顎関節に発生したSynovial chondromatosis の1例

井上哲生^{1,2)}・茅野照雄²⁾・野口明彦¹⁾・内田正興¹⁾

Synovial osteochondromatosis of the temporomandibular joint: Report of a case

Akio INOUE^{1,2)}・Teruo KAYANO²⁾・Akihiko NOGUCHI¹⁾・Masaoki UCHIDA¹⁾

はじめに

Synovial osteochondromatosis は、膝関節を好発部位とする比較的新な疾患であり、顎関節に発生する本疾患はきわめてまれとされている。

今回、われわれは27歳女性の右顎関節に発生した1例を経験したので報告する。

I. 症 例

患 者：27歳 女性。

初 診：昭和55年10月■日。

主 訴：右顎関節部疼痛。

既往歴および家族歴：特記事項なし。

現病歴：来院2年前に右顎関節部の疼痛を自覚するも自然に消退したことがある。今回は1週間前に咬み合わせがうまくゆかなくなり、某大学病院を受診しX線上、右顎関節部の腫瘍を指摘され、手術をすすめられたが、精査を希望し当科を受診した。

現 症：右耳介前方、頬骨弓直下に20×20 mm、骨様硬のびまん性腫脹を認め、軽度の圧痛を示した。口腔内は、閉口時の咬合状態は良好であったが、開口時、顎関節雑音と疼痛をきたし、軽度の開口障害および下顎の右側への偏位を認めた(図1, 2)。また、顎運動時に右側下顎頭の動きは触知できなかった。

X線所見：(1)オルソパントモグラフィー(以下パントモと略)・下顎骨斜位像では、関節突起周囲に直径5 mm以下の小石灰化様物質が多数集積している像が認められ

図1 術前の咬合位
下顎の偏位は認められない。

図2 開口位では下顎が右側(患側)に偏位する。

た(図3, 4)。(2)顎関節近接撮影像では、開口位・閉口位ともに右側関節突起は前方に偏位しており、また、開閉口運動にともなう関節突起の動きはほとんど認められなかった(図5, 6)。(3)顎関節部断層撮影像では、ほぼ正常な形状を示す関節突起と、これに接することなく周囲に不規則な形の石灰化様物質を認めた(図7)。(4)CT では拡大した関節包のすぐ内側に接するように、関節突起の周囲に、大小さまざまな小石灰化様物質が多数認められた(図8, 9)。

処置および経過：以上の所見から Synovial chondro-

¹⁾ 癌研究会付属病院顎顎科

(主任：内田正興部長)

²⁾ 癌研究所病理部

(主任：北川知行部長)

¹⁾ Department of Head and Neck Surgery, Cancer Institute Hospital (Chief: Masaoki Uchida)

²⁾ Department of Pathology, Cancer Institute (Chief: Tomoyuki Kitagawa)

受付日：昭和57年10月25日

図 3 オルソパントモグラフィー
右関節突起周囲に小石灰化様物質(L.B.)を認める。

図 6 顎関節近接撮影(開口位)
関節内に小石灰化様物質(L.B.)を認める。

図 4 下顎骨斜位
図 4 と同様に関節突起周囲に小石灰化様物質(L.B.)を多数認める。

図 7 顎関節断層撮影
関節突起周囲に大小さまざまな小石灰化物質(L.B.)を多数認める。

図 5 顎関節近接撮影(閉口位)
閉口位でも関節突起(A.P.)は前方に偏位している。

図 8 CT 像
拡大した関節包のすぐ内側に接するように小石灰化様物質(L.B.)が多数認められる。

図 9 CT 像 (coronal section)
図 8 と同様の所見が認められる。

図 10 術中所見
腫瘍(S.O.)は頬骨弓(Z.A.)および関節突起(A.P.)に付着している。術野下方に耳下腺(P.G.)が認められる。

matosis の臨床診断のもとに、昭和55年12月■日全麻下に右耳介前部に約5cmの縦切開を加え、腫瘍摘出術を施行した。腫瘍は関節包と思われる薄い被膜に被われており、頬骨弓に付着し、内側では関節突起にも付着していたが鈍的に剝離することができた(図10)。また関節包内は液体の貯留はなく、腫瘍により満たされていた。

図 11 摘出物
黄白色で表面は滑沢な軟骨様腫瘍の集塊であった。

図 12 病理組織像弱拡大(×40)
線維性結合組織(F.C.)下に多数の軟骨様組織(C)を認める。

図 13 一部には石灰沈着(CA)あるいは、化骨様変化(O)が認められる(×40)。

この腫瘍を数個に分割し、さらに関節突起もエアードリルで切断した。術後、下顎の偏位防止のために連続歯牙結紮を施し、ゴムにて約50日索引した。術後1年10か月後の現在、咬合状態も良好で再発も認めていない。

図 14 病理組織像強拡大像 (×100)
滑膜様組織 (S) から軟骨組織巢 (C) へ移行する cartilaginous metaplasia (CM) が認められる。また軟骨細胞に軽度の異型性が認められる。

病理組織学的所見：肉眼的に、摘出物は黄白色で表面は滑沢な軟骨様の多数の小腫瘤の集塊であった (図11)。脱灰後の病理組織標本でみると、表面は滑膜様の線維性

結合組織で被われ、その下層に小結節状ないし分葉状の軟骨様組織があり (図12)、これらの一部には石灰沈着あるいは化骨性変化が認められる (図13)。滑膜様組織から軟骨組織巢への移行 (いわゆる cartilaginous metaplasia) が随所にみられる (図14)。また軟骨細胞の核には多形性があり、軽度の異型性が認められた (図14)。以上の所見より、病理組織学的に Synovial osteochondromatosis と診断した。

II. 考 察

1 Synovial osteochondromatosis の頻度

Synovial osteochondromatosis は関節の滑膜組織下の結合組織の mataplasia により、滑膜中に軟骨組織が形成される疾患で、この軟骨組織はやがて滑膜より遊離し関節内遊離体 (loose body) を形成するとされている¹⁾。さらに、この軟骨組織が石灰化を起こしたり、あるいは化骨する場合もある。本疾患の好発部位は膝関節で、顎関節に発生するものはきわめてまれであり、Murphy²⁾によれば32例の Synovial chondromatosis のうち22例が

表 1 おもな報告症例とX線所見

No.	報 告 者	報告年	性別	年齢	X 線 所 見
1	Axhausen ⁴⁾	1933	M	21	Negative
2	Trevor ⁵⁾	1952	F	63	D.J.D.
3	Schneider ⁶⁾	1960	F	52	J.B.
4	Feist ⁷⁾	1960	F	59	J.B.
5	Schulte ⁸⁾	1969	F	31	J.B., D.J.D.
6	Kusen ⁹⁾	1969	F	28	Negative
7	Silver ¹⁰⁾	1971	M	18	J.B.
8	Ballard ¹¹⁾	1972	M	42	Negative
9	Ballard ¹¹⁾	1972	F	37	Radioopaque mass
10	Alling ¹²⁾	1973	F	53	J.B.
11	Tasanen ¹³⁾	1974	F	40	Upper joint mass, D.J.D.
12	Rosen ¹⁴⁾	1977	F	42	W.J.S., S.C., Anterior spur
13	Akhtar ¹⁵⁾	1977	F	53	Negative
14	Noyer ¹⁶⁾	1977	F	44	W.J.S., L.M., J.B., J.B., S.C.
15	Millar ¹⁷⁾	1978	F	61	J.B.
16	Ronald ¹⁸⁾	1978	M	49	Negative
17	Ronald ¹⁸⁾	1978	M	47	
18	Ronald ¹⁸⁾	1978	M	75	W.J.S., D.J.D.
19	Ronald ¹⁸⁾	1978	F	32	
20	Ronald ¹⁸⁾	1978	F	48	D.J.D., J.B.
21	Blenkinsopp ¹⁹⁾	1978	M	60	D.J.D., J.B.
22	渡辺 ²⁰⁾	1975	F	39	L.M.
23	Takagi ²¹⁾	1981	M	36	

D.J.D.: Degenerative joint disease J.B.: Joint Bodies W.J.S.: Widening of the joint space
S.C.: Sclerotic change L.M.: Limitation of motion

膝関節に発生し、顎関節に発生した症例は認めていない。また Spujet³⁾ は本疾患の50%以上が膝関節に発生し、全体の約1割は両側性に出現すると述べている。われわれが集め得たかぎりでは顎関節に発生した本疾患の報告は Axhausen⁴⁾ が最初であり、その後、表1に示すように欧米では報告⁵⁻¹⁹⁾ が散見されるが、本邦では渡辺²⁰⁾、高木²¹⁾の報告をみるのみであった。

2. 臨床所見

本症の臨床所見は、一般に疼痛・腫脹・運動制限などであるが²⁾、顎関節に発生した場合は耳介前方の圧痛を伴う腫脹・顎運動の制限・顎運動時の疼痛および開口時の下顎の患側への偏位などがみられ、ときに耳痛・開口時の関節雑音を示すこともある^{11,17-18)}。本症例では顎関節部疼痛・咬合時の疼痛・開口時の下顎の患側への偏位・開口制限などの所見がみられた。

3. X線所見

1) 関節内遊離体 (loose body)

本症例ではパントモ・下顎骨斜位像で、顎関節部に直径5 mm以下の小石灰化様物質が多数認められたが、一般には顎関節に発生した場合に関節内遊離体（以下、遊離体と略）がX線的に確認できるものは全症例の約半数とされている^{2,18)}。これは遊離体の軟骨組織の石灰化の程度が軽い場合や、ほとんど化骨を起こしていない症例では、X線的に確認するのが難しいためと考えられる。本症例では化骨を起こしていたこともあり、整形外科領域に発生する Synovial chondromatosis のX線像とよく一致した。

遊離体の位置は関節突起に接するとする報告¹⁷⁾や関節突起に小突起を作るようにみえるという報告¹⁴⁾がある。本症例では側面断層撮影像で遊離体は関節突起に近接してみえたが、CTでは拡大した関節包のすぐ内側に接しており、関節突起周囲はX線透過性であった。これは断層撮影に比較しCTのほうが水平的位置関係が明瞭に描出されるためと考えられ、遊離体の位置確認にCTが有用であると考えられる。

2) 遊離体以外のX線所見

本症例では開閉口運動に伴う関節突起の動きはほとんど認められず、閉口位においても関節突起は前方に偏位し、関節腔が拡大した状態であった。この点に関し本症例と同様、関節腔が拡大するという報告^{16,17)}や、あるいは逆に減少するという報告¹⁸⁾もある。一方、このX線上に認められた関節突起の偏位および運動制限は、本疾患に特徴的な開口時の患側への下顎の偏位とよく一致し、またCT上の拡大した関節包は臨床的には耳介前方の腫脹として認められ、臨床所見とX線所見がよく一致した。これ以外のX線所見として文献上関節突起および関節窩の硬化性変化があげられているが^{14,16)}、本症例では認められなかった。

4. 病理組織学的所見

本疾患の成り立ちは前述のように滑膜あるいは線維性結合組織中の cartilagenous metaplasia であるとされており、したがって線維性結合組織から軟骨組織へ移行する所見が必ずみられるはずであり、これが病理組織学的な診断基準となる。また本疾患にみられる軟骨組織は細胞成分に富み、異型を示したり¹¹⁾、あるいは二核・多核の軟骨細胞を認める場合¹⁸⁾もあるとされている。本症例では軟骨細胞の軽度の異型を認めたが、一般にこの異型所見から軟骨肉腫と病理診断が下される場合もあり、組織像のみで確定診断が下せない場合には、臨床経過・臨床所見・X線所見などを加味し、診断を下さなければならないとされている¹¹⁾。

5. 治療

本疾患の治療法は、整形外科領域では遊離体の全摘出および滑膜切除で十分とされている²⁾。顎関節で十分にこの手術を行うためには関節突起を切除したほうが望ましいと考えられる。実際、初回手術で関節突起を残し、遊離体の全摘出と滑膜切除を行った症例で術後の疼痛や咬合異常を伴う開口障害のために再手術で関節突起を切除した症例^{16,18)}も報告されている。特に本症例のようにCTで深部への拡がりや確認された症例では、関節突起の切除を行わないと、遊離体の半分近くは除去できなかったであろうと考えられる。また、関節突起の切除による機能障害も術直後よりの顎間固定により十分な咬合状態が得られ、ほとんど障害を残さないことからみても、十分な術野を得るために関節突起の切除は積極的に行われるべきであろうと考えられた。

III. 結 語

われわれは、27歳女性の右顎関節に発生したきわめてまれな Synovial osteochondromatosis の1例を経験したので報告した。

本論文の要旨は、1981年10月第26回日本口腔外科学会総会において発表した。

引用文献

- 1) Jaffe, H.L.: Tumors and tumorous conditions of the bone and joint. Philadelphia, Lea & Febiger, 1958, p 558.
- 2) Murphy, F.P., Dahlin, D.C., Sullivan, C.R.: Articular synovial chondromatosis. J Bone Joint Surg 44: 77 1962.
- 3) Spujet, H.J., Dorfman, H.D., Fechner, R.E., et al.: Lesions of Synovial origin, tumors of bone and cartilage, Atlas of Tumor Pathology. Second series. Fascicle 5, A.F.I.P.

- 1970, p 391.
- 4) Axhausen, G.: Pathologie und therapie des Kiefergelenks. Fortschr Zahnheilkunde 9: 171 1933.
 - 5) Trevor, D.: A case of synovial chondromatosis of the temporomandibular joint. Postgrad Med J 28: 408 1952.
 - 6) Schneider, G.: Zur Chondromatose des Kiefergelenks. Dtsch Zahnärztl Z 3: 1233 1960.
 - 7) Feist, J.H. and Gibbons, T.G.: Osteochondromatosis of the temporomandibular joint. Radiology 74: 291 1960.
 - 8) Schulte, W.C. and Rhync, R.R.: Synovial chondromatosis of temporomandibular joint: report of a case. Oral Surg 28: 906 1969.
 - 9) Kusen, G.J.: Chondromatosis report of case. J Oral Surg 27: 735 1969.
 - 10) Silver, C.M., Simon, S.D., Litchman, H.M., et al.: Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint. J Bone Joint Surg 53: 777 1971.
 - 11) Ballard, R. and Weiland, H.L.: Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint. Cancer 30: 791 1972.
 - 12) Alling, C.C., Raason, D.H., Staats, D.J., et al.: Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint. J Oral Surg 31: 691 1973.
 - 13) Tasanen, A., Lamberg, M.A. and Kotilainen, R.: Osteochondromatosis of the temporomandibular joint. Oral Surg 38: 845 1974.
 - 14) Rosen, P.S., Pritzker, K.P.H., Greenbaun, J.: Synovial chondromatosis affecting the temporomandibular joint. Arthritis and Rheumatism 20: 736 1977.
 - 15) Akhtar, M., Mahajan, S. and Koff, E.: Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint: report of a case. J Bone Joint Surg 59-A: 266 1977.
 - 16) Noyer, A.M., Holgate, R.C., Fireman, S.M., et al.: The radiologic findings in synovial chondromatosis (chondrometaplasia) of the temporomandibular joint. The Journal of Otolaryngology Supplement NO. 3. 6: 45 1977.
 - 17) Millar, A.S., Harwick, R.D. and Daley, D.J.: Temporomandibular joint synovial chondromatosis: report of case. J Oral Surg 36: 467 1978.
 - 18) Ronald, J.B., Kelly, E.E. and Weiland, L.H.: Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint. J Oral Surg 36: 13 1978.
 - 19) Blenkinsopp, P.T.: Loose bodies of the temporomandibular joint, synovial chondromatosis or osteoarthritis. Brit J Oral Surg 16: 12 1978.
 - 20) 渡辺克益, 小池 真, 牧野惟男: 極めて稀なる顎関節 Synovial chondromatosis の 1 例. 臨整外 10: 95 1975.
 - 21) Takagi, M., Ishikawa, G.: Simultaneous villonodular synovitis and synovial chondromatosis of the temporomandibular joint: report of a case. J Oral Surg 39: 699 1981.