したところ Ca と P はほぼ 1 対 1 の割合で存在する化合物は CaHPO_4 , $\text{CaHPO}_4 \cdot 2\text{H}_2\text{O}$, ピロリン酸カルシウム系化合物と考えられる。

した。X 線マイクロアナライザー (JEOL, JXA-8530FA WDX システム) にて定性・定量分析した結果では Ca と P が検出され、酸化物として定量したところ Ca/P の Cation 比は $7.30/6.68 = \text{約 } 1.09$ であることからピロリン酸カルシウム系化合物であることを示した (表 1)。

病理組織学的診断：CPPD 結晶沈着症。

滑膜性骨軟骨腫症。

考 察

CPPD 結晶沈着症は軟骨、滑膜、腱、靱帯に CPPD 結晶が析出沈着することにより炎症を生じ、痛風に似た疼痛発作を示す。このため CPPD 結晶沈着症は偽痛風と呼ばれて

いる。また変形性関節症様変化を示した状態は CPPD 結晶性関節症といわれている。顎関節では、関節近傍に腫瘤を呈した CPPD 結晶性関節症の一亜型である腫瘤性 CPPD 結晶沈着症が多く報告されている^{1,5~12)}。

一般に CPPD 結晶沈着症は年齢に従い増加するので高齢者に多いといわれ、50 歳以上の女性にやや多く、本症例もこれに該当した。好発部位は膝関節であるが、顎関節ではわれわれが渉猟した限りにおいて CPPD 結晶沈着症は自験例を含め男性 13 例、女性 22 例の計 35 例である。その内、9 例が急性滑膜炎症状を主症状としており^{13~15)}、残りの 26 例については明らかな結節性病変を認めている^{1,5~12)}。このことから顎関節においては腫瘤性 CPPD 結晶沈着症が多いといえる。治療法は、自験例のごとく病変の可及的な摘出術が 26 例、消炎療法 1 例、洗浄療法 7 例、経過観察 1 例であった。再発は摘出術を行った 3 例でみられた。

McCarty は下記のような CPPD 結晶沈着症の診断基準を提唱している^{2,16)}。Ⅰ：X 線解析試験や化学的分析などによる結晶成分の同定をする。Ⅱ a：補正偏光顕微鏡を用いた結晶の性状と形状の確認をする。Ⅱ b：X 線写真上での石灰化像を認める。Ⅲ a：大関節の場合は急性関節炎の所見を有する。McCarty はさらに CPPD 結晶沈着症の病態を typeA から E に分類している。typeA：偽痛風型。typeB：偽性関節リウマチ型。typeC：偽性変形性関節症型 (急性炎症発作を伴う)。typeD：偽性変形性関節症型 (急性炎症発作を伴わない)。typeE：無症候型。

自験例では病理組織学的所見に加えて、X 線解析、定性・定量分析でピロリン酸カルシウム結晶の沈着を認めたことから、McCarty による CPPD 結晶沈着症の診断基準におけるⅠの確定診断を得た。そして左側下顎頭に変形を認め、疼痛を伴うことから typeC に分類した。また術中所見より、関節包周囲外側部に黄白色の病変を認めたことから自験例は腫瘤型 CPPD 結晶沈着症と考えられる。

上述の通り、自験例は関節包外側に腫瘤性病変を示すとともに、下関節腔滑膜部と関節円板後方滑膜部の CPPD 結晶沈着、関節遊離体、関節円板の下面における石灰化、下顎頭の骨変形とこれに伴う左側臼歯部離開といった多様な病態を認める極めてまれな症例であり、その発症機序について以下の通り推察した。

CPPD 結晶沈着症と滑膜性骨軟骨腫症の関連については、一般的に滑膜性骨軟骨腫症の誘因として関節腔内の炎症による刺激が考えられていることから、自験例では CPPD 結晶沈着症が滑膜性骨軟骨腫症の誘因の一つであると考えられた。

また滑膜性骨軟骨腫症に伴う関節円板の石灰化は 4 例報告されている^{3,4)}。CPPD 結晶沈着症に伴い関節円板を含めた病変を切除した症例は散見されるが、石灰化を認めた症例は自験例のみである。他関節においては関節円板と同じ線維軟骨組織から成る椎間板や半月板で、CPPD 結晶沈着症に伴う軟骨組織の石灰化を認める症例が報告されている¹⁷⁾。自験例では CPPD 結晶沈着症のみならず、滑膜性骨軟骨腫症によって関節円板の石灰化が助長されたと考えられる。

以上より自験例においては CPPD 結晶沈着症による下関節腔の炎症により、滑膜性骨軟骨腫症や関節円板の石灰化を誘発し、またこれに伴う退行性変化として下顎頭の変形が認められたと考えられる。あるいは、変形性顎関節症が内在性外傷によって生じ、下顎頭の剥離骨折をきたした骨片から関節遊離体を形成し、CPPD 結晶を誘発した可能性もある。

下顎頭の骨変化は術後に再生されたが、術前と比較すると骨髄信号低下を認めた。関節円板を除去したことによって関節節と下顎頭が直接接触することで下顎頭の骨硬化が進んだことが考えられる。

顎関節において CPPD 結晶沈着症に滑膜性骨軟骨腫症が合併している報告は自験例を含めて 3 例と少数であるので今後、症例を集積して検討する必要がある⁶⁾。自験例では術後 4 年経過した現在、経過良好であるが報告中に 3 例の再発も報告されているので今後も再発に注意して経過観察する必要がある。

謝辞

本症例の分析は未来口腔医療センターの機器を使用した。愛知学院大学歯学部歯科理工学講座 鶴田昌三先生、河合達志先生に深謝申し上げます。

引用文献

- 1) McCarty DJ, Kohn NN, et al : The significance of calcium phosphate crystals in the synovial fluid of arthritic patients: The "pseudogout syndrome" I. Clinical aspects. *Ann Intern Med* 56: 711-737, 1962.
- 2) 石田 剛, 今村哲夫: 結晶沈着と関連疾患. *病理と臨床*. 19: 307-319, 2001.
- 3) 木賀紀文, 東條 格, 他: 顎関節円板の大部分に骨化を認めた滑膜性軟骨腫症の 1 例: *日口外誌* 51: 204-207, 2005.
- 4) Koyama J, Ito J, et al : Synovial chondromatosis in the temporomandibular joint complicated by displacement and calcification of the articular disk: report of two cases. *Am J Neuroradiol* 22: 1203-1206, 2001.
- 5) Pynn BR, Weinberg S, et al : Calcium pyrophosphate dihydrate deposition disease of the literature. *Oral Surg* 79: 278-284, 1995.
- 6) 青山 繁, 木野孔司, 他: 顎関節のピロリン酸カルシウム結晶沈着症(偽痛風)を伴う滑膜軟骨腫症の 1 例. *日口外誌*. 45: 387-389, 1999.
- 7) Nakagawa Y, Ishibashi K, et al : Calcium pyrophosphate deposition disease in the temporomandibular joint: report of two cases. *J Oral Maxillofac Surg* 57: 1357-1363, 1999.
- 8) Matsuo A, Uchida M, et al : A case of pseudogout of the temporomandibular joint. *Jpn J Oral Diag/Oral Med* 14: 253-258, 2001.
- 9) Osano H, Matsumoto K, et al : Calcium pyrophosphate dihydrate arthropathy with condylar destruction of the temporomandibular joint. *J Oral Sci* 45: 223-226, 2003.
- 10) 小澤幹夫, 青木伸二郎, 他: 顎関節に発生した結節性偽痛風の 1 例. *日口外誌*. 52: 358-361, 2006.
- 11) 森川美雪, 寒河江登志朗, 他: 顎関節の偽痛風にみられた結晶物分析の一考察. *日大口腔科学*. 33: 42-45, 2007.
- 12) 宮元亮三, 藤井雅敏, 他: 顎関節に生じたピロリン酸カルシウム結晶沈着症(偽痛風)の 1 例. *口科誌*. 57: 58-63, 2008.
- 13) Hutton, CW, Doherty M, et al : Acute pseudogout of the temporomandibular joint: A report of three cases and review of the literature. *Br J Rheumatol* 26: 51-52, 1987.
- 14) 服部 宇, 水谷英樹, 他: 顎関節上関節腔洗浄療法にて症状緩解したピロリン酸カルシウム結晶症の 1 例. *日口外誌* 46: 36-38, 2000.
- 15) 中川洋一, 下田信治, 他: 顎関節結晶沈着症の診断とそのプロセス. *日顎誌*. 13: 282-290, 2001.
- 16) 樋口 博, 高岸憲二: 結晶誘発性関節炎の病態, 診断, 治療—CPPD 結晶沈着症について—. *Geriatr. Med.* 43: 905-908, 2005.
- 17) 神谷武志, 屋良哲也, 他: 脊椎後縦靱帯石灰化症の 1 例. *整形外科と災害外科*. 52: 607-611, 2003.