短期間のうちに股関節破壊を来した PVS の一症例

大分医科大学整形外科教室

安 武 千 恵・島 巢 岳 彦

宇都宮 健 治

平井整形外科医院

平 井 啓

Pigmented Villonodular Synovitis of the Hip Joint Presented Rapid Bone Destruction — A Case Report —

by

Chie Yasutake, Takehiko Torisu and Kenji Utsunomiya

Department of Orthopaedic Surgery,
Medical Collage of Oita, Oita

Pigmented villonodular synovitis (PVS) of the hip is a rare condition. The condition often presents radiological findings of the cysts in the femoral head and acetabulum.

Bone is invaded and hip joint is destroyed. But the case which showed rapid destruction of the joint is very rare.

We report a case, a 71-year-old woman with PVS of the hip joint, in which bone was invaded and presented rapid destruction.

はじめに

色素性絨毛結節性滑膜炎（以下 PVS）は、Jaffe が1941年に命名して以来多数の報告があるが、股関節発症例は比較的少ない。

我々は股関節に発症し、しかも短期間のうちに骨破壊を来した PVS の一例を経験したので、若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例：71才、女性。

主訴：右股関節痛、歩行障害

家族歴、生活歴、既往歴：特記すべきものはない。

現病歴：昭和63年8月より誘因なく右大腿部に疼痛を自覚するようになった。同年9月に転倒した後、腰部から右大腿部にかけての疼痛が増悪し、近医で坐骨神経痛と診断され骨盤牽引などの治療を受けていた。

疼痛は次第に股関節に局限し、歩行障害をきたし12月5日一本杖歩行にて当院を受診した。

初診時所見：全身状態は良好である。右下肢に2cmの脚長差と3cmの大腿部筋萎縮があり、歩行は一本杖を必要とする。右股関節に軽度の腫脹と圧痛があるが、熱感や発赤はない。股関節可動域は屈曲40度、伸展15度、外転20度、内転20度、外旋20度、内旋10度と著明に制限され、運動時痛が強く嚙音が触知される。日整会股関節機能評価は39点であった。

臨床検査成績：血液一般、尿、血液生化学検査にて特に異常所見はない。出血傾向はなく血清コレステロール値は163 mg/dl と正常である。免疫血清検査、赤沈値に異常はない。梅毒反応は陰性である。

X線検査：初診時の単純X線像では、大腿骨頭と寛骨臼に骨硬化像を伴う囊腫状陰影を認め、関節裂隙は狭小化が見られる（図1）。僅か2ヶ月後の入院時単純X線像では、短期間のうちに骨侵蝕が進行し、骨頭

図1 初診時単純レ線像
大腿骨頭と寛骨臼に囊腫状陰影をみ、関節裂隙は狭小化している。

図2 初診より2ヶ月後の単純レ線像
骨頭は吸収され圧潰し、寛骨臼の囊腫状陰影は拡大している。

は吸収され圧潰している。寛骨臼側の囊腫状陰影は拡大している(図2)。関節造影像では、関節腔内には凹凸不整の斑紋状陰影がみられ、さらに関節外の滑液包との交通が認められる(図3)。関節穿刺の際、血性関節液が吸引された。骨シンチで右大腿骨頭、寛骨臼に集積像をみるがcold areaはない(図4)。

手術時所見：股関節後方アプローチにより展開していくと、後方関節包近くに鶏卵大の腫瘤があり中はチョコレート色の浸出液で満たされ、内面は茶褐色の滑膜が絨毛状に増生していた。この滑液包は股関節腔と交

図3 関節造影像
関節腔内に斑紋状陰影が認められ、関節外の滑膜包との交通が認められる。

図4 骨シンチ像
右大腿骨頭、寛骨臼に集積像をみる。

通していた。股関節内の滑膜も増生し、圧潰した骨頭の一部および寛骨臼底のほとんどの肉芽組織が侵蝕していた。滑液包は全摘し、関節滑膜は可及的に全切除した。寛骨臼の骨破壊が高度であったため、寛骨臼に同種大腿骨頭を用いた骨移植を併用して人工骨頭置換術を行った。

病理組織所見：滑膜は絨毛状に増殖し、多核巨細胞が多数みられ、ヘモジデリン含有細胞や細胞外の色素沈着を認めた。泡沫細胞の集簇巣も認められ、病変はびまん性で典型的なPVSの病理所見であった(図5、6、7)。

経過：術後6週間免荷の後、荷重を開始した。股関節の強い疼痛は軽減し、日整会股関節機能評価は64点と改善した(図8)。

図5 滑膜の絨毛状増生をみる。

図6 多核巨細胞が多数みられる。

図7 泡沫細胞とヘモジデリン含有細胞。

考 察

PVS は関節内に出血を反復し、滑膜の絨毛状増殖や結節が形成される疾患で、Jaffe によって1941年に命名されて以来多数の報告がみられるが、発生部位別

図8 術後単純X線増
寛骨臼にも骨破壊が認められたため同種大腿骨頭を用いて骨移植を併用し人工骨頭置換術を行った。

表1 PVSの発症部位の報告例

	膝(%)	股(%)	症例数
広畑 (1985)	72	24	24
Tartaglia (1976)	73	9.5	334
Myers (1980)	66	16	166
Schwartz (1989)	76	20	99
Johansson (1982)	70	9	44

にみると股関節発症例は比較的少ない^{6) 8) 9) 14)} (表1)。

股関節 PVS の初期診断は、関節が深部に位置し厚い筋層に被われているため他の関節例に比べて難しいと言われている。しかし股関節 PVS では、単純X線像で骨変化をきたし易く、Myers¹²⁾ は90%以上の例に骨変化がみられたと報告している。Danzig⁵⁾ はその診断において、単純X線像の所見と関節造影時の血性関節液の吸引が重要であると述べている。

単純X線像の初期変化として、寛骨臼、大腿骨頭、頸部に骨硬化像を伴う囊腫状陰影が出現し、やがて関節裂隙の狭小化をみるようになるが、股関節 PVS の報告例の大部分では、骨破壊は数年の経過を経て進行している。我々の症例のように、短期間のうちに骨破壊が進行した股関節 PVS は、2～3ヶ月のうちに骨破壊の進行をみた報告として麻生³⁾、小林¹⁰⁾、Abrahams¹¹⁾ の例があるものの、Aglietti²⁾ が述べている

ように極めて稀であると言える。

PVSで骨破壊が生じる機序として、Larmon¹¹⁾や広畑⁷⁾は腫瘍の圧迫による二次的な変化であると述べている。一方、Byers⁴⁾は肉芽組織が骨膜の骨付着部から骨組織を侵蝕するためと述べている。長澤¹³⁾も腫瘍の性格の強いPVSにおいて、解剖学的に血管の侵入孔が多い部位が、骨破壊の足場となり易いと述べている。我々の症例でも骨頭は圧潰しており、多分骨頭のchondro-osseous junctionから肉芽組織の旺盛な侵蝕があったのではないかと思われる。

PVSは再発率が高く、治療に際して病変の完全摘出が重要である。今回の症例では滑液包炎も合併していたためこれを全摘し、関節滑膜も可及的に全切除した。寛骨臼側の骨破壊も拡大していたため、寛骨臼に骨移植を併用した人工骨頭置換術を施行した。再発に関しては、今後の経過観察を慎重に行う必要があると思われる。

結 語

- 1) 短期間のうちに骨破壊がみられた極めて稀な症例を報告した。
- 2) PVSの骨破壊は、肉芽組織が骨への血管侵入孔を通じて、骨を侵蝕して生じると考える。

参 考 文 献

- 1) Abrahams, T.G. et al.: Concentric Joint Space Narrowing of the Hip Associated with Hemosiderotic Synovitis (HS) including Pigmented Villonodular Synovitis (PVNS). *Skeletal Radiol.*, 17 : 37-45, 1988.
- 2) Agletti, P. et al.: Pigmented Villonodular Synovitis of the Hip Joint. (Review of the Literature and Report of Personal Case Material) *Int. J. Orthop. Traumatol.*, 9 : 487-496, 1983.
- 3) 麻生邦一・他: 骨盤破壊と坐骨神経麻痺を生じた股関節色素性絨毛結節性滑膜炎の一例. *Hip Joint*, 9 : 215-219, 1983.

- 4) Byers, P.D. et al.: The Diagnosis and Treatment of Pigmented Villonodular Synovitis. *J. Bone and Joint Surg.*, 50-B : 290-305, 1968.
- 5) Danzig, L.A. et al.: Diagnosis and Treatment of Diffuse Pigmented Villonodular Synovitis of the Hip. *Clin. Orth. and Rel. Research*, 168 : 42-47, 1982.
- 6) Flandry, F., et al.: Current Concepts Review. Pigmented Villonodular Synovitis. *J. Bone and Joint Surg.*, 69-A : 942-949, 1987.
- 7) 広畑和志・他: 色素性絨毛結節性滑膜炎並びに粘液囊炎 (Jaffe) について. *臨床整形外科*, 1 : 769-780, 1966.
- 8) 広畑和志: 色素性絨毛結節性滑膜炎および滑液包炎について. *関節外科*, 4 : 577-585, 1985.
- 9) 広畑和志: 色素性絨毛結節性滑膜炎 (PVS) と滑液包炎 (PVB). *整形外科*, 38 : 107-119, 1987.
- 10) 小林洋一・他: 広範に骨頭破壊をきたした股関節色素性絨毛結節性滑膜炎の一例. *関東整災誌*, 17 : 61-64, 1986.
- 11) Larmon, W.A. et al.: Pigmented Villonodular Synovitis. *Med. Clin. N. Amer.*, 49 : 141-150, 1965.
- 12) Myers, B.W. et al.: Pigmented Villonodular Synovitis and Tenosynovitis: A Clinical Epidemiologic Study of 166 Case and Literature Review. *Medicine*, 59 : 223-238, 1980.
- 13) 長澤正彦・他: 広範に骨を侵した股関節色素性絨毛結節性滑膜炎の症例. *臨床整形外科*, 7 : 386-392, 1972.
- 14) 鶴飼和浩・他: 色素性絨毛結節性滑膜炎. 一病態, 治療および成因について. *関節外科*, 2 : 313-319, 1983.

質 問

九州大学 牛島 正博

PVSに対する治療は関節固定術が最もよいのではないかと考えられますが、滑膜切除、骨移植術、人工関節置換術の成績はどうですか。

解 答

大分医大 安武 千恵

1) 文献的に、十分に滑膜切除を行えば、良好な結果が得られている。

2) 確かに再発が多いので、今後の経過観察が必要と思う。