股関節内に発症した巨大な Synovial Osteochondromatosis の 1 例

長崎大学整形外科

日 浦 健・岡 野 邦 彦
榎 本 寛・原 田 真 一
稲 富 健司郎・進 藤 裕 幸

One Case of Synovial Osteochondromatosis of the Hip

Takeshi Hiura, Kunihiko Okano, Hiroshi Enomoto,
Shinichi Harada, Kenshiro Inatomi, and Hiroyuki Shindo

Department of Orthopaedic Surgery,
Nagasaki University School of Medicine, Nagasaki, Japan

We experienced a patient with synovial osteochondromatosis in the hip joint.

The case was a 29-year-old woman who has been suffering from coxalgia and limited hip motion, especially flexion and internal rotation since she was 26. Roentgenograms showed a calcified mass in the right hip joint. Arthrography showed a large mass in the right hip joint cavity. CT-scan showed the mass size to be $4 \times 3 \times 2$ cm. Gd-enhanced MRI with fat suppression showed enhanced hypertrophic synovium and no enhanced nodular lesion. We suspected synovial osteochondromatosis, osteochondritis dissecans, or chondrosarcoma. We performed synovectomy, and found only one large mass in the hip joint. There was no nodular lesion within the synovium. Microscopic examination revealed a cartilaginous mass with calcification in the central portions and surface layering of synovium. The case was therefore diagnosed as synovial osteochondromatosis of the hip joint.

Key words : hip joint (股関節), synovial osteochondromatosis (滑膜性骨軟骨腫症), giant mass (巨大な腫瘍)

はじめに

Synovial Osteochondromatosis は Reichel⁶⁾ に報告されて以来、本邦においても多数報告されている。本疾患の好発部位としては膝関節が最も多く、次いで肘関節の順で、股関節発症は比較的稀とされている。今回我々は、股関節内に発生した Synovial Osteochondromatosis の 1 例を経験し、巨大な単発性の腫瘍であったため、離断性骨軟骨炎や軟骨肉腫などと鑑別を要したので報告する。

症 例

年齢 : 29 歳

性別 : 女性

職業 : 高校教員

主訴 : 右股関節痛

現病歴 : 平成 9 年頃から特に誘因なく右股関節痛出現。自制可能であったため放置。徐々に増強し、平成 11 年には右股関節屈曲制限出現し、5 分間程の体育座りにて股関節痛増強するようになり、立ち上がる際にロッキング様症状を自覚し、自動的に右股関節伸展するこ

とが困難となる。歩行時に疼痛はないが、小走り時には疼痛が出現する。仕事柄、床に座ることが多く支障を来すとのことで、平成12年7月31日当科外来初診となる。

既往歴：特記すべき事項なし

家族歴：特記すべき事項なし

全身所見：身長157cm、体重42kg、血液所見・尿所見に異常なし

局所所見：股関節可動域は屈曲125度、内旋70度と対側と比較して軽度の可動域制限を認めた。屈曲時に股関節前面に疼痛を認めた。筋力は股関節屈筋：右4、左5、外転筋：右4、左5と共に痛みによる低下を認めた。股関節前面に圧痛なく、腫瘍は触知不能。歩行障害なし。日整会の股関節判定基準（JOA score）は疼痛のため減点され、右90点、左100点であった（表1）。

単純X線像：両股関節正面像で右大腿骨頸部内側に斑状の石灰化を認め、右股関節軸射では股関節前方に位置していた（図1）。

股関節造影：単純X線像で認めた腫瘍は股関節内に存在していた（図2）。

股関節CT：右大腿骨頸部前内側に4×3×2cmの腫瘍が存在し、3D-CTにおいては大腿骨頸部に巻き付くように存在していた（図3）。

表1 身体所見

	右	左
可動域		
屈曲：	125度	135度
外転：	35度	35度
内転：	20度	20度
外旋：	40度	40度
内旋：	70度	80度
筋力		
屈筋群：	4	5
外転筋群：	4	5
圧痛：	—	—
JOA score：	90点	100点

a

b

図1 股関節単純X線像

a：正面像で大腿骨頸部内側に石灰化陰影。

b：軸射では大腿骨頸部前方に存在している。

a

b

図2 股関節造影

a : 正面像

b : 軸射

a

b

c

図3 CT

a : 3D-CT 正面で腫瘍は右大腿骨頸部に巻き付くように存在していた.

b : CT で腫瘍は右大腿骨頸部前内側に位置していた.

c : 3D-CT 側面

図4 MRI

a: T1 強調像: 腫瘍部低信号

b: T2 強調像: 腫瘍部は高信号と低信号の混在, 腫瘍周辺は高信号を呈する.

c: ガドリニウム (Gd) 造影 T1 脂肪抑制: 腫瘍周辺の滑膜に造影効果を認める.

図5 肉眼所見

a: 手術時所見

b: 摘出腫瘍表面

c: 摘出腫瘍剖面

図6 組織学的所見

- a: 腫瘍中央部の切片標本
- b: 腫瘍辺縁の滑膜
- c: 軟骨部
- d: 中心部の骨化巣

MRI: T1 強調像にて腫瘍部低信号 (図 4-a), T2 強調像で腫瘍部は高信号と低信号の混在を認め, 腫瘍周辺は高信号域を認めた (図 4-b). ガドリニウム (Gd) 造影 T1 脂肪抑制では腫瘍周辺に造影効果を認めた (図 4-c).

以上のことから, 股関節内に多数の軟骨体が集合した滑膜性骨軟骨腫症を考えた. しかし, 画像上一塊状に見えることから離断性骨軟骨炎も疑われた. また腫瘍が大きいこと, 造影効果を認めたことから軟骨肉腫, 滑膜肉腫なども鑑別にあがった.

手術時所見: 手術は前方アプローチで行い, 股関節関節包内に大腿骨頸部に巻き付くように腫瘍を認め, 関節包を切開するとそれを容易に摘出できた. 周辺滑膜や骨との連絡性はなく, 栄養血管等も認めなかった. 術中, 検索しうる範囲では股関節内に他の腫瘍は存在

していなかった. 摘出腫瘍は肉眼的に黄白色の結節状の形態をしており, 大きさは約 $4 \times 3 \times 2$ cm であった (図 5).

組織学的所見: 摘出した腫瘍の中央部断面 (図 6-a) において中心部に不規則な石灰化および骨化 (図 6-d) を認め, 周辺に多数の軟骨細胞 (図 6-c) を認めた. 最外層は滑膜組織が存在していた (図 6-b). 関節内より採取した周辺滑膜には軟骨化生は認めなかった. 腫瘍の組織像から滑膜性骨軟骨腫が考えられた. 異型細胞や骨梁構造を認めなかったことから悪性腫瘍や離断性骨軟骨炎は否定された.

考 察

滑膜性骨軟骨腫症は滑膜の軟骨化生を本態とする疾患である. 本疾患は外傷, 炎症, 循環障害などが発生

表2 股関節の巨大な滑膜性骨軟骨腫症

	個数・形・大きさ	組 織 像
網野ら (1977)	1個 腎臓形 12×6×5cm	骨髓層 骨層 軟骨層 栄養動脈
豊永ら (1975)	10個 結節状 5cm程	軟骨層 骨層
本症例	1個 結節状 4×3×2cm	軟骨層 骨層

因子として働くという説もあるが現在のところ原因不明である。部位別では膝関節に最も多く、次いで肘関節、股関節に発生するとされており、本疾患の股関節発症率は数%から10%と報告されている。好発年齢は30～40歳であり、男女比では男性に多いとされている。Milgram³⁾は本疾患を第1期：滑膜病変のみで遊離体を認めない、第2期：滑膜内病変と遊離体がともに存在する、第3期：遊離体のみで滑膜内病変を認めない、以上3期に分類し、1期から2期、3期と順に経過して行き、最終的には滑膜病変の消失するself-limitedな疾患であるとしている。本症例は遊離体の存在のみで、滑膜病変を認めなかったことから、第3期に相当していた。

診断は関節内遊離体の確認が重要で、遊離体に骨化のないものでは、関節造影による遊離体の確認や、MRIが有用とされている。MRI上では、T1強調像で均一な低信号を示し、T2強調像では高信号の中に低信号が混在するとされている。このT2強調像の低信号は軟骨遊離体で、高信号は炎症した滑膜や関節液と考えられ、Gd造影では滑膜増殖部に造影効果があるとされている²⁾⁴⁾。本症例においてもT1強調像にて腫瘍部低信号、T2強調像にて腫瘍軟骨部低信号、腫瘍内の関節液流入部に高信号を認めた。腫瘍周辺部には高信号域を認めた。Gd造影では、腫瘍周辺の造影効果を認め、腫瘍周辺に増殖した滑膜組織があることがわかった。以上のことから本疾患におけるMRI所見は診断に有用と考えられた。

一般的に本疾患は直径数mmの軟骨遊離体が多数存在するとされているが、本症例のように巨大な関節

内の滑膜性骨軟骨腫症の報告もいくつかある¹⁾⁵⁾⁷⁾⁸⁾。

網野ら¹⁾は12×6×5cmの1つの滑膜性骨軟骨腫で、栄養動脈と共通の骨髓を認めたと報告している。巨大化の原因としては、滑膜内にmetaplasiaにより発生した多数の骨軟骨腫が、20年に渡る長期間に癒合形成し、滑膜より豊富な血管網を通して栄養され、共通の骨髓をもって増大したと推測している。

豊永ら⁵⁾の報告では、10個の軟骨体で、結節状の形態をしており、最大の物は約5cm大であったとあり、組織学的には軟骨組織が大部分で一部骨化していたと述べている。本症例は大きさ約4×3×2cmで、結節状の形態をしていた。組織学的所見では、中央部に石灰化を認め、周辺部には軟骨細胞が多数存在していた(表2)。Milgram³⁾によると滑膜性骨軟骨腫症において多数の小さな軟骨体遊離体が集合し、互いに癒合しあったものではそれぞれの軟骨体の中心部に骨化もしくは石灰化を認め、周辺に軟骨細胞を認めるとある。このことから考慮すると本症例の組織像では、多数の軟骨体が癒合したものではなく、1つの軟骨体が巨大に増大していったものと考えられた。

ま と め

- ①関節内に発生した巨大な単発性腫瘍を経験した。
- ②摘出腫瘍の病理組織学的所見は滑膜性骨軟骨腫症であった。

参 考 文 献

- 1) 網野勝久ほか：股関節に発症した巨大なOsteochondromatosisの1例。関東整災誌，8(2)：121-124，1977。
- 2) 増本真悟ほか：股関節に生じた滑膜性骨軟骨腫症の2例。整形外科と災害外科，48：180-184，1999。
- 3) Milgram, J. W.: Synovial osteochondromatosis. J. Bone Joint Surg., 59-A：792-801，1977。
- 4) 宮路剛史ほか：股関節のSynovial osteochondromatosis 2症例の治療経験。整形外科と災害外科，45：739-742，1996。
- 5) 大沢欣式ほか：股関節にみたSynovial chondromatosisの3例。日整会誌，44：373，1969。
- 6) Reichel, J.: Chondromatose der Kniegelenkkapsel, Arch. Klin. Chir., 61：717，1900。
- 7) 武田 亮ほか：巨大なる膝関節内Osteochondromatoseの1治験例。整形外科，5：194，1954。
- 8) 豊永敏宏ほか：股関節に発症した巨大なるOsteochondromatosisの1例。整形外科と災害外科，24：148-150，1974。