

肘関節に発生した色素性絨毛結節性滑膜炎により 後骨間神経麻痺をきたした1例

山田 哲也 野本 栄

埼玉石心会病院整形外科

Posterior Interosseous Nerve Palsy Due to Pigmented Villonodular Synovitis of the Elbow: A Case Report

Tetsuya Yamada Sakae Nomoto

Department of Orthopaedic Surgery, Saitama Sekishinkai Hospital

肘関節に発生した色素性絨毛結節性滑膜炎 (PVS) により後骨間神経麻痺をきたした症例を経験したので報告する。

症例：57歳女性。商品陳列作業後に左肘関節痛，6日後に指伸展不全が出現した。肘関節腫脹熱感，Frohse 腱弓の圧痛，後骨間神経麻痺を認めた。画像検査，針生検を行い，PVS と考え手術を行った。滑膜が後骨間神経を圧迫しており，靭帯を温存して可及的滑膜切除を行った。術後3日で患肢を使用し，3週で麻痺は改善した。肘頭窩に再発を認めるが，症状なく経過観察中である。

考察：PVS の肘関節発生や神経症状は稀である。鑑別診断は，神経炎による後骨間神経麻痺，感染やリウマチ，滑膜肉腫などが考え得る。治療は，完全滑膜切除では大きな侵襲が，可及的滑膜切除では残存腫瘍が問題となる。再発時の治療は放射線療法，薬物療法があるが確立されていない。再発しても長期間無症候例もあり，長期経過観察も対処法の一つと考えられる。

【緒言】

色素性絨毛結節性滑膜炎 (以下 PVS) は組織球形増殖疾患であり膝関節や股関節の報告が多い。肘関節発生の PVS は稀であり報告も少ない。PVS はその緩徐な増殖のために神経症状をきたすことも少ない。今回，肘関節に発生した PVS により後骨間神経麻痺をきたした症例を経験したので文献的考察をまじえて報告する。

【症例】

57歳女性。主訴は左手指伸展不全と左肘関節痛である。スーパーの品出し作業後に左肘関節痛が出現し当院救急外来受診，NSAID が処方され痛みは改善した。6日後に指伸展不全が出現したため当科初診となった。初診時，左肘関節周囲の腫脹熱感を認め，arcade of Frohse に圧痛を認めた。肘関節可動域制限なく，知覚異常も認めなかったが，MMT で橈側手根伸筋 5，総指伸筋 0，長母指伸筋 0 と後骨間神経麻痺を呈していた。単純 X 線では肘頭窩に骨透亮像を認め (図 1)，CT では肘頭窩に骨侵蝕像を認めた (図 2)。MRI で肘関節内から肘頭窩の骨内，さらに橈骨頭前方に達する T1・T2 低信号の境界不明瞭なびまん性腫瘍を認めた (図 3)。関節内には関節水腫を認めた。感染による滑膜増殖も考慮したが，発熱なく，血液所見で

も炎症反応の上昇なく否定的であった。関節リウマチや PVS，滑膜肉腫を考え，針生検を行ったところ，悪性所見なく滑膜炎疑いの診断であった。以上より，PVS と考え滑膜切除術を施行したが，患者は母親の介護をしており，早期の社会復帰を希望していた。

手術では，まず，腫瘍が皮膚直下に存在する後外側の小皮切から検体を採取して術中病理迅速診断を行い，PVS の確定診断を行った (図 4)。その上で，皮切を延長して後外側アプローチから後方，内外側の滑膜を切除した。さらに前外側から Henry のアプローチで前方の滑膜を切除した。黄褐色の滑膜を肘関節内全体に認め，さらに関節外までびまん性に増殖していた。肘頭窩では骨に浸潤していた。前方展開時に黄色関節液が漏出し，回外筋と増殖滑膜の間で後骨間神経が圧迫されていた。神経周囲，肘頭窩の滑膜切除を念入りに行い，拡大鏡下に完全滑膜切除を行った。しかし，輪状靭帯，内外側の側副靭帯を温存して滑膜切除を行ったため，内側側副靭帯周囲は可及的な切除となった。

術後3日から患肢の使用を許可し，後骨間神経麻痺は3週で改善した。術後1年4か月の現在，肘頭窩に再発を認める (図 5) が増大傾向なく，症状もないため経過観察中である。

Key words : posterior interosseous nerve palsy (後骨間神経麻痺)，pigmented villonodular synovitis (色素性絨毛結節性滑膜炎)，elbow (肘関節)

Address for reprints : Tetsuya Yamada, Department of Orthopaedic Surgery, Saitama Sekishinkai Hospital, 1-33 Unoki, Sayama, Saitama 350-1323 Japan



図1 術前単純X線。
肘頭窩に骨透亮像を認める。(矢印)

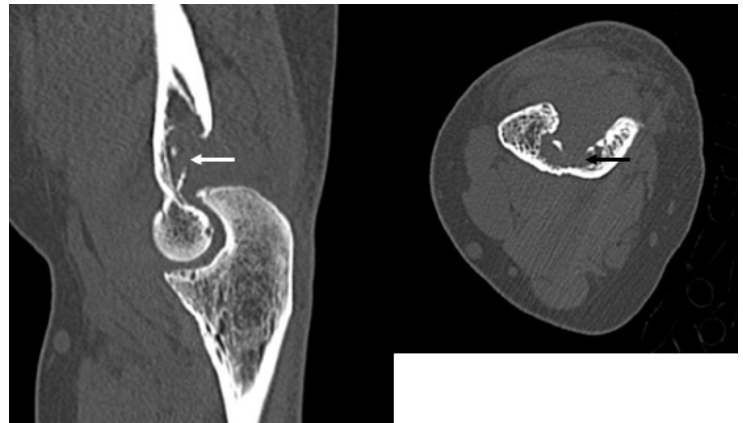


図2 術前CT画像。
肘頭窩に骨侵蝕像を認める。(矢印)

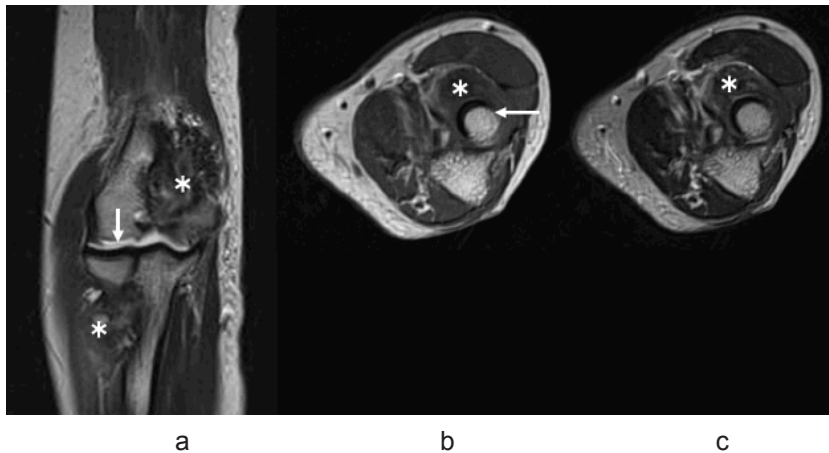


図3 術前MRI画像
a. T2強調冠状断像。
肘頭窩から橈骨頭前方に広がる腫瘍を認め(*), 関節水腫を認める(矢印)。
b. T1強調横断像。
c. T2強調横断像。橈骨(矢印)前方のArcade of Frohse部に低信号腫瘍を認める(*)。

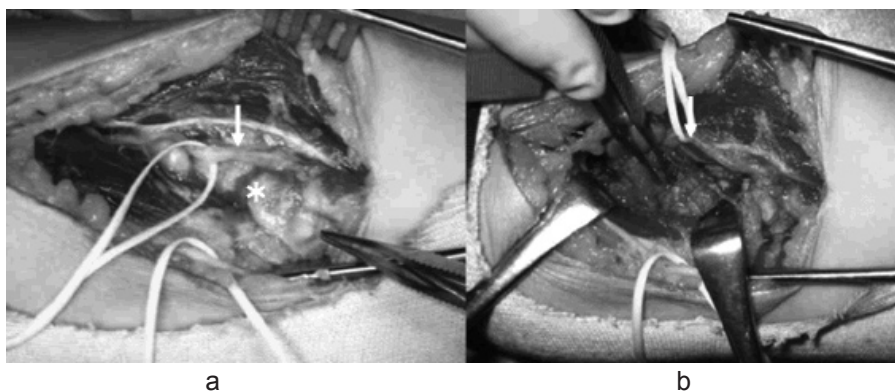


図4 術中写真(画像左が近位)
a. 黄褐色滑膜(*)により後骨間神経(矢印)は圧迫されていた。
b. 滑膜切除後、後骨間神経(矢印)は除圧された。



図5 術後MRI (T2強調画像).
肘頭窩にPVSの再発(*)を認める.

【考 察】

PVSは組織球性増殖疾患で、境界明瞭な限局型と、境界不明瞭なびまん型に分類されてきた¹⁾。原因は、外傷起源説、炎症説、腫瘍説、脂質代謝異常説などが考えられていた²⁾。しかし、PVSと腱鞘巨細胞種は組織学的には同一の疾患であり、2002年のWHO分類で、びまん型巨細胞種として腫瘍に分類された³⁾。限局型の再発は少ないが、びまん型では再発が多く、術後再発率は40～50%に達する⁴⁾。発生率は100万人に1.8人であり膝関節や股関節の罹患が多い⁵⁾。症状は罹患関節の腫脹、疼痛と繰り返す血性浸出液であるが、発赤、熱感など感染を疑わせるような症状を呈することも多い。発症当初は、症状が軽微なことも多く、X線でも異常を認めないため見逃されることも多い。発症から初診までの罹病期間は平均5.8年と報告されている⁴⁾。

肘関節発生のPVSは稀であり、渉猟しえた範囲で27例の報告にとどまり^{4,6-8)}、神経症状の合併はさらに稀である。肘PVSの特徴は、他の関節に比べてびまん型が多いため、骨浸潤が70%と多く⁷⁾、再発率も高い。また、PVSは緩徐に増殖するため神経症状をきたすことは稀であり⁹⁾、過去の報告では手根管症候群9例、坐骨神経麻痺1例、橈骨神経麻痺1例、尺骨神経麻痺1例である⁹⁻¹²⁾。神経症状の発症は腫瘍そのものによるものや浸出液による場合がある。本例では、腫瘍により神経が慢性的に圧迫を受けた状態に労働による滑膜からの浸出が加わったために局所の腫脹熱感と急性麻痺が生じたと考えられた。

診断については他の疾患との鑑別を要する²⁾。本例では疼痛の後に急性麻痺をきたしており、まず、ガングリオンや神経炎による後骨間神経麻痺が考えられる。一方、局所の腫脹熱感からは細菌、結核感染やリウマチなどの炎症性疾患が疑われる。また、びまん性増殖からは滑膜肉腫などの悪性腫瘍も考慮すべきである。臨床経過や局所所見、血液所見、画

像所見、針生検などの各種検査を総合した診断が必要であり、十分な検体量が採取できる術中病理診断も不可欠と考える。

PVSは増殖性疾患であり、最終的には関節破壊をきたすため、治療は手術による滑膜切除が第一選択である。再発を防ぐためには完全に滑膜を切除することが必要であり、関節鏡視下滑膜切除や直視下滑膜切除の報告がある¹³⁾。関節鏡視下滑膜切除では小侵襲での手術が可能であるが技術的な困難を伴い、本例のように関節外まで進行した場合には適応外である。直視下完全滑膜切除は、施行可能であれば理想的であるが、本例の場合、広範な滑膜の広がりに対応すべく複数の皮切が必要となる。さらに、十分な展開、切除のためには靭帯など関節支持機構の切離、切除が必要となり侵襲的である。また、肘PVSのびまん性浸潤の性質により、たとえ拡大鏡、顕微鏡を使用して手術を行ったとしてもさらに微細な組織学的には滑膜の取り残しがあり得る。直視下完全滑膜切除ではそうして取り残した滑膜の増殖や、完全切除を目指して加えた侵襲により関節破壊が進行することが問題となっている⁵⁾。一方、靭帯を温存した可及的な滑膜切除は早期社会復帰が可能だが、残存腫瘍が増殖して関節破壊が進行する可能性がある。再発を防ぐためには完全滑膜切除を行うことが基本であるが、再発しても長期間無症候の報告もある¹⁴⁾。本例でも早期社会復帰を希望したため靭帯を温存して滑膜切除を行い、再発を認めたが現在のところ無症状である。よって、手術方法は可能であれば完全切除を行うべきであるが、症状や社会背景を考慮して可及的な切除を行い、長期の経過観察を行うことも一つの方法と考えられる。

再発時の治療は様々な報告がある^{3,5)}。再滑膜切除は繰り返す関節への侵襲が問題となる。再度滑膜切除を行って人工関節置換を行う報告もあるが、本例のように比較的若年者への適応には慎重な考慮を要する。放射線療法には外照射する方法と関節内へ

の局所投与があるが、いずれも局所、所属リンパ節の誘発癌の可能性がある¹⁵⁾。近年、イマチニブ、インフリキシマブ、デノスマブなど薬物療法の報告があるが、その効果や副作用について確立されているとは言いがたい¹⁶⁻¹⁸⁾。前述のとおり、再発しても長期間無症候例もあり、経過観察も対処法の一つと考えられる。ただし、その場合、再発滑膜の増殖、関節破壊に関して長期の経過観察が必要と考えられる。

【結 語】

肘関節に発症したPVSにより後骨間神経麻痺をきたした稀な1例を経験したので報告した。肘PVSは稀であり再発・関節破壊も多いことから、その診断と治療選択には注意を要する。各種検査を総合して診断し、症状・社会背景に応じて治療を行った上で、長期の経過観察が必要と考えられる。

【文 献】

- 1) Jaffe HL, Lichtenstein L, Sutro CJ : Pigmented Villonodular Synovitis. Arch Path. 1941 ; 31 : 731-65.
- 2) Bravo SM, Winalski CS, Weissman BN : Pigmented Villonodular Synovitis. Clin Orthop Am. 1996 ; 34 : 311-26.
- 3) 西田佳弘, 筑紫 聡, 浦川 浩ほか : 色素性絨毛結節性滑膜炎 (PVNS). 臨整外. 2014 ; 49 : 243-7.
- 4) 高橋 晃, 堀 武生, 平出敦夫ほか : 肘頭骨切りを利用して骨内外病巣を切除した肘色素性絨毛結節性滑膜炎の1例. 整形外科. 2009 ; 60 : 1067-71.
- 5) Nishida Y, Tsukushi S, Nakashima H, et al : Osteochondral Destruction in Pigmented Villonodular Synovitis During the Clinical Course. J Rheumatol. 2012 ; 39 : 345-51.
- 6) 金澤憲治, 信田進吾, 佐藤克己 : 骨浸潤を伴う色素性絨毛結節性滑膜炎の1例. 日肘会誌. 2008 ; 15 : 157-9.
- 7) Pimpalnerkar A, Barton E, Sibly TF : Pigmented Villonodular Synovitis of the Elbow. J Shoulder Elbow Surg. 1998 ; 7 : 71-5.
- 8) DiCaprio MR, Damron TA, Stadnick M, et al : Pigmented Villonodular Synovitis of the Elbow : A Case Report and Literature Review. J Hand Surg Am. 1999 ; 24 : 386-91.
- 9) Geiger EV, Reize P, Wehrmann M, et al : Radial and Ulnar Neuropathy Due to Pigmented Villonodular Synovitis of the Elbow : J Shoulder Elbow Surg. 2006 ; 15 : e8-10.
- 10) 市村晴充, 田中利和, 小川 健 : 色素性絨毛結節性滑膜炎による手根管症候群の2例. 日手会誌. 2011 ; 28 : 166-70.
- 11) McClain EJ, Wissinger HA : The Acute Carpal Tunnel Syndrome: Nine Case Report. J Trauma. 1976 ; 16 : 75-8.
- 12) 麻生邦一, 鳥巢岳彦, 真角昭吾ほか : 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1例. Hip Joint. 1983 ; 9 : 215-9.
- 13) 宮本健太郎, 中島浩敦, 吉田雅博ほか : 小児の色素性絨毛結節性滑膜炎の診断と治療. 別冊整形外科. 2013 ; 64 : 207-12.
- 14) 小林伸輔, 礪部研一, 吉村康夫ほか : 膝関節発生のびまん型色素性絨毛結節性滑膜炎の治療成績. 整形外科. 2013 ; 64 : 1068-71.
- 15) Shabat S, Kollender Y, Merimsky O, et al : The Use of Surgery and Yttrium90 in the Management of Extensive and Diffuse Pigmented Villonodular Synovitis of Large Joints. Rheumatology. 2002 ; 41 : 1113-8.
- 16) Cassier PA, Gelderblom H, Stacchiotti S, et al : Efficacy of Imatinib Mesylate for the Treatment of Locally Advanced and/or Metastatic Tenosynovial Giant Cell Tumor/Pigmented Villonodular Synovitis. Cancer. 2012 ; 1649-55.
- 17) Kroot E-JA, Kraan MC, Smeets TJM, et al : Tumor Necrosis Factor α Blockade in Treatment Resistant Pigmented Villonodular Synovitis. Ann Rheum Dis. 2005 ; 64 : 497-9.
- 18) Thomas D, Henshaw R, Skubitz K, et al : Denosmab in Patients with Giant-Cell Tumor of Bone : an Open-Label, Phase 2 Study. Lancet Oncol. 2010 ; 11 : 275-80.