症 例

臨床的に悪性が疑われたが細胞診にて推定診断
しえた腱鞘巨細胞腫（びまん型）の1例日本医科大学整形外科¹⁾, 同 第2病理²⁾, 同 病院病理部³⁾同 多摩永山病院病理部⁴⁾北川 泰之^{1,2)} 白井 康正¹⁾ 中山 義人¹⁾ 角田 隆^{1,2)}中原 義人¹⁾ 浅野 伍朗²⁾ 松原 美幸³⁾ 前田昭太郎⁴⁾

穿刺吸引細胞診により推定診断しえたまれな関節外発生の腱鞘巨細胞腫（びまん型）の1例を経験したので、その細胞像を中心に報告した。

症例は50歳、女性で、右膝関節に隣接して13×8cmの腫瘍が認められた。大きさや画像所見から悪性軟部腫瘍が疑われたが、穿刺吸引細胞診でclass IIと判定、腱鞘巨細胞腫と推定診断した。細胞像は、多数の組織球様細胞がみられ、その一部に褐色顆粒（ヘモジデリン）を摂取している細胞や細胞質が明るく泡沫状にみえる含脂肪組織球（黄色腫細胞）が認められた。また、線維芽細胞様細胞や破骨細胞型多核巨細胞も少数認められた。生検にて腱鞘巨細胞腫と診断され、腫瘍摘出術が施行された。腫瘍は驚足を中心とした充実性腫瘍を形成しており、関節腔との連続性および関節内病変は認められなかった。組織学的には多結節状で裂隙状空間および絨毛状構造と豊富な血管を有する腱鞘巨細胞腫、びまん型の像を呈していた。腱鞘巨細胞腫、びまん型の診断に穿刺吸引細胞診が有効であることが示唆された。

Key words : Tenosynovial giant cell tumor—Fine-needle aspiration cytology—Knee joint—Case report

I. はじめに

腱鞘巨細胞腫（びまん型）はその発生部位が主として大関節であり、関節周囲に広くびまん性に増殖する

ことから、手指に好発する腱鞘巨細胞腫（限局型）とは区別されるまれな疾患であり、関節内病巣を伴わない純粋な関節外発生例はさらにまれである¹⁾。臨床診断上、軟部肉腫との鑑別が問題となり重要である。今回、われわれは右膝関節驚足滑液包より発生し関節外に発育増殖し、穿刺吸引細胞診により推定診断し得たと考えられる腱鞘巨細胞腫（びまん型）の1例を経験したのでその細胞所見を中心に報告する。

II. 症 例

患 者：50歳、女性

主 訴：右膝腫痛

家族歴および既往歴：特記すべきことなし

臨床経過：平成2年夏頃より右膝内側部の腫脹が出

A case of tenosynovial giant cell tumor, diffuse type

Yasuyuki KITAGAWA^{1,2)}, M.D., Yasumasa SHIRAI¹⁾, M. D., Yoshito NAKAYAMA¹⁾, M.D., Takashi TSUNODA^{1,2)}, M. D., Yoshito NAKAHARA¹⁾, M.D., Goro ASANO²⁾, M.D., Miyuki MATSUBARA³⁾, C.T., Shotaro MAEDA⁴⁾, M.D.

¹⁾Department of Orthopaedics, ²⁾Department of Pathology, Pathological Divisions, ³⁾Central Clinical Laboratory, ⁴⁾Department of Pathology, Tamanagayama Hospital, Nippon Medical School

論文別刷請求先 ☎113 東京都文京区千駄木1の1の5 日本医科大学整形外科 北川泰之

平成6年5月6日受付

平成6年9月9日受理

写真 1 CT像。脛骨に接して12 cm×7.5 cm×4.5 cmの占拠性病変を認める

写真 3 細胞像。多数の円形～卵円形細胞および炎症性細胞浸潤をみる (Pap. 染色, ×400)

現したが放置していた。平成4年夏頃より右膝部痛が出現し、平成4年9月24日当院整形外科を受診した。同部に関節と隣接して熱感を伴った13×8 cmの弾性軟な腫瘍を認めた。単純X-Pでは脛骨近位部内側骨皮質の軽度の圧排が認められた。CTでは12 cm×7.5 cm×4.5 cmの腫瘍が関節および脛骨と接して存在し、enhance CTにて低吸収域と高吸収域との混在を認めた(写真1)。MRIではT₁強調像で低信号、T₂強調像で不整な渦巻状の高信号を示す腫瘍が脛骨および関節に接して存在していた。平成4年10月1日穿刺吸引細胞診でclass IIと判定、腱鞘巨細胞腫と推定診断された。血管造影では著明なhypervascularityを示した。平成4年12月1日生検にて腱鞘巨細胞腫と診断され、平成4年12月15日腫瘍摘出術および膝関節鏡が施行された。脆弱な被膜を有する腫瘍が驚足を中心とした充実性腫瘍を形成しており、驚足を構成する縫工筋腱、薄筋腱、半腱様筋腱、さらに、半膜様筋腱、内側側副靱帯および脛骨皮質内(驚

写真 2 摘出標本。腫瘍は驚足腱(矢印)および膝内側側副靱帯(矢頭)と密に接している

写真 4 細胞像。ヘモジデリン貪食細胞を認める (ペルリン青染色, ×400)

足付着部)に及んでいた(写真2)。近位側へは縫工筋腱、薄筋腱、半腱様筋腱に沿って発育していた。関節腔との連続性および関節内病変は認められなかった。

細胞所見: 出血性背景の中に円形から卵円形細胞を中心とした細胞の集簇を認めた(写真3)。また、多数の組織球様単核細胞がみられ、その一部にヘモジデリンを摂取している細胞(写真4)や細胞質が明るく泡沫状にみえる含脂肪組織球(黄色腫細胞)を認めた(写真5)。破骨細胞型多核巨細胞も少数みられた(写真6)。これらの細胞の核異型は軽度であった。

病理組織学的所見: 肉眼的には白色～黄褐色の混在した多結節状を呈する充実性腫瘍であった。組織学的には多結節状で裂隙状空間および絨毛状構造と豊富な血管を有し、炎症性細胞、ヘモジデリン保有細胞、泡沫状の細胞質を有する細胞がシート状に配列し(写真7)、細胞密度は中等度～高度であるが、核分裂像は2～3/10 HPF認められた。また、破骨型多核巨細胞

写真5 細胞像. 含脂肪組織球を認める (Pap. 染色, $\times 400$)

写真6 細胞像. 多核巨細胞を認める (Pap. 染色, $\times 400$)

写真7 組織像. 類円形から多稜形の細胞および泡沫状細胞を認める (H-E 染色, $\times 200$)

写真8 組織像. 多核巨細胞を認める (H-E 染色, $\times 200$)

写真9 組織像. 絨毛構造に富む (H-E 染色, $\times 40$)

III. 考 察

1. 腱鞘巨細胞腫は1852年 Chassagnac らにより cancer of tendon sheath としてはじめて記載されてから, 同様の組織像を示す病態に対して synovial xanthoma, myeloxanthoma などさまざまな名称で呼ばれてきた²⁾. 1941年 Jaffe らは関節内病変である色素性絨毛結節性滑膜炎などを含め同様の組織像を示す病態に対して, 腱鞘, 滑液包, 関節の滑膜より生じる炎症性疾患として系統的に記載し, Pigmented villonodular synovitis, bursitis, tenosynovitis という名称を提唱し, さらに, 発育様式の違いは発生部位の解剖学的特徴, つまり, 腫瘍が周囲組織の抵抗減弱部位に進展していくことに基づいていると述べた³⁾. しかし, Enzinger らは自律性増殖, 再発, きわめて少数ながら転移を示すことなどから腫瘍説を支持し tenosynovial giant cell tumor と呼んだ¹⁾. さらに, その発育様式より局所型とびまん型とに分類を行い,

や主に好酸性の細胞質を有する類円形から多稜形の細胞を認めた (写真8). 絨毛状構造は限局型に比し顕著であり, いわゆる PVNS に近い像であった (写真9). 以上の所見から本症例は病理組織学的には良性腫瘍と判断したが, 周囲への進展状況から嚴重な経過観察が必要と考えた.

さらに、両者の間には組織学的にも若干の差があるとした。腱鞘巨細胞腫（びまん型）は主に膝や足などの荷重大関節に生じ、主に関節内に発生するいわゆるPVNSが関節外にも進展をみせたものと考えられている。しかし、本症例のごとくまれに関節外に発生することが知られており、その報告はEnzingerらによればJaffe, Peterson, Probst, Weissner, Atmore, Arthaudらによる数例のみで、以後われわれの渉猟し得た範囲では報告をみない^{3,4-8)}。

2. 腱鞘巨細胞腫（びまん型）の問題点の1つは術前診断の困難さである。主に手指に発生する限局型あるいは主に膝関節内に発生するいわゆる色素性絨毛結節性滑膜炎に比しまれであり、その関節外発生はさらにまれであること、また、広範囲に進展を示し、隣接軟部組織および骨への浸潤がみられることもあるなどの発育様式を示すことから臨床的には滑膜肉腫やMFHなどの悪性軟部腫瘍や結節性筋膜炎との鑑別が難しい。Dawinskibaらは顎関節の腱鞘巨細胞腫（びまん型）の細胞診像について記載しており、豊富な細胞質と細胞質内ヘモグロビンを有する円形から卵円形細胞と多くの多核巨細胞を認めるも、核異型を認めなかったとしている⁹⁾。また、鑑別すべき腫瘍の細胞像と術前穿刺吸引細胞診の有用性について述べ、その中で悪性腫瘍に関しては滑膜肉腫とMFHを鑑別診断にあげ、いずれもその特徴的な細胞像から鑑別可能としている。本邦では腱鞘巨細胞腫の細胞診像について垣花らの詳細な記載があり、特徴的細胞像はDawinskibaの報告と同様、組織球様細胞、泡沫細胞、線維芽細胞様細胞、多核巨細胞からなる多彩な像を示すとしている¹⁰⁾。われわれの症例も限局型に比べ細胞採取量が多い傾向があるものの基本的には同様の細胞像を示した。また、垣花らは細胞像からは線維性組織球性腫瘍との鑑別が問題となることがあるが臨床的所見を加味して診断すれば術前に正診が得られるとしている¹⁰⁾。本症例の経験からも腱鞘巨細胞腫（びまん型）の診断に穿刺吸引細胞診が有用であることが示唆される。

Summary

Tenosynovial giant cell tumor, diffuse type, especially the extra-articular form, is extremely rare. We report a case of this tumor in which a presumptive diagnosis was made by fine-needle aspiration cytology, after a malignant

tumor was suspected clinically.

The patient was a 50-year-old female with a 13×8 cm mass in the immediate vicinity of her right knee joint. We suspected a malignant tumor because of its size and radiographic findings, but fine-needle aspiration cytology suggested tenosynovial giant cell tumor (class II). Cytologic findings consisted of many histiocytotic cells, including cells with intracytoplasmic hemosiderin-like granules, and xanthomatous cells. Multinucleated giant cells and spindle cells were also seen. The diagnosis by open biopsy was tenosynovial giant cell tumor, diffuse type. At operation, a solid mass was found centered on the pes anserinus, and did not involve the joint. Microscopically, the tumor displayed multilobulated, slit-like cavities and villus formation, so we made a diagnosis of tenosynovial giant cell tumor, diffuse type. Fine-needle aspiration cytology appeared to be useful in the diagnosis of tenosynovial giant cell tumor, diffuse type.

文 献

- 1) Enzinger, F.M., Weiss, S.W.: Soft tissue tumors, pp 638~658, CV Mosby, St. Louis, 1983.
- 2) Galloway, J.D.B., Brooders, A.C., Ghormley, R.K.: Xanthoma of tendon sheaths and synovial membranes: An clinical and pathologic study, Arch Surg., 40: 485~538, 1940.
- 3) Jaffe, H.L., Lichtenstein, L., Sutro, C.J.: Pigmented villonodular synovitis, bursitis and tenosynovitis: a discussion of the synovial and bursal equivalents of the synovial lesion commonly denoted as xanthoma, xanthogranuloma, giant cell tumor or myeloplaxoma of the tendon sheath, with some consideration of this tendon sheath lesion itself. Arch Pathol., 31: 731~765, 1941.
- 4) Peterson, L.F.A., Johnson E.W.Jr., Woolner L.B.: Extraarticular pigmented villonodular synovitis of the knee: Report of case. Am. J. Clin. Pathol., 30: 158~162, 1958.
- 5) Probst F.P.: Extraarticular pigmented villonodular synovitis affecting bone: The role of angiography as an aid in its differentiation from similar bone-destructing conditions, Radiologe, 13: 436~442, 1973.
- 6) Weissner, J.R., Robinson, D.W.: Pigmented villonodular synovitis of iliopectineal bursa: A case report, J. Bone. Joint. Surg., 33 A: 988~992, 1951.
- 7) Atmore W.G., Dahlin D.C., Ghormley R.K.: Pigmented villonodular synovitis: A clinical and pathologic study. Minn. Med., 39: 196~202, 1956.

- 8) Arthaud J.B. : Report of 11 lesions in nonarticular locations, *Am. J. Clin. Pathol.*, 8 : 511~517, 1972.
 - 9) Dawinskiba S., Eriksson L., Elnor A. et al. : Diffuse pigmented villonodular synovitis of the temporomandibular joint diagnosed by fine-needle aspiration cytology, *Diagn Cytopathol*, 5 : 301~304, 1989.
 - 10) 垣花昌彦, 岩田正一郎, 浦崎政浩・他 : 腱鞘巨細胞腫 Giant Cell Tumor of Tendon Seath の穿刺吸引生検細胞診 ; 剥離細胞像の検討, *日臨細胞誌*, 22 : 39~49, 1983.
-