臨床報告

顎関節穿刺吸引細胞診が有効であった滑膜軟骨腫症の1例

林 智 子 篠 原 淳* 山 田 陽 一
大 村 元 伸 林 富 雄 風 岡 宜 暁

Fine-needle Aspiration Cytology (FNAC) was Effective for Diagnosis of Synovial Chondromatosis in the Temporomandibular Joint

TOMOKO HAYASHI, ATSUSHI SHINOHARA*, YOICHI YAMADA,
YUKINOBU OHMURA, TOMIO HAYASHI AND YOSHIAKI KAZAOKA

Abstract : Synovial chondromatosis is a disease with cartilaginous metaplasia of the connective tissue in the synovial membrane, but reports of synovial chondromatosis in the temporomandibular joint (TMJ) are rare. Many reports of synovial chondromatosis in the region include images of calcification in the radiological imaging examination. However, it is difficult to diagnose the disease state in the case of an image without calcification. In this paper, we report that magnetic resonance imaging (MRI) and fine-needle aspiration cytology (FNAC) were useful for diagnosing synovial chondromatosis without calcification in radiological images. A 35-year-old woman was referred to our hospital with a slight preauricular swelling in the left TMJ region. The calcification image was not found in the region by orthopantomography and computed tomography. The MRI revealed a low T1 signal and high T2 signal. The FNAC revealed that it was not chondrosarcoma or synovial sarcoma, but was highly suspicious of chondromatosis. When the left upper articular cavity was opened, there were many cartilaginous loose bodies, and so resection of all these bodies and synovectomy were performed under a diagnosis of synovial chondromatosis. Histological examination of the loose bodies demonstrated synovial chondromatosis. There has been no recurrence for 19 months after surgery.

Key words : temporomandibular joint (顎関節), synovial chondromatosis (滑膜軟骨腫症),
a fine-needle aspiration cytology (穿刺吸引細胞診)

[Received Feb. 3, 2014]

緒 言

滑膜軟骨腫症は、滑膜の表層下組織や間質結合組織内が化生変化により軟骨結節を生じ、滑膜より遊離することによって関節内に遊離体を生じる疾患である^{1,2)}。顎関節に生じる滑膜軟骨腫症のほとんどは石灰化像により発見されているが、画像検査で石灰化像を呈さないものは診断が難しい。今回われわれは左側顎関節部に発生し、画像検査で石灰化像を呈さない滑膜軟骨腫症において、磁気共鳴画像装置 (MRI) と穿刺吸引細胞診が診断と治療計画に有効で

あったのでその概要を報告する。

症 例

患者：30歳代の女性。

初診：201X年2月。

主訴：左側耳前部腫脹および圧痛。

既往歴：特記事項なし。

現病歴：初診2年前より開口時に左側顎関節部の疼痛と違和感が存在するも放置していた。初診3か月前、同部の腫脹を認め、近在病院からの紹介により当科を受診した。

愛知医科大学病院歯科口腔外科 (主任：風岡宜暁教授)

* 松本歯科大学 口腔顎顔面外科学講座 (主任：篠原 淳教授)

Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Aichi Medical University Hospital (Chief: Prof. YOSHIAKI KAZAOKA)

1-1 Yazakokarimata, Nagakute, Aichi 480-1195, Japan.

* Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Matsumoto Dental University (Chief: Prof. ATSUSHI SHINOHARA)

図 1 左側顎関節部に石灰化像や異常所見は認めない
A: パノラマ X 線写真
B: シュラー氏法による X 線写真 (右側)
C: シュラー氏法による X 線写真 (左側)

現症：左側耳前部に腫脹を認めた。開閉口時の雑音や疼痛は認めず，最大開口量は切歯間距離で 25 mm であった。なお，咬合状態は良好であった。

全身所見：体格中等度，栄養状態は良好であった。

口腔内所見：特記事項なし。

臨床検査所見：血液一般，生化学検査，尿検査において異常所見は認めなかった。

画像所見：初診時，パノラマ X 線写真では左右の下顎頭の大きさに差は認めるものの，骨の変形，下顎頭周囲の石灰化像は認めなかった (図 1A)。シュラー氏法による X 線写真では左側顎関節部に異常所見は認めなかった (図 1BC)。

CT では，左側咀嚼筋間隙 (左側咬筋内側) に低吸収域は認めるものの，石灰化像は認めなかった (図 2A)。MRI では，下顎頭を覆うように内外側に存在する，境界明瞭で内部がやや不均一な領域を認めた。T1 強調画像では低信号，T2 強調画像では高信号であった (図 2B)。

臨床診断：左側顎関節部腫瘍の疑い。

穿刺吸引細胞診：外来にて耳前部に局所麻酔を行い，下外側法で 18G 針を上関節腔内に穿刺。約 1ml の内容液を吸引し，細胞診検査を施行した。ギムザ染色，パパニコウ染色標本では悪性像を示す所見は認めず，粘液様物質の中に多数の軟骨細胞，フィブリン浸出物などを認めた。セルブロック法で作製した HE 標本では軟骨細胞は細胞密度の増加，核の腫大，二核細胞を認め，滑膜軟骨腫症を疑う所見であった (図 3ABC)。

経過：インフォームドコンセントを行い，患者の了承が得られたため，全身麻酔下に手術を施行した。左側耳前部

図 2 CT 像および MRI 像 (冠状断)
A: 左側咀嚼筋間隙 (左側咬筋内側) に低吸収域は認めるも，石灰化像は認めない。
B: T2 強調画像において，下顎頭周囲に高信号域を認めた。

図 3 穿刺吸引細胞診像

- A: (ギムザ染色, $\times 200$) 悪性像は認めず, それぞれの核が突起を伸ばし連なっている, 軟骨細胞を疑う像を認めた。
- B: (パパンニコウ染色, $\times 200$) パパンニコウ分類 Class1, 軟骨の塊が標本作製上乾燥傾向にあり, オレンジ G に好染を認めるものの, 粘液様物質の中に, 軟骨基質とみられる細胞周囲の空隙を認める軟骨細胞集塊を認めた。
- C: (セルブロック法で作製した H-E 染色, $\times 200$) 軟骨細胞は密度が高く, 核の腫大, 核小体の出現, 二核細胞を認めた。

切開により, 関節包外側を露出し (図 4A), 同部に切開を加え, 上関節腔を開放したところ, 関節液とともに上関節腔内に多数のゼリー状遊離体を認めた。肉眼的にすべての遊離体を摘出し, さらに徒手で下顎を下方へ牽引し, 内側の遊離体を摘出した後, 上関節腔を洗浄した (図 4B)。

一部肥厚を認めた外側関節滑膜は切除し, 関節円板は異常を認めなかったため温存した。術中, 開閉口時に問題がないことを確認し, 手術を終了した。

病理組織学的所見: 摘出物は 19 個, 直径は最大約 5mm の類円形遊離体で, 中心部が硝子軟骨からなり, 一部には石灰化像を認めた。遊離体周囲は線維軟骨層, 線維組織層に囲まれていた (図 5AB)。

病理診断: 滑膜軟骨腫症。

術後 1 年 7 か月経過時の開口量は 45mm であり, 関節雑音や関節痛も認めず経過良好である。

考 察

滑膜軟骨腫症は膝関節や肘関節, その他股関節などに多く発生すると報告されている。Milgram は膝, 肘や股関節部に生じた 30 例をその進行時期によって三期に分類した。第一期は滑膜内で軟骨組織が活発に形成され, 関節腔内に遊離体が形成されていない時期。第二期は滑膜内で軟骨組織が増大し, 関節腔内に遊離体を排出する時期。つまり, 滑膜内病変と遊離体の両者が存在する時期である。第三期では滑膜内での軟骨形成は認めず, 遊離体のみとな

る²⁾。Saotome らは, 遊離体は第二期, 第三期のみで認められ, 軟骨組織は遊離体となったあとも滑液より栄養供給を受け増大し, 第一期から第三期への経過をたどると報告している³⁾。Milgram はその過程で石灰化や骨化を生じるものがあるとも述べている²⁾。

本疾患は顎関節では比較的少なく, 臨床症状は開口障害, 腫脹, 疼痛, 関節雑音など顎関節症症状と類似している。関節内において, 遊離体の石灰化が著明でない症例や骨化を認めない症例では, 単純 X 線や CT で病変の確認が困難であり, MRI が診断に適していると報告されている⁴⁾。しかし, 初期や周囲組織への進展を認めない症例では, 顎関節症と診断されることもある。2001 年から 2012 年までの本邦における顎関節滑膜軟骨腫症は 19 例の報告がある (表 1)⁵⁻²²⁾。これらの報告では年齢は 21 から 72 歳で加齢とともに発生数が多く, 性別は男性 6 例, 女性 13 例で女性に多かった。19 例中 16 例⁸⁻²²⁾は単純 X 線, CT 所見で顎関節部に石灰化像を認め, 診断は比較的容易に行われていた。石灰化像を認めない 3 例のうちの 1 例は MRI において, 境界明瞭な腫瘤が下顎頭を取り囲むように存在したことから良性腫瘍と診断され⁵⁾, もう 1 例は周囲組織への進展を伴っていたため悪性腫瘍が疑われたが, 生検により滑膜軟骨腫症と診断された⁶⁾。また, joint effusion を認めた周囲組織への進展を伴わない 1 例では顎関節症と診断された⁷⁾。すなわち MRI により初期あるいは石灰化を伴わない滑膜軟骨腫症例では, 腫瘍あるいは顎関節症と判断さ

図4 術中写真および摘出した遊離体

A: 左側耳前部切開により, 関節包外側を露出させた。

B: 上関節腔内に多数のゼリー状の遊離体を認めた。

図5 遊離体の病理組織像

A: (H-E 染色, $\times 40$) 中心は硝子軟骨からなり, 周囲は線維軟骨層, 線維組織層に囲まれていた。

B: (H-E 染色, $\times 200$) 硝子軟骨には一部石灰化を認め, 軟骨細胞は核の腫大を認めた。

れる可能性が高いため, さらなる診断方法が必要とされる。中でも顎関節鏡による検査も診断に有効と考えられるが, 外来で使用可能な顎関節鏡を有している施設は限られているという現実も存在する。一方, 顎関節穿刺は joint effusion を含むⅢb型顎関節症のパンプング療法や上関節腔洗浄療法において, 臨床では広く行われている^{23, 24)}。また, Ⅲb型顎関節症において18G針による上関節腔穿刺吸引細胞診の報告がある²⁵⁾。藤井らは, 軟骨肉腫の粘液型では石灰化が乏しくCTでやや不均一な低信号, MRIのT2強調画像では著明な高信号を示すと報告している²⁶⁾。また, 軟骨肉腫に特徴的な骨破壊像や骨への浸潤性増殖が明らかでない場合, 滑膜軟骨腫症と診断されることも多いとの報告もある^{27, 28)}。Blacksinらは, 滑膜肉腫について, MRIにおいては, 境界明瞭で5cm以下の大きさでは均一の場合が多く, T1強調画像では筋肉と同等またはそれより高い信号強度, T2強調画像では脂肪と同等で高

い信号強度との報告している²⁹⁾。ゆえに, 耳前部の腫脹を認め, MRI, T2強調画像で高信号域を認めた本症例では滑膜肉腫との鑑別に上関節腔あるいは顎関節部の穿刺吸引細胞診も有用であると考えられた。そこで, 顎関節部の穿刺吸引細胞診を施行したところ, 悪性腫瘍の否定と, 滑膜軟骨腫症の存在を十分に疑う結果を得ることができた。

顎関節の滑膜軟骨腫症の治療法には, 遊離体の完全摘出のために関節円板, 時には下顎頭切除も必要とされていた⁵⁾。しかし, 近年では機能温存の観点から関節包外に進展してない症例では, 変性した滑膜の部分切除と遊離体の摘出を行い, 滑膜変性を認めない症例では, 遊離体のみを摘出する方法が増加している。一方, 関節包外への進展例で悪性腫瘍の可能性を考え, 拡大手術が行われた報告は¹⁹⁾, 進展した滑膜軟骨腫症での軟骨肉腫への悪性化例や術後病理診断での軟骨肉腫の判明例が背景にある³⁰⁻³²⁾。術前の

表 1 本邦における顎関節滑膜軟骨腫症の報告例 (2001 年から 2012 年)

	報告年	報告者	年齢	性別	画像診断	手術切除部位
1	2001	諏訪ら ⁸⁾	49	女	単純 X 線, CT にて石灰化像あり	遊離体, 円板 3/4, 下顎頭
2	2001	古田ら ⁹⁾	21	女	単純 X 線, CT にて石灰化像あり	軟骨片, 滑膜, 円板
3	2003	横溝ら ¹⁰⁾	68	男	CT にて不透過像あり MRI にて側頭骨進展病変あり	病変, 側頭骨
4	2003	Ishii ら ¹¹⁾	38	女	CT にて石灰化像, 下顎頭内側浸潤病変あり	遊離体, 全滑膜, 円板, 下顎頭
5	2003	北岡ら ⁵⁾	52	女	単純 X 線・CT にて異常なし MRI にて下顎頭を覆う病変あり	病変, 滑膜, 下顎頭
6	2003	渋谷ら ¹²⁾	57	女	CT にて石灰化像様病変あり	遊離体
7	2004	田中ら ¹³⁾	61	女	単純 X, CT, MRI にて石灰化像, 周囲骨吸収病変あり	遊離体
8	2004	目瀬ら ¹⁴⁾	44	女	単純 X 線, CT にて石灰化像, 下顎頭内側病変あり	遊離体, 円板, 滑膜一部
9	2005	木賀ら ¹⁵⁾	58	男	単純 X 線, MRI にて石灰化像あり	遊離体, 円板
10	2005	井藤ら ¹⁶⁾	61	女	単純 X 線, CT にて石灰化像, 周囲骨吸収病変あり	病変, 下顎頭
11	2007	島末ら ¹⁷⁾	32	女	単純 X 線, CT, MRI にて石灰化像あり	遊離体
12	2007	島末ら ¹⁷⁾	65	男	単純 X 線, CT にて石灰化像あり	遊離体
13	2008	榎本ら ¹⁸⁾	31	男	単純 X 線にて石灰化像, MRI にて病変あり	病変, 滑膜一部
14	2008	Yokota ら ¹⁹⁾	52	男	CT にて石灰化像, CT, MRI にて中頭蓋窩進展病変あり	病変, 下顎頭, 周囲組織
15	2010	川島ら ⁷⁾	62	女	単純 X 線にて異常なし, MRI にて joint effusion あり	遊離体, 滑膜一部
16	2012	儀武ら ⁶⁾	72	男	単純 X 線, CT にて周囲骨吸収病変, MRI にて病変あり	病変
17	2012	片山ら ²⁰⁾	59	女	単純 X 線にて不透過像, CT, MRI にて石灰化像あり	病変, 円板
18	2012	立川 ²¹⁾	20 歳代	女	CT にて石灰化像, MRI にて病変あり	病変
19	2012	片山ら ²²⁾	63	女	単純 X 線, CT にて不透過像あり, MRI にて病変あり	病変, 滑膜, 円板
20	2013	自験例	35	女	単純 X 線にて異常なし, MRI にて病変あり	遊離体, 滑膜一部

MRI と顎関節穿刺吸引細胞診により滑膜軟骨腫症の疑いが強かった本症例では、術中に一部の滑膜変性と上関節腔内の多数の遊離体を確認したため、滑膜軟骨腫症第二期と診断し、遊離体摘出と変性滑膜の切除のみを行った。その後、再発は認めていない。

以上より、単純 X 線, CT, MRI 検査で石灰化像を認めず、MRI T2 強調画像で高信号を示し、かつ顎関節症状を有する症例では、顎関節穿刺吸引細胞診が滑膜軟骨腫症の診断精度向上と手術法決定に寄与できると考えられた。

結 論

今回われわれは左側顎関節部に発生し、画像検査で石灰化像を呈さない滑膜軟骨腫症において、磁気共鳴画像装置 (MRI) と穿刺吸引細胞診が診断と治療計画に有効であったのでその概要を報告した。

謝辞および利益相反 稿を終えるにあたり、本症例の病理診断に際し、御助言をいただきました愛知医科大学病院病理部原一夫名誉教授、北村淳子先生に深謝いたします。

本論文について利益相反はありません。

本論文の要旨は、第 57 回日本口腔外科学会総会 (2012 年 10 月、横浜) において発表した。

引用文献

- 1) 今村哲夫, 榎原 壤: 関節鼠の病理. 病理と臨床, 8: 311-317, 1990.
- 2) Milgram, J.W.: Synovial chondromatosis. A histopathological study of thirty cases. J Bone Joint Surg, 59: 792-801, 1977.
- 3) Saotome, K., Tamai, K., Koquchi, Y., et al.: Growth potential of loose bodies: an immunohistochemical examination of primary and secondary synovial osteochondromatosis. J Orthop Res, 17: 73-79, 1999.
- 4) Testaverde, L., Perrone, A., Caporali, L., et al.: CT and MR findings in synovial chondromatosis of the temporomandibular joint: our experience and review of literature. Eur J Radiol, 78: 414-418, 2011.
- 5) 北岡栄一郎, 鎌田伸之, 山之内浩司, 他: 顎関節に発生した滑膜性軟骨腫症の 1 例. 日口外誌, 49: 513-516, 2003.
- 6) 儀武啓幸, 佐藤文明, 木野孔司: 中頭蓋窩への進展を伴う顎関節滑膜軟骨腫症の 1 例. 日顎誌, 24: 17-21, 2012.
- 7) 川島 渉, 高山賢一, 倉木美穂, 他: 治療経過中に病期の進行を認めた顎関節滑膜性軟骨腫症の 1 例. 日口外誌, 56: 511-514, 2010.
- 8) 諏訪達彦, 市原秀記, 土井田誠, 他: 顎関節に発生した滑膜

- 軟骨腫症の1例. 岐阜大医紀, 49 : 83-85, 2001.
- 9) 古田治彦, 久保諒修, 北郷明成, 他 : 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. 日顎変形誌, 11 : 209-214, 2001.
- 10) 横溝尚子, 田代三恵, 須田 聡, 他 : 側頭骨に進展した顎関節滑膜性軟骨腫症の1例. 日科誌, 52 : 76-81, 2003.
- 11) Ishii, J., Kino, K., Kobayashi, J., et al.: Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint: long-term postoperative follow-up of the residual calcification. J Med Dent Sci, 50 : 133-137, 2003.
- 12) 渋谷智明, 高野裕史, 高橋 哲, 他 : 顎関節滑膜軟骨腫症に対して関節鏡視下手術を行った1症例. 関節鏡, 28 : 53-56, 2003.
- 13) 田中太邦, 森家祥行, 竹信保尚, 他 : 顎関節滑膜軟骨腫症の1例. 静岡総合病医誌, 18 : 117-120, 2004.
- 14) 目瀬 浩, 中山周子, 澤田誠司, 他 : 耳前部の腫脹を来した顎関節滑膜軟骨腫症の1例. 岡山歯会誌, 23 : 221-225, 2004.
- 15) 木賀紀文, 東條 格, 新田哲也, 他 : 顎関節円板の大部分に骨化を認めた顎関節滑膜軟骨腫症の1例. 日口外誌, 51 : 204-207, 2005.
- 16) 井藤隆太, 友澤裕樹, 高櫻竜太郎, 他 : 顎関節に発生した滑膜軟骨腫症の一例. 臨 MRI, 16 : 48-53, 2005.
- 17) 島末 洋, 宮内美和, 平岡美里, 他 : 顎関節に発生した滑膜性骨軟骨腫症の2例. 広島大歯誌, 39 : 57-61, 2007.
- 18) 榎本明史, 飯田征二, 足立忠史, 他 : MR 画像で継時的変化を観察した顎関節滑膜軟骨腫症の1例. 日口外誌, 54 : 59-63, 2008.
- 19) Yokota, N., Inenaga, C., Tokuyama, T., et al.: Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint with intracranial extension. Neurol Med Chir (Tokyo), 48 : 266-270, 2008.
- 20) 片山良子, 栗田賢一, 福田幸太, 他 : 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. 日口外誌, 58 : 366-370, 2012.
- 21) 立川隆治, 平川勝洋 : 下顎関節突起に発生した滑膜性骨軟骨腫症 (図説). 広島医, 65 : 639-640, 2012.
- 22) 片山暁恵, 川上哲司, 藤田宏人, 他 : 顎関節鏡視下手術後に再発した顎関節滑膜軟骨腫症の1例. 日顎誌, 24 : 181-185, 2012.
- 23) 大平明範, 村田尚子, 関山三郎 : 顎関節症に対する上関節腔パンピング洗浄システムの考案と臨床応用. 日顎誌, 13 : 51-57, 2001.
- 24) 保坂栄勇, 瀬上夏樹, 堀 信介, 他 : クローズドロック症例に対する上関節腔洗浄療法 (arthrocentesis) の臨床効果に関する検討. 日口外誌, 40 : 454-457, 1994.
- 25) 篠原 淳, 風岡宜暁, 川瀬哲人, 他 : 顎関節腔洗浄療法による上関節腔内浮遊物排出効果の検討. 日口診誌, 12 : 30-32, 1999.
- 26) 藤井雅彦, 岩間祐基, 小西淳也, 他 : 骨腫瘍の画像診断. 日放線技会誌, 59 : 1201-1208, 2003.
- 27) 松延知哉, 岩本幸英 : 骨・軟骨疾患の画像診断. THE BONE, 18 : 577-582, 2004.
- 28) 西田 淳, 嶋村 正 : 軟骨肉腫～良性腫瘍との鑑別～. 臨床画像, 17 : 96-100, 2001.
- 29) Blacksin, M.F., Siegel, J.R., Benevenia, J., et al.: Synovial sarcoma: frequency of nonaggressive MR characteristics. J Comput Assist Tomogr, 21 : 785-789, 1997.
- 30) Dunn, E.J., McGavran, M.H., Nelson, P., et al.: Synovial chondrosarcoma. J Bone Joint Surg, 56 : 811-813, 1974.
- 31) Mullins, F., Berard, C.W. and Eisenberg, S.H.: Chondrosarcoma following synovial chondromatosis. Cancer, 18 : 1180-1188, 1965.
- 32) Evans, S., Boffano, M., Chaudhry, S., et al.: Synovial chondrosarcoma arising in synovial chondromatosis. Sarcoma, 2014 : Article ID 647939, 2014.