膝関節に発生した滑膜性血管腫の2例

琉球大学整形外科

半澤 浩明・井上 治
新垣 宜貞・島袋 博之
茨木 邦夫

Two Cases of Synovial Hemangioma of the Knee Joint

by

Hiroaki Hanzawa, Osamu Inoue, Yoshisada Shingaki,
Hiroyuki Shimabukuro and Kunio Ibaraki

Department of Orthopedic Surgery University of the Ryukyus, Okinawa, Japan

Synovial hemangioma is an uncommon lesion which mainly occurs in the knee joint. We report two cases of typical synovial hemangioma of the knee.

Case 1: A two year-old boy suffered from swelling of his right knee on which a cutaneous hemangioma had been observed from birth. X-ray showed no phlebolith or calcification in the tumor. Angiography revealed venous blood pooling in the tumor. Resection of the tumor along with the synovium was performed. Recurrence of the hemangioma occurred around the knee joint ten years later.

Case 2: An eight year-old boy suffered from swelling and gonalgia. MRI revealed an intra-articular tumor which was isointense on T₁ images T₂ high. Capsulo-synovectomy of the upper pouch was performed recently.

Although synovial hemangioma in childhood may recur extensive synovectomy should be avoided, because of unpredictable osteoarthrotic changes in the future.

Key words: Synovial hemangioma (滑膜性血管腫), knee joint (膝関節)

はじめに

滑膜性血管腫 (Synovial Hemangioma, 以下 SH) は主に若年者の膝に発生する稀な関節内腫瘍である²⁾⁵⁾⁶⁾。われわれは10年の経過で発生した1例および最近、滑膜部分切除を行った1例を報告する。

症 例

症例1: 2歳, 男児。

主訴: 右膝の腫脹

家族歴・既往歴: 特記すべきことなし。

現病歴: 生下時より右膝部の皮膚に約5cm大の青色斑があったが生後6カ月頃から同部位が膨隆してき

た。その後、右膝部が膨隆し、疼痛も出現、数日後には軽快したことが数回あった。昭和55年7月に当科を初診した。

初診時所見: 右膝内側に柔らかい軟部腫瘤を触れ、拡張した静脈が表在性にみられたが圧痛はなく、膝関節の可動域制限もなかった。単純レ線では石灰化その他の異常を認めなかった。動脈造影では、腫瘍部に一致して静脈相で血液貯留像を認めた(図1)。

手術所見: 腫瘍は暗紫色の血管腫様で膝蓋上包から筋層内に浸潤し、滑膜と共に切除し、さらに膝蓋骨、大腿骨内顆に癒着する血管腫を切除した。

病理所見: 不規則に拡張した腔と血栓形成がみられ、筋層内にも浸潤していたが腫瘍性増殖像は見られなかつ

図1 症例1. 2歳, 男児. 動脈造影正面像
動脈造影にて静脈相で腫瘍部に一致した血液貯留像を認める.

た. 血管壁は一層の内皮細胞と薄い結合組織よりなり, 明かな筋層の発達は見られず海綿状血管腫であった(図2).

術後経過: 経過良好であったが10年後に手術瘢痕部が腫脹するようになり, 疼痛や可動域制限はなかった. 単純レ線では初診時と同様に静脈結石を認めなかったが, 関節造影では膝蓋上包に数個の結石があり, CTでは滑膜内の結節が造影された(図3). 17歳時のMRIではT₁で中信号, T₂で高信号, T₁-Gdで造影効果を認めた. SHが関節内および大腿四頭筋内に広範囲に再発しているが, 疼痛などの臨床症状に乏しいため経過観察している(図4).

症例2: 8歳, 男児

主訴: 右膝痛, 腫脹

家族歴・既往歴: 特記すべきことなし.

現病歴: 半年前より右膝痛が誘因なく出現し, 一旦軽快するも腫脹と疼痛が著明になり平成6年11月に当科を初診した.

図2 症例1. 組織像. (HE染色)

a. ルーベ像 b. 10倍 c. 50倍

不規則に拡張した腔と血栓形成からなる海綿状血管腫. 腫瘍性増殖は認めない.

図3 症例1. 12歳時.
造影CTにて滑膜内に造影される結節を認める。

入院時所見：右膝蓋上包に辺縁不明瞭で柔らかな腫瘤を認めたが血管性拍動や関節液の貯留はみられなかった。単純レ線では石灰化像，静脈結石はみられなかったが，CTでは膝蓋上包の拡張と造影された結節を数個認めた。MRIではT₁強調像で中信号，T₂強調像で高信号を呈する結節でありGdでの造影効果は見られなかった(図5)。骨シンチでは集積を認めず，またRIアンギオの，血流貯留像にて不均一な集積を認めた。

手術所見：膝関節の正中より進入し，内外側広筋支帯を縦切開し膝蓋上包を一塊として切除した。後方関節包は内視鏡にて滑膜の病変が存在しないことを確かめた。滑膜内の複数の結節は黒色調で柔らかく，剖面では血液成分を貯留した嚢胞であった。

病理所見：滑膜組織内に血液を有する拡張した血管が多数認められた。血管壁は一層の内皮細胞からなり，症例1と同様に海綿状血管腫の所見であった(図6)。

術後経過：翌日よりCPMを行い，2週間で膝0～

図4 症例1. 17歳時.
a. 右膝内側 b. MRI T₁-Gd強調像 c. MRI T₂強調像
関節内，大腿四頭筋内にSHが広範囲に再発。疼痛などの臨床症状はない。

図5 症例2, 8歳, 男児.

a. 造影CT, b. MRI T₁強調像, c. MRI T₂強調像

CTでは膝蓋上包の拡張と結節を数個認め, MRIではT₁で中信号, T₂で高信号を呈する多数の結節.

80°の可動域が得られ, 3カ月で正座可能となった.

考 察

SHは幼児の一側膝関節に多く発症し腫脹, 疼痛ときに, 可動域制限や筋萎縮を来すこともある¹⁾⁴⁾⁵⁾. 症例1では関節部の腫脹のみで, 症例2では疼痛を訴えたが可動域制限は見られなかった. McNeillら⁴⁾は

四肢に発生した血管腫のうち, 関節あるいは滑膜に発生した血管腫のほとんどが海綿状血管腫であったと報告したが, われわれの症例1, 2でも共に組織学的に血管壁が一層の内皮細胞で被覆され, 拡張した血管腔内に血液成分を充満した海綿状血管腫であった.

SHの画像診断であるが, 単純レ線像にて関節包陰影の拡大あるいは石灰化を含む軟部腫瘍様陰影として

図6 症例2. 組織像. (HE 染色)

a. ルーペ像 b. 10倍 c. 50倍

症例1と同様に不規則に拡張した腔と血栓形成がみられ海綿状血管腫.

認めることがあり⁵⁾, また関節造影にて関節包の不正充填欠損像が見られることもある¹⁾. 一方, Moon らは, 動脈造影は血管腫の診断に有効⁵⁾としており, 症例1のアンギオでは貯留像がSHの診断に有意義であった. SHのMRI所見の報告は少ないが血管腫は基本的にT₁強調像で中信号, T₂強調像にて高信号を呈し, 血管内の血液成分と間質組織の信号強度の差から斑紋状に見られることもある⁶⁾. われわれの症例でも共に, T₁強調像で中信号, T₂強調像で高信号を呈していたが症例1ではT₁-Gdで造影され, 一方, 症例2では造影されなかった. したがってSHに特徴的とされる静脈結石が在れば単純レ線のみではほぼ診断は可能であるが⁶⁾, アンギオおよびMRIも有用と思われる.

Moon ら⁵⁾は部分あるいは全滑膜切除による腫瘍の全切除が必要であるとしているが, SHの多くは幼少児に発生するため滑膜切除は関節の拘縮や, 長期には変形性膝関節症, 下肢の萎縮, 下肢長差の出現などを

合併することも報告している¹⁾³⁾⁵⁾. したがってSHは良性の病変で再発にも長期を要するため滑膜切除は最小限に行い, また後療法も慎重に行うべきであろう.

ま と め

- ①膝関節に発生した滑膜性血管腫の2例を報告した.
- ②2例とも腫瘍および滑膜の部分切除術を行ったが, 内1例は術後10年で再発した.
- ③術後の合併症も考えて滑膜切除術は最小限に行うべきである.

参 考 文 献

- 1) Devaney, et al. : Synovial Hemangioma. HUMAN PATHOLOG 24 : 737-745, 1993.
- 2) Goiddanich, I. F. and Campanacci, M. : Vascular hamartoma and infantile angioblastic osteohyperplasia of the extremities. A study of 94 cases, J. Bone Joint Surg., 44A : 815-842, 1962.

- 3) Larsen, I. J. and Landry, R. M. : Hemangioma of the synovial membrane, J. Bone Joint Surg., 51A : 1210, 1969.
- 4) McNeill, et al. : Hemangioma of the Extremities, Review of 35 Cases. Clin. Orthop. 101 : 154-166, 1974.
- 5) Moon, et al. : Hemangioma of the Knee Joint. Clin. Orthop. 90 : 183-90, 1973.
- 6) 米村憲輔, 高木克公, MB Orthop. 7 (11月増刊) : 31-40, 1994.