部位的に軟骨性肉芽組織、毛細血管、組織球性細胞の浸潤等認める部があり、好中球の浸潤や明らかな結核等の所見は認められず、ペルテス氏病の疑と云う組織診断であつた。

患者は5月下旬より Gipshose による荷重を許可し退院したが、9月6日のX線所見は骨頭大部の消失と共に、残存骨頭下に中間軟骨帯の残遺が認められる。発症後2年8ヶ月の所見は、左股関節の不良肢位に於ける不完全強直が認められ、X線像は関節変形、頸部の肥厚が著明である。

考按： 本例の発症機転に就て考えて見ると、小児科医により日本脳炎と診断され、対症療法、Pc注、サルファ剤等の化学療法により、25日にして退院しているが、入院初期に於て既に左大腿部に疼痛を訴え、退院後も疼痛こそ著明でなかつたが、左下肢に跛行を呈していた事実より、本例の発熱は左側急性股関節炎乃至は大腿骨頸部に於ける急性化膿性骨髓炎に由来するものと考えの方が妥当の様に思われる。然しながら発病後50日余の外來初診時X線所見は比較的輕微なるに拘らず、その後急速に進行せる変化を考え合せるならば、此の間の経過の説明に些か困難を感じるものであるが、恐らく化膿性滑膜炎型の炎症が不十分なる化学療法により、病勢は一応頓坐せるものの、治療中止と共に再燃して来たものと解すべきであろう。

股関節の葡萄状球菌感染によつて、初期にペルテス氏病様X線所見を呈するものが稀に存在することは Brailsford も記載している所であるが、本症例では起炎菌の検索は不成功に終つた。恐らく抗生物質、化学

療法使用下にあつた為と思われる。又組織検査ではペルテス氏病の疑が診断されているが、標本採取時期が既に炎症終熄期であつたことから、炎症性病像が得られなかつたと考えられる。

本例の骨頭壊死は、化膿性炎症に基く avascular necrosis によるものと思われるが、一般にかかる壊死に陥れる炎症性骨頭は骨端線離開を起し、遊離壊死骨片像を呈し長く関節内に留まるのが通例であるが、本症例の如く原位置に止まり短期間に完全吸収されたことは比較的珍らしいことの様に考えられる。又全期を通じて大腿骨頸部の変化は一般に温和であり、その全身の所見も比較的輕度であつて、前述の如く、発熱、白血球数等も化学療法下に迅速に正常に復していることは、(但し赤沈のみは壊死骨頭が完全吸収される時期に至つて始めて急速に改善されたことは、病勢の経過観察に有力な参考になるものと思う) 過去に於ける急性化膿性関節炎の一般通念とは異なる所見にして、抗生物質、化学療法下にあつては、急性化膿性骨髓炎と同じく、化膿性関節炎も非定型的経過を取る得ることを念頭に置くべきものと思う。

主 要 文 献

- 1) 神中：神中整形外科学。
- 2) 整形外科，5，141，1954。
- 3) 藤本：外科，20，1088，1958。
- 4) 北川，鯨島：整形外科と災害外科，8，25，1958。
- 5) 河野：整形外科，7，379，1956。
- 6) 左瀬：外科，18，852，1956。
- 7) Brailsford：Radiology of Bones and Joints，1953。

Jaffe 等の所謂色素性絨毛血節性滑液膜炎の2例

熊本大学医学部整形外科教室
(主任：玉井達二教授)

星 子 亘

Two Cases of Pigmented Villonodular Synovitis in the Knee Joint.

By

W. Hoshiko

Department of Orthopedic Surgery, Kumamoto University
School of Medicine (Director: Prof. T. Tamai)

緒 言

色素性 絨毛結節性 滑液粘膜炎 (Pigmented villo-

nodular synovitis) は、主として膝関節に好発し、関節滑液膜に特異な絨毛が密生する比較的稀な疾患であります。又病理組織学的所見では、腫瘍と炎症を兼

ね備えた多彩な病像を呈する為、近年注目され始めています。私はその2例を経験しましたので報告致します。

【症例1】25才男 製材業。

主訴：左膝関節の反覆する腫脹、疼痛、及び運動制限、既往歴及び家族歴：特記すべきことはありません。現病歴：外傷を伴うことなく、32年2月以来1年4ヶ月の間に4回、左膝関節の腫脹を見、10数回の関節穿刺で常に血性穿刺液を得ています。治療として湿布、圧迫繃帯、ギプスシーネ、内服薬等を与えていますが根治せず、当科を来訪し、33年6月13日入院致しました。

所見：体格中等度、栄養良く、胸腹部臓器正常、皮膚・粘膜に何等の異常を認めません。一般血液学的検査には特記することなく、殊に出血性素因(一)であります。局所々見として、左大腿部の筋萎縮(+)、左膝関節は強く腫脹、局所熱感(+), 発赤(一)。関節運動は屈曲が特に障碍され、その際疼痛を訴えます。レ線単純撮影では骨及び関節腔に異常を認めません。膝関節穿刺により純血性液を得ましたが、その結核菌及び一般細菌学的検査は陰性で、血清ワ氏反応も(一)でありました。

手術：33年9月9日、Payr's Schnittにて関節腔内に入ると、全滑液膜は黄色、且つ肥厚し、赤褐色絨毛が密に増生、その絨毛からなおも血液が湧出していました。黄色調に変性せる両側半月板、及び絨毛に覆われた十字靱帯も含めて、全滑液膜切除術を行い、同時に膝蓋骨軟骨面には米粒大骨侵蝕がありましたのでその部を切除しました。なお絨毛は Plica alaris 及び Fossa intercondyloidea では笏状、他の部では平坦小丘陵状でビロードを思わせ、微細に観察すれば各々は蛇苺状小突起で成っていました。

術後経過：術後12日間ギプス固定、鋼線牽引14日間施行後、マッサージ、薬浴、プレドニン関節内注入、伸中式膝関節屈伸器使用。その間2週間は総量2800rのレ線照射治療。猛撃矯正1回。術後53日目に退院し、現在伸展175°、屈曲60°で職場に復帰しています。

【症例2】8才女 小学生。

主訴：既往歴及び家族歴は症例1と同様であります。

現病歴：31年5～6月頃より誘因なく右膝関節の腫脹が起り、再発を繰返すうち1年程で正坐不能となり、2年5ヶ月後当科に入院致しました。その際疼痛

は軽度で、関節穿刺液は同様に純血性でありました。

所見：体格やや瘦せ型、貧血状ではありますが、全身所見として特異なものなく、皮膚・粘膜正常、血液一般検査異常なく、特に出血素因(一)、穿刺液及び血清の細菌学的検査、ワ氏反応も陰性であります。

レ線所見：単純撮影では何らの異常を読影出来ませんでした。関節空気造影法を行つたところ、判然と絨毛像を認めました。本所見は術前の確定診断に役立ちました。(図1)

図1 膝関節空気造影 (症例2)

手術：S 33年10月14日症例1と同様に施行しました。絨毛は滑液膜全表面に密生し、特に上囊部に強く、その一部に葡萄の房状、又は厚い基質に包埋された結節10数ヶを認めました。結節は半米粒大、やや硬く、色は黒褐色でした。膝蓋骨軟骨及び大腿骨関節軟骨は黄色を呈し、やや軟の箇所もありますが、骨侵蝕は認められません。(図2)

図2 摘出標本 (症例2)

術後経過：術後4日間ギブスシーネ、鋼線牽引10日間施行後、マッサージ、ヒルドイド薬浴、神中式膝関節屈伸器使用、プレドニン経口投与。総量2000rのレ線照射、猛撃矯正1回。術後60日には伸展170°、屈曲110°となり退院しました。

【病理組織

学的所見】以上の2症例をまとめて述べます。滑液膜は強く増殖し、且つ複雑に絨毛状を呈しています。表層に近い部分には著しいヘモジデリンの沈着があり(図3)、その深部の滑液膜及び滑液膜下組織には多

数の血管新生がみられ、且つ血管壁は肥厚しています(図4)。血管周囲の間質にはプラズマ細胞、リンパ球等多数の細胞浸潤を伴っています。これらの間には新しい出血巣もみられます。又症例1では骨巨細胞腫にみられる様な巨細胞も多数あります(図5)。浸潤細胞に由来する泡沫細胞は2例共に認められません。又悪性腫脹を思わせる像はどこにも見出せません(表1)。

表 1 病理組織学的所見

	症例1 25才♂	症例2 8才♀
滑液膜の増殖	++	+++
絨毛構造	++	+++
血管新生	+++	+++
ヘモジデリン沈着	+++	+++
細胞浸潤	++	++
巨細胞	++	—
泡沫細胞	—	—
出血	+++	+
細胞異型性	—	—

考 按

本疾患は1865年 Gustav Simon の1例を始めとして、1939年 Dominic A. Santo の41例についての統計的観察、1944年 Jaffe-Lichtenstein の77例についての病理組織学的報告等によつて、新しい独立疾患として注目され始めています。その原因については悪性腫瘍説は否定されて居り、Santo & Wilson は滑液膜被覆細胞の増生に毛細管増生が加わつたもので、基礎は黄色腫(Xanthomatous tumor of joint)と考えています。又 Albertini は胎生間葉組織の未分化巨細胞が原因と述べ(Giant cell tumor), Willis も同様の見地から良性滑液膜腫(Benign synovioma)と名付けています。我国では松本氏等は「組織畸型としての滑液膜増生」+「血管系異形成による血管腫様増生」と考え、血管異形成性滑液膜過誤腫(Angiodysplastic synovial hamartoma)なる各称を提唱しました。その他 Xanthoma, Xanthoblastoma, Myeloplaxoma, Myeloid tumor, Synoviomata 等と呼称されたこともあります。

一方炎症としての見地からは、Chronische haemorrhagische arthritis, Haemorrhagic villous synovitis due to xanthoma 等の他に、1941年 Jaffe-

図 3 絨毛構造ヘモジデリン食食
H.E. (症例2)

図 4 血管増生、新しい出血
H.E. (症例1)

図 5 巨細胞 H.E. (症例1)

Lichtenstein は、泡沫細胞は他の炎症、腫瘍にもみられ、巨細胞出現も本疾患の時期によって異なる点、及び基質細胞の貪食性、基質膠元化、硝子変性の傾向から、感染の証明は出来ないが、腫瘍とは云えないと述べ *Pigmented villonodular synovitis* と名付けました。又小野氏は自験例の病理組織学的特徴ではアレルギー性慢性炎症が考えられると述べています。

以上いづれにしても未だ一致した見解には達していません。

発生形式として結節を主とするものと、瀰漫性の絨毛増殖を主とするものとがあり、Jaffe は広汎型と弧発型、Santo は瀰漫型、多発型、弧発型に分類しました。発生部位は下肢の関節、殊に膝関節に集中的に好発します。一方、関節嚢、腱鞘からも発生することがあると云われています。両側性になる事はありません。臨床的特徴は表2に示す如くです。

表 2 臨床的特徴

1. 好発部位	膝関節、且つ偏側性
2. 外傷	(±)
3. 関節腫脹	(+) 反覆腫脹
4. 運動障害	(+) 屈曲>伸長
5. 運動痛	(+) 時に激痛
6. 関節内腫瘍	限局型では(+), 可動性(+)
7. 穿刺液	常に血性
8. 出血素因	(-)
9. 悪性化	(-)
10. 術前確定診断	関節鏡又は関節空気造影法で絨毛(+)

治療としては滑液膜全切除に加えて、十字靱帯、両側半月板もすべて除去せねばならぬこともあり、再発症例もある点から見て、放射線治療は行つた方がよく、又関節強直を残す例が少くないので、術後の関節運動を管理することは重要と考えます。

結 語

Jaffe 等の所謂色素性絨毛結節性滑液膜炎の2例を経験したので報告しました。2例共瀰漫型で、病理組

織学的には炎症像が著明でありました。本疾患は既知の膝関節疾患に隠れて、実際には更に数多く存在する疾患であると思われます。

終りに終始御指導を賜りました玉井達二教授、病理組織学的御教示を頂きました第二病理学教室松本英世先生に心から感謝致します。

文 献

- 1) 藤野：グレンツゲビート，10年，11号，p. 1672.
- 2) 赤林：整外，巻1，号3，p. 236～239.
- 3) 勝：外科，13巻，11号，p. 575～577.
- 4) 宮崎：臨床外科，6巻，p. 529～532.
- 5) 津下：外科，15巻，3号，p. 182～184.
- 6) 松本：日整外雑誌，15巻，3号，p. 182～184.
- 7) 白石：日整外雑誌，29巻，1号，p. 81.
- 8) 高野：日整外雑誌，30巻，5号，p. 672.
- 6) 松本：日整外雑誌，30巻，7号，p. 891～902.
- 10) 山本：外科，19巻，4号，p. 295.
- 11) 田口：外科，19巻，4号，p. 295.
- 12) 渡辺：日整外雑誌，30巻，5号，p. 672.
- 13) 蒲原：整外，8巻，4号，p. 263.
- 14) 小野：日整外雑誌，58巻，3号.
- 15) 鈴木：日整外雑誌31巻，8号，p. 830.
- 16) 山口：日整外雑誌，31，8号，p. 830.
- 17) Simon, G.: Arch. Klin. Chir. 1865, p. 573～576.
- 18) Santo, D. A.: Jour. of Bone & Joint Surg. Vol. 21, No. 3, 1939, p. 531～557.
- 19) Jaffe, H. L.: Arch. of Pathology 31, 1941, p. 731～765.
- 20) Willis, R. A.: Pathology of tumors, 1948.

追 加

神戸医大整形 金 栗 宏 文

31才男子で右膝関節部に生じた良性巨細胞性滑液腫重を追加報告する。本症は典型的臨床経過と組織像を有した症例であり、超薄切断法により得た電顕像により腫瘍である事を確認した。Gustav Simon に始まる多数の報告も最近症説と良性腫瘍説に別れ意見の一致を見ないから私は Stewart 及び Willis 等と同じく良性巨細胞滑液膜腫として報告する。