足関節に発生せるいわゆる色素性絨毛 結節性滑膜炎の1例

九州厚生年金整形外科

入 江 政 男

A Case Report of Pigmented Villonodular Synovitis in the Ankle-joint

By

M. Irie

Orthopedi Clinic of Kyushu Welfare pension Hospital

Pigmented villonodular synovitis, tenosynovitis, and bursitis are well known and not unknown. The etiology of this disease is unknown.

Jaffe, Lichtenstein (1941) concluded that the lesion is an inflammatory response to some unknown agent and that the disease is not a true tumor or neoplasm.

Prior to this time, this disease was known by various names, including xanthoma, xanthogranuloma, giant-cell tumor, myeloplaxoma and benign polymorphocellular tumor of the synovial membrane etc.

Microscopically, this disease is characterized by hyperplasia and proliferation of synovial-lining cells and undifferentiated connective-tissue cells of the synovial membrane with formation of large number of polyhedral or spindle-shaped stromal calls.

These cells may contain abundant lipid, hemosiderin, or both and multinuclear giant cells are common.

A case of pigmented villonodular synovitis in the left ankle was reported in this paper.

A nineteen year-old female was first seen on December 1968, with a complaint of pain and swelling in the left ankle. There was no history of injury. Two months before admission, the pain, which was present with use, but not at rest. There was a good, painless range of motion. Roentgenograms revealed no pathological findings. A diagnosis of bursitis in the left ankle was made.

At operation on December 28, 1968, an irregular, nodular, yellowish, brown, soft tumor was encountered which extended from ankle joint into the Chopart-joint.

A synovectomy, as complete as possible, was performed. The microscopic diagnosis was pigmented villonodular synovitis.

本疾患の病変は滑膜、滑液包、腱鞘およびこれに隣接する筋や靱帯に及ぶと言われる。

1861年 Broca の初報告以来その組織所見の多彩なことから慢性出血性絨毛性滑膜炎、慢性出血性関節炎、慢性出血性絨毛性結節性滑膜炎、滑膜血管内皮腫、色素性絨毛結節性滑膜炎、良性巨細胞腫、良性滑膜腫、黄色肉芽腫などと種々の名称で呼ばれて来たが、1941年 Jaffe-Lichtenstein は本疾患が炎症性のものであるとして Pigmented Villonodular Syno-

vitis と命名したが、最近では本邦でもいわゆる色素性絨毛結節性滑膜炎の名称で報告される症例が多く、名称もほぼ一定したの感がある。

一般に単発性に発生し、主として膝関節、時に股関節や足関節に見られることがあるが、足関節に発生した例は割合稀であり、まだ報告例もそう多くないようである。

私は足関節の腫脹と疼痛を訴えて来院した患者の摘出標本で、病理組織学的に Pigmented Villonodular

Synovitis と診断された1症例を経験したので報告し、若干の文献的考察を加えた。

症例：19才の女子、職業は事務員。

主訴：左足関節部の腫脹と疼痛。

家族歴：特記すべきことなし。

既往歴：2才の頃脊髄性小児麻痺と言われたことがあるが、現在その後遺症と思われる所見は認められない。

現病歴：1年位前より左足関節部の腫脹に気付いていたが疼痛はなかった。次第に腫脹が強くなり、正座すると牽引痛があるようになったので、某外科医を受診、リウマチを疑われて検査をうけたが、リウマチではないと言われて注射、内服などの治療を2～3ヶ月間受けたが、大した症状の変化もないのでその後放置していたが、気候が寒くなり、寒冷にさらされると疼痛があるようになり、歩行時疼痛が増強するようになったので、昭和43年12月12日、当科を受診。

来院時左足関節部は全体的に腫脹し、内踝部、外踝部にもやや弾性軟の腫瘤をふれ、穿刺を試みたが、穿刺液は得られず、一応左足関節部滑液膜炎と診断し、消炎剤の内服とステロイド注入を行ったが、2週を経過しても疼痛や腫脹に全く変化が見られないので、入院、切除することにした。

入院時所見：全身的には体格栄養中等度、胸部理学所見にも特記するような異常は認めない。

局所的には左足関節部は腫脹し、外踝部では鳩卵大、内踝部では拇指頭大のやや弾性軟の腫瘤をふれる。熱感はほとんどなく、皮膚の変色は認めない。腫瘤には圧痛なく、歩行時軽度の跛行が認められるが、足関節の運動性は良好であった。

再度穿を試みたが、穿刺液は得られず。

X線所見：足関節には特異の変化は認められない。

検査成績：血球、血色素、血液像、出血、凝固時間、血清CaやP、アルカリ性フォスファターゼ、酸性フォスファターゼなど皆正常範囲であり、RAテスト、C反応蛋白、ムコ蛋白、ASLOも正常、尿検査も異常なく、心電図、胸部X線も異常所見は認められない。

手術所見：患部を駆血下にまず外踝部の腫瘤の上に縦切開を加えて病巣部を展開すると、関節包の膨隆が見られ、その下に褐色の腫瘤状のものが現われ、関節包を切開すると褐色の腫瘤が現われ、この時始めて本症を疑い観察すると滑膜自身が著しく肥厚し、滑液包

全体が完全な腫瘤状となっているようで、腫瘤は距腿関節内に入り込み、内踝の方に長い茎となって続いており、内踝部にも同様に小縦切開を加えると、同様の腫瘤があり、外踝の方に向って関節内に腫瘤の一部が入り込んでいた。

距腿関節部の腫瘤は内踝部と外踝部の2つの塊として、完全に摘出する事が出来た。

しかし病変部は更に距踵関節やショパール関節の方にも及んでいたが、腫瘤の形成はなく、関節包や靱帯などに茶褐色の変化がみられたので、外側の皮切を延長して可及的に搔爬を行ったが、完全に搔爬することは出来なかった。関節面を観察すると距腿関節面の脛骨側に僅かに浸蝕された部分が認められた。

病理学的所見：肉眼的には滑膜の表面は分葉状で凹凸が見られ大豆大の半球状の小結節が認められる。全全として茶褐色の腫瘤で一部に白黄色の部分が存在する。腫瘤は柔軟で、血液凝固塊は見られなかった。

組織的には滑膜の増殖と肥厚、血管の増生、ヘモジデリン沈着、円形乃至紡錘形の大形細胞の出現、泡沫細胞などが見られる。

九大病理学教室で so-called Pigmented Villonodular Synovitis の組織診断をうけた。

術後経過：10日目に抜糸を行ったが、外踝部の創の一部が哆開し、再縫合を行った。

創治癒後左下腿～足背にかけて、かなり高度の浮腫が起っていたが、バイブラスなどの水治療法と内服剤の投与により浮腫も消滅し、約3ヶ月後に退院し、手術後約10ヶ月の現在、再発の徴候もなく経過良好である。

考察：本疾患は前述のごとく1861年 Broca の初報告以来種々の名称で呼ばれているが、それは本疾患の組織所見が極めて多彩なためである。最近では一般的に見て欧米では Pigmented Villonodular Synovitis、本邦では色素性絨毛結節性滑膜炎の名称が多く用いられているようである。

I. 臨床的事項

1) 年令の分布：宮崎の臨床的統計的観察では18才より68才までに見られ、Sherry は34例については18才より70才までに見られ、Wilson は20～40才が大多数を占めていると述べている。本症は19才であった。

2) 性別観察：Atmore は34例では♂23例、♀

11例, Sherry の 34 例では♂ 8 例, ♀ 26 例, 山本の 10 例では♂ 4 例, ♀ 6 例, など男女性別比に一定の傾向はみられないようである。

3) 発生部位: Jaffe は 77 例のうち膝関節に 66 例, 足関節に 8 例, 藤野は 9 例の本症について全例とも膝関節であり, De Santo の報告では肘関節に多く, Sherry の例では手に非常に多いように報告されている。Stanley の報告例は股関節に発生しており, 一定しないが膝関節に最も多く発生することは確かなようである。

4) 臨床的症状: 関節腫脹と疼痛, それと関節包内に血性の関節液が貯溜することが多いと述べている人が多い。

5) 発生誘因: 外傷, 出血性素因, 血管異常などがあげられているが, 宮崎, Carr らは外傷との関係を否定しているが, Atmore, De Santo は 50% 以上に外傷の既往を認めると述べている。本症例では外傷の既往はなかった。

II. 組織学的所見

本症に関する報告例に見られる共通の組織学的所見としてあげられているのは, 1) 絨毛の肥大, 増生, 2) 円形乃至紡錘形の大形細胞の出現, 3) 血管の増生, 4) 血鉄素沈着, 5) 多核巨細胞出現, 6) 泡沫細胞の出現などである。

III. 本症の本態

本症の本態については古くより種々論議的になっているが, 現在まで定説がなく, 炎症説, 腫瘍説, その中間説, 血管異形成説や脂質代謝障害説等々の諸説があるが, 炎症説は Jaffe-Lichtenstein らによって代表されるが, 彼等は滑膜病変の検索時期によりその所見が異なる所から種々の説が唱えられるのであろうと述べ, 彼等の組織像に見られる巨細胞や貪食細胞は一時的出現であり, 結局は fibrosis, Collagenisation の経過をたどるものだと述べている。

腫瘍説としては De Santo らは滑膜被蓋細胞と血管の増殖に由来した腫瘍であると述べ, Willis は線維腫の一種とし, Geschickter & Copeland は本疾患は Synovioma であり, 一般に良性であると報告している。

松本らの血管異形成説, Kling の脂質代謝説, Carr の炎症と腫瘍との混合説或は中間説などが, そ

の本態についてはまだ定説がなく今後に残された問題である。

結語: 私は足関節の腫脹と疼痛を訴えて来院した 19 才の女子に足関節は Bursitis の好発部位であるので, 単なる Bursitis と診断し, 手術中に始めて Pigmented Villonodular Synovitis を疑い, 組織学的に本症であることを確めた 1 例を経験したので, 若干の文献的考察と共に報告した。

文 献

- 1) Jaffe: Tumors and Tumorous conditions of the Bones and joints.
- 2) Atmore, W. G.: Minnesota Med. 39: 196; 1956.
- 3) Carr et al.: J. Bone and Joint Surg. 36-A: 1007, 1954.
- 4) De Santo, D. A. et al.: J. Bone and Joint Surg. 21: 531, 1939.
- 5) Sherry, J. B. et al.: J. Bone and Joint Surg. 37-A: 1005, 1953.
- 6) Paule, E. et al.: J. Bone and Joint Surg. 42-A: No. 7, Oct., 1960.
- 7) Stanley, M. et al.: J. Bone and Joint Surg. 47-A: No. 2, Mar., 1965.
- 8) Lichtenstein, : Bone Tumor.
- 9) 藤野: グレンツゲビート. 第10年, 1672, 1936.
- 10) 宮崎: 臨床外科. 6: 529, 1951.
- 11) 吉良・他: 整形外科. 19(5).
- 12) 橋本: 整形外科. 17(8).
- 13) 古賀: 整形外科と災害外科. 15(1).
- 14) 吉野・他: 整形外科. 14: 454, 1963.

質 問 佐賀県立 佐藤 三郎

本疾患は炎症と腫瘍との中間のものといわれているが本例のごときものは, 私としては腫瘍性のもと思うので Co⁶⁰ などの放射線療法は考慮できないか。自験例で完全摘出できなかった例は放射線治療を行い腫瘍の縮少をみた例がある。

回 答 九州厚生年金 入江 政男

一応炎症ということで Radiation はやっていない。

追 加 鳥 取 大 大橋 清秀

以前本会で 9 ケ月の乳児に発生したものを報告したが今回は 60 才, 70 才のときに高令の女性にも発生したものを追加する。術中所見からも炎症像よりはむしろ腫瘍性の様相を呈する。Co 照射を行なって経過観察中である。