完全脱臼股関節に発生した PVS の一例

九州労災病院整形外科

山下 彰 久・野村 茂 治
福岡 真 二・首藤 敏 秀

Pigmented Villonodular Synovitis of Dislocated Hip Joints

by

Akihisa Yamashita, Shigeharu Nomura, Shinji Fukuoka
and Toshihide Shuto

Department of Orthopaedic Surgery,
Kyushu Rousai Hospital, Fukuoka, Japan

We present a rare case of pigmented villonodular synovitis (PVS) of a dislocated hip joint. A 70 year-old woman complained of left hip pain and was diagnosed with a tumor of the left buttock. She underwent conservative treatment for congenital dislocation of the bilateral hip of infants. Radiograph showed the disappearance of the bilateral femoral head, and cystic changes at the left ilium were recognized. On MRI the tumor showed low intensity on T1-weighted images and iso-high intensity with a portion of low intensity area on T2-weighted images. Synovectomy was performed as much as was allowed. Pathological findings of the synovia were corresponded with PVS. Five years after surgery, there has been no recurrence and PVS remaining on MRI.

Key words: pigmented villonodular synovitis (色素性絨毛結節性滑膜炎), hip joint (股関節), congenital dislocation of hip (先天性股関節脱臼), synovectomy (滑膜切除術)

はじめに

色素性絨毛結節性滑膜炎（以下 PVS と略す）は 1941 年に Jaffel¹⁾ により報告された。発生部位は膝関節が圧倒的に多い。股関節に発生する PVS は比較的稀で診断及び治療に難渋することも少なくない。今回我々は、完全脱臼股関節に発生した 1 例を経験したので、成因、治療法等について若干の文献的考察を加えて報告する。

症 例

患者：70 歳，女性

主訴：左大腿部痛

現病歴：乳児期に両先天性股関節脱臼に対し、ギブス治療を受けた。以後、跛行は残存していたが疼痛はな

かった。平成 4 年 11 月 14 日、特に誘因なく左大腿部痛出現、また、左殿部に腫瘤を自覚した。11 月 16 日、当科初診。11 月 26 日、精査加療目的にて当科入院となった。

既往歴：先天性股関節脱臼、子宮卵巣摘出術（32 歳時）

家族歴：特記すべき事項なし

入院時理学所見：全身状態は良好であった。両股完全脱臼による跛行及び Trendelenburg 徴候を認めた。左臀部に 15×10cm の腫瘤を触知、腫張、波動を認めるも、発赤、熱感は認めなかった。また、左大腿内側に皮下出血を認めた。股関節の可動域は、屈曲右 85 度、左 80 度、伸展右 -5 度、左 0 度、外転右 5 度、左 15 度、内転右 15 度、左 15 度、内旋右 45 度、左 45 度、外旋右 45 度、左 45 度と、両股の完全脱臼に

図1 初診時レントゲン
平成4年11月16日
両大腿骨頭は消失し、両股完全脱臼の状態である。左腸骨には骨嚢胞様陰影を、左大腿骨幹部には、骨皮質の肥厚を認める。

図2 単純CT
左股筋内に腫瘍が存在。

図3 術前MRI
T1強調画像にて低信号を呈する腫瘍が存在。

よと思われる可動域制限を認めた。

画像所見：初診時の股関節単純レントゲンにて、両股関節は完全脱臼の状態で大腿骨頭は両側ともに消失していた。左臼蓋には骨嚢胞様陰影を、左大腿骨幹部においては内部に嚢胞様陰影を伴う骨皮質の肥厚を認めた（図1）。CTにおいては左股関節から殿筋内に筋肉とほぼ同密度の軟部腫瘍陰影が存在し（図2）、MRIにてはT1強調画像で筋肉より低信号（図3）、T2強調画像では内部に低信号域を伴うやや高信号領域を認めた（図4）。左腸骨動脈の血管造影では腫瘍濃染像を（図5）、骨シンチグラフィにては左股関節周囲に異常集積を認めた（図6）。

手術所見：左臀部に弓状切開を加え進入。大殿筋を鈍的に剥離し深層を展開すると被膜に包まれた腫瘍を認

図4 術前MRI
T2強調画像にて等～やや高信号を呈する。

図5 左腸骨動脈よりの血管造影所見にて腫瘍濃染像を認める。

図6 骨シンチグラフィーにて
左股周囲に異常集積像を認める。

図7 慢性炎症細胞の浸潤と、ヘモジデリンと思われ
る色素沈着を認めた。

めた。波動を認め、穿刺すると暗赤色の血液が吸引された。腫瘍を切開すると、内部は滑膜が絨毛結節状に増殖しており、巣状の黒褐色の色素沈着を認めた。偽関節包を切開すると、内部にも同様の滑膜の増殖を認め、これらの組織を可及的に切除し、2チャンネルの持続灌流を施行した。

病理組織学的所見：滑膜は絨毛状に増殖し、血管新生、リンパ球、形質細胞等の炎症細胞の浸潤を認めた。また、基質には膠原線維の増生と、ヘモジデリンの沈着を認め、病理学的にPVSと診断された(図7)。

術後経過：術中採取組織の細菌培養の結果にて感染症が否定されたので術後4日で持続灌流を抜去した。約3週間後、左大腿痛消失、経過良好にて退院。退院後、外来にて経過観察しているが、平成9年10月現在(術後約5年)、疼痛は消失、股関節単純レントゲンに

図8 現在のレントゲン
平成9年10月19日
術前レントゲンと変化なし。

図9 術後MRI
平成9年7月3日
残存腫瘍及び再発を認めない。

て術前と変化なし (図 8), また MRI にても残存腫瘍及び再発は認めていない (図 9)。

考 察

PVS はヘモジデリンの沈着を伴う滑膜組織の絨毛結節状の異常な過形成であり, 滑膜に限局性の腫瘤を形成するもの (localized type) と, びまん性に病巣を形成するもの (diffused type) に分類される。その発生部位は膝関節が圧倒的に多く, Jaffe²⁾ によれば, 股関節における発生率は膝関節のその 1/10 から 1/15 であると言われている。症状は, 軟部組織の腫脹, 滲出液の貯留, 疼痛, 関節可動域の減少等であるが, 股関節発生 PVS は他の関節に比べて深部にあるため, 臨床症状は, 腫脹に関する愁訴よりも関節痛に関するものが多いとされている³⁾。本症例は, 完全脱臼股に発生しており, 関節痛をほとんど自覚することなく腫瘤を形成したものと考えられた。単純レントゲンにおいては, 関節裂隙の狭小化, 骨棘形成といった変形性関節症の所見に加え, 骨浸食像, 多発性囊胞形成が特徴とされているが⁴⁻⁶⁾, 本症例では臼蓋に多発性の骨囊胞形成, 大腿骨内側に内部に囊胞様陰影を伴う骨皮質の肥厚を認めた。診断は, 最終的には病理組織学的所見でなされるが, 臨床症状, 単純レントゲン, MRI などからある程度予測できる。しかし, 我々の症例は, 臀部の腫瘤が主訴であり, また, レントゲンにては両股の完全脱臼, 臼蓋の骨囊胞形成以外に特に所見を認めなかったため, 軟部腫瘍, 結核性関節炎, その他の感染症を疑い手術を行った。また, MRI にて, PVS に特徴的とされるヘモジデリン沈着による T1 強調画像, T2 強調画像, 共に低信号の所見^{7,8)} が認められなかったことも診断を迷わす要因であった。本症例では, 内部に血液の貯留を伴っていたため, T2 強調画像にて高信号領域を認めたものと考えられた。手術は生検もかねて施行したが, 術前に針生検を施行しなかった理由は, 血管造影にて hyper-vascular の腫瘍と考えられたこと, また, 感染であった場合に即座に搔爬, 持続灌流を行うためであった。本症の病因については, 炎症説, 腫瘍説, 局所代謝異常説, 外傷説などいまだ定説をみない。本症例は, 70 歳と比較的高齢者の両完全脱臼股の一側にのみ発生しており, 先天性股関節脱臼後の完全脱臼股に機械的刺激が加わり, 長期間の炎症を基盤に発生したと考えら

表 1 PVS の病因に関する諸説¹⁾

1. neoplasia (Geschickter and Copeland 1936, Stewart 1948, Wright 1951, Clark 1958)
2. inflammation (Jaffe, et al. 1941)
3. metabolic disturbance (Hirohata 1968)
4. trauma and haemorrhage (Singh, et al. 1969)

れた。また, 病理組織学的にも多数の炎症細胞の浸潤を認めており, これも炎症説を示唆する所見であった。

治療であるが, 滑膜切除, 腫瘍摘出術といった関節温存手術, 関節固定術, 人工関節置換術等が行われているが⁹⁾, Johansson ら¹⁰⁾ の報告によれば, 摘出術のみでは不十分で, 術後約 2 年で約半数に再発を認める。本症例では, 関節固定は両側が完全脱臼股であるため禁忌であり, また, 除痛, 関節可動域の獲得は特に必要とせず人工股関節置換術はこの時点では考えなかった。以上より, 腫瘍切除, 可及的滑膜切除を施行した。現在, 術後約 5 年経過するも術前に認められた疼痛は消失し, MRI にても残存腫瘍を認めず経過良好である。

ま と め

①先天性股関節脱臼後の完全脱臼股に発生した PVS の一例を報告した。

②臀部の腫瘤を主訴に来院し, レントゲン, MRI にては PVS に特徴とされる所見に乏しく, 術前診断に迷った。

③完全脱臼股の一側に発生しており, 病因を考える上で興味深い症例であった。

④術後 5 年にて, 腫瘍切除, 可及的滑膜切除のみで良好な術後成績が得られている。

参 考 文 献

- 1) 伊藤 茂ら: 膝関節に発生した色素性絨毛結節性滑膜炎 (PVS) の MRI. 整形外科と災害外科, 43: 1423-1425, 1994.
- 2) 奥野雅男: 股関節に生じた色素性絨毛結節性滑膜炎の 1 例. 整形外科, 41: 226-228, 1990.
- 3) A. Cotten. et al.: PVNS of the hip: radiographic appearance. Skeletal Radiology, 1-6, 1995.
- 4) Boyd and Sledge, jr.: Evaluation of the Hip With Pigmented Villonodular Synovitis. Clin. Orthop., 180-186, 1992.

- 5) Ghadially, F.N.: Pigmented villonodular synovitis. *Fine Structure of Synovial Joints*, Butterworths, pp. 180, 1983.
- 6) Jaffe, H.L.: Pigmented villonodular synovitis, brucitis and tenosynovitis. *Arch Pathol*, 31 : 731-765, 1941.
- 7) Jaffe, H.L.: Tumor and tumorous conditions of the bones and joints. Lea and Febiger, Philadelphia, 532-557, 1958.
- 8) Jalinek, J.S.: Imaging of pigmented villonodular synovitis with emphasis on MR imaging. *A.J.R.*, 152(2) : 337, 1989.
- 9) Johansson, J.E. et al.: Pigmented villonodular synovitis of joints. *Clin. Orthop.*, 163 : 159-166, 1982.
- 10) Steven, Gitelis.: The Treatment of Pigmented Villonodular Synovitis of the Hip. *Clin. Orthop.*, 154-160, 1989.
- 11) U. Rydholm.: Pigmented villonodular synovitis of the hip joint. *International orthop*, 307-310, 1987.