

滑膜骨軟骨腫症により生じた有痛性上腕二頭筋橈骨滑液包炎の1例

山本 大樹 多田 薫 中嶋 幸大 中田 美香 土屋 弘行
金沢大学整形外科

Painful Bicipitoradial Bursitis due to Synovial Osteochondromatosis; A Case Report

Daiki Yamamoto Kaoru Tada Tadahiro Nakajima Mika Nakada Hiroyuki Tsuchiyai
Department of Orthopaedic Surgery, Graduate School of Medical Science, Kanazawa University

肘窩部の安静時痛を契機に診断に至った、上腕二頭筋橈骨滑液包における滑膜骨軟骨腫症の1例を経験したので報告する。

症例は74歳の男性である。特に誘因なく、左肘窩部外側の耐え難い安静時痛を認めるようになった。単純X線、CTでは橈骨近位前方に骨化巣を認め、MRIでは上腕二頭筋腱から橈骨粗面周囲に不均一な腫瘤性病変を認めた。手術では骨化巣の摘出に加え、橈骨粗面周囲の滑膜様組織を可及的に搔爬した。術中迅速病理ではヘモジデリン沈着を認め、色素性絨毛結節性滑膜炎が疑われたが、永久標本では炎症細胞の浸潤には乏しく、滑膜と軟骨組織が混在した像を呈しており滑膜骨軟骨腫症の診断であった。

上腕二頭筋橈骨滑液包炎は肘関節運動時痛や可動域制限、あるいは無痛性の腫瘤として報告されることが多い。自験例では病変部への繰り返す機械的刺激や、橈骨内部への腫瘤の浸食による骨融解が安静時痛の原因となったと考えられた。

【結 言】

滑膜骨軟骨腫症は滑膜細胞の骨軟骨化生による軟部腫瘍類似疾患で、大多数は膝関節内に発生するとされる。肘関節における滑膜骨軟骨腫症の報告は散見される^{1,2)}が、上腕二頭筋橈骨滑液包における発生例は、われわれが渉猟し得た限りでは過去に1例の報告³⁾があるのみであり、肘関節の可動域制限、無痛性の腫瘤が主訴であった。われわれは、肘窩部の安静時痛を契機に診断に至った、上腕二頭筋橈骨滑液包における滑膜骨軟骨腫症の1例を経験したので報告する。

【症 例】

症例は74歳の男性である。左肘窩部外側の痛みに対して、近医で上腕骨外側上顆炎として保存療法を受けていた。しかし、特に誘引なく同部位の強い安静時痛を自覚するようになり、MRIで腫瘤性病変を認めたため、当院紹介となった。縫製業を営んでおり、糸を手で巻き取る動作（前腕回内位での肘関節屈曲伸展運動の繰り返し）を頻繁に行うとのことであった。

肘窩部外側に軽度の圧痛を認め、肘関節屈曲時および前腕回内時に運動時痛を認めたが、可動域制限はなかった。同部位の腫脹や発赤などの炎症所見は認めなかった。

単純X線像では橈骨粗面の前方に長径約7mmの骨化巣を複数認め、橈骨粗面には一部陥凹を認めた(図1)。CTでは橈骨粗面の近位部に骨融解像を認め

た(図2)。MRIでは橈骨粗面と上腕二頭筋腱の間に一部不均一にT1で低信号、T2で高信号となる腫瘤性病変を認め、腫瘤内にはT2で低信号となる小領域が散在していた。腫瘤の辺縁のみガドリニウムによる造影効果を認め、CTで認めた骨融解部への浸食を認めた(図3)。

身体所見およびMRI所見から滑膜骨軟骨腫症にともなった上腕二頭筋橈骨滑液包炎(bicipitoradial bursitis: BRB)の可能性を第一に考えた。しかし、橈骨近位部の融解像を認めていることから、undifferentiated pleomorphic sarcomaなど悪性疾患も含めた軟部腫瘍の可能性も考え、術中迅速病理検査で腫瘤の性状を鑑別した後に、可及的病巣搔爬を行う計画とした。

手術は肘関節前外側から縦切開で行った。橈骨神経(浅枝および後骨間神経)を同定、剥離し上腕二頭筋腱付着部を展開した。上腕二頭筋腱遠位部は褐色に変性、膨化しており、腱実質内に単純X線およびCTで認めた骨化巣が確認された。さらに、その近傍の滑液包を穿刺すると淡血性の滑液が約1ml採取された。術中迅速病理検査では滑膜内にヘモジデリン沈着を伴っており、色素性絨毛結節性滑膜炎(pigmented villonodular synovitis: PVNS)の可能性が考えられた。悪性所見を認めなかったため、病巣搔爬を施行した。膨化した腱付着部および滑液包を切開すると白色あるいは褐色の滑膜片を多数認め、可及的に搔爬を行った(図4)。

Key words : bicipitoradial bursitis (上腕二頭筋橈骨滑液包炎), synovial osteochondromatosis (滑膜骨軟骨腫症), pain (疼痛)
Address for reprints : Daiki Yamamoto, Department of Orthopaedic Surgery, Graduate School of Medical Science, Kanazawa University, 13-1 Takara-machi, Kanazawa 920-8641 Japan

永久病理組織検査では、術中迅速検査と同様に滑膜内にヘモジデリン沈着を認めたものの、滑膜の表層や深層の一部に限局しており、またリンパ球浸潤や巨細胞は認めなかった。そのためPVNSは否定的で滑膜内での出血を反映したヘモジデリン沈着の可能性が考えられた。一方で滑膜片内に骨軟骨形成を認めており、最終組織診断は滑膜骨軟骨腫症であった(図5)。

術後3か月で安静時痛および運動時痛は消失し、原職に復帰した。術後2年の現在、明らかな再発は認めていない。



図1 単純X線側面像。
骨化巣(▽)と橈骨粗面部の陥凹(→)を認める。

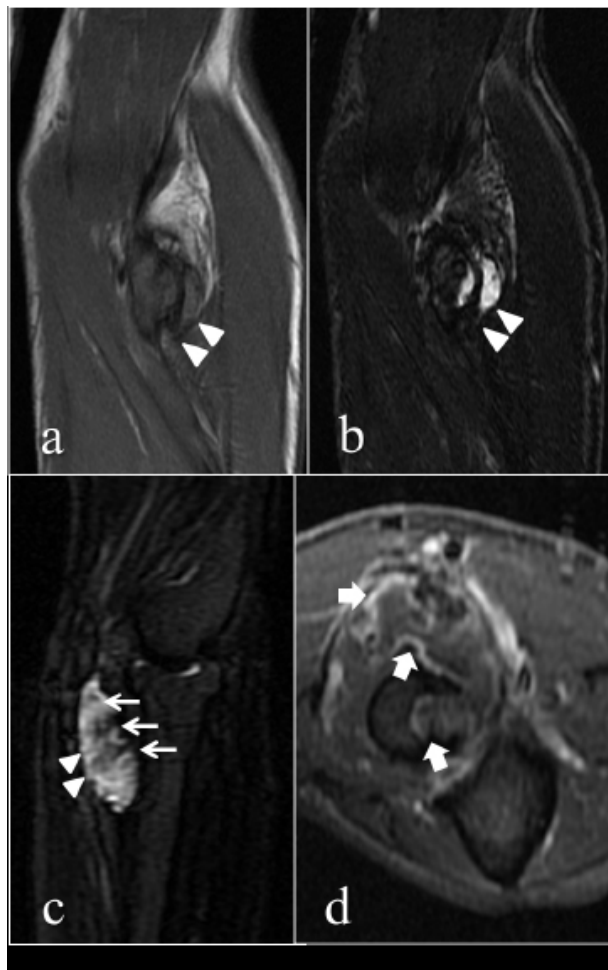


図3 MRI画像。
a: T1強調 coronal 像, b: T2強調 coronal 像,
c: T2-STIR sagittal 像, d: T1-Gd axial 像。
不均一な腫瘤性病変(▽)と、内部にT2低信号となる小領域(→)を認める。
腫瘤の辺縁のみ造影効果を認める(⇒)。

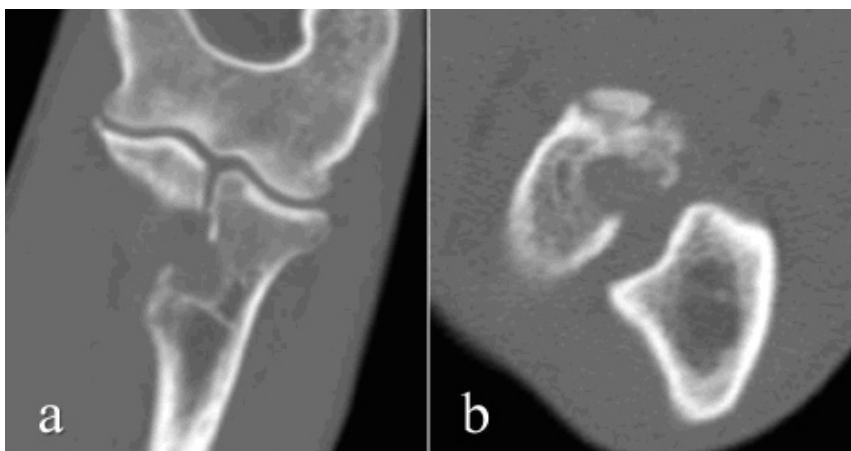


図2
a: CT-coronal 像, b: axial 像。
橈骨粗面近位部の骨溶解像を認める。

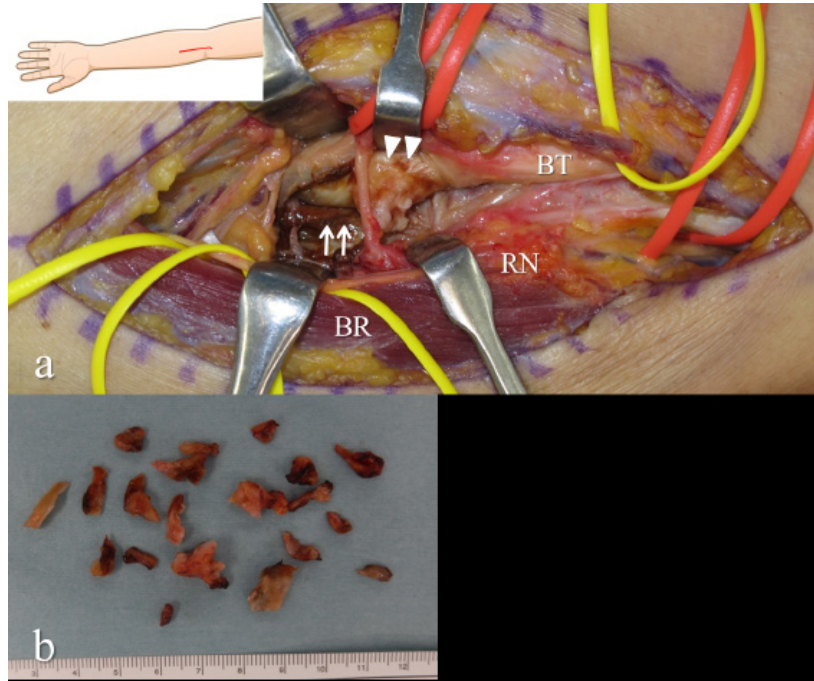


図4 術中所見.
 褐色に膨化した上腕二頭筋腱遠位部 (▽) および周囲滑液胞 (→) を認め (a),
 可及的滑膜切除術を施行した (b).
 BT: 上腕二頭筋腱, RN: 橈骨神経, BR: 腕橈骨筋

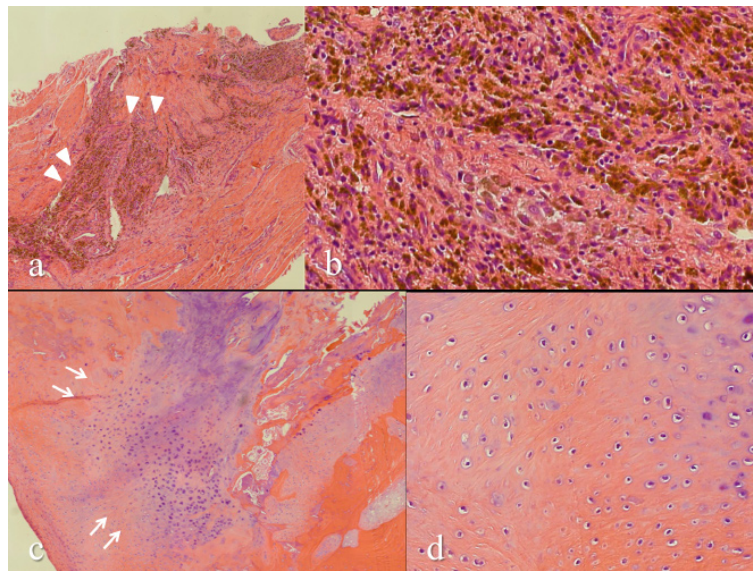


図5 滑膜内部に局限したヘモジデリン沈着 (▽) を認めたが (a:×5, b:×20),
 多核巨細胞やリンパ球浸潤など PVNS を疑う所見は認めなかった.
 滑膜内に骨軟骨形成 (→) を認めており (c:×5, d:×20), 滑膜骨軟骨腫症の
 診断であった.

【考 察】

上腕二頭筋橈骨滑液包は橈骨粗面と上腕二頭筋腱の間に存在し、摩擦力に対する緩衝作用を持つとされる。BRBの原因としては繰り返す機械的刺激⁴⁾、関節リウマチ⁵⁾、滑膜骨軟骨腫症³⁾、骨軟骨腫⁶⁾、腱付着部炎による骨棘形成⁷⁾、結核菌感染⁸⁾など様々な病態が報告されている。自験例で認めた滑膜骨軟骨腫症については、Matsumotoらの症例報告³⁾による1例のみであり、その病態としては滑膜骨軟骨腫症による遊離体(軟骨腫)がperiradial recessを閉塞し、肘関節との交通が絶たれることでBRBが生じたと考察されている。自験例では術中所見として明確なperiradial recessの閉塞は指摘し得なかったが、橈骨粗面近位部に腫瘤による骨融解像を認めたことから、過去の報告と同様の病態を認めた可能性を考えた。

BRBは滑液包内の液体貯留が増悪し、巨大な腫瘤形成を認めたものにおいては近接する正中神経⁴⁾や橈骨神経⁹⁾の障害を来したとする報告がある。また主訴の多くは可動域制限や肘関節あるいは前腕の運動時痛など軽微であることが指摘されている⁵⁾。一方、自験例は過去の報告とは異なり、耐え難い安静時痛が主訴となったBRBの1例であった。前腕回内位では上腕二頭筋腱と橈骨の間隔が狭くなり、つまり上腕二頭筋橈骨滑液包は圧迫され、その肢位での繰り返す機械的刺激はBRBを惹起するという報告がある⁴⁾。自験例は職業上、前腕回内位での肘関節屈曲伸展動作を頻繁に行っているとのことであり、患肢への繰り返す機械的刺激がBRBの増悪因子となったと考えた。

また、過去のBRBの報告における骨変化^{3,6)}としては、橈骨近位部のapple core様の圧排像として認められているが、自験例では骨内への浸食像を呈しており、浸食による骨融解も安静時痛の原因となった可能性を考えた。

つまり、自験例では滑膜骨軟骨腫症によりperiradial recessに閉塞を生じたためにBRBが惹起され、さらに、前腕回内位での滑液包に対する繰り返す機械的刺激によって滑液包内あるいは滑膜内での出血が生じたこと、あるいは骨内への浸潤による骨融解が生じたことにより安静時痛が生じたと推察された。

滑膜骨軟骨腫症の治療としては一般的にMilgramの分類に沿って術式が選択される。自験例はphase 2と考えられるため、再発を予防するためには遊離体の摘出のみでなく、滑膜切除も併せて行う必要がある。術中病理検査ではPVNSが疑われたため、その再発予防のため徹底的な滑膜切除を行ったことで結果として滑膜骨軟骨腫症の治療および再発予防に繋がった1例であった。単純X線、CT像で確認可能な上腕二頭筋腱内部の骨化巣の切除摘出のみでは、疼痛の軽快は得られなかった可能性があり、直視下で徹底的な滑膜切除を行ったことが重要であったと考える。稀な疾患ではあるが、BRBの原因として滑膜骨軟骨腫症のような腫瘍類似疾患の存在も念頭におき、治療方針を決定することが必要である。

【まとめ】

繰り返す機械的刺激と滑膜骨軟骨腫症という、本来であればいずれもBRBの発症因子となりうる病態が同時に存在したことで、非典型的な安静時痛を生じたと考えられた1例を経験した。

稀な病態ではあるがBRBは様々な要因から起こり、様々な臨床所見を呈しうることを念頭に置くべきである。

【文 献】

- 1) Kamineni S, O'Driscoll SW, Morrey BF: Synovial osteochondromatosis of the elbow. *J Bone Joint Surg Br.* 2002; 84: 961-6.
- 2) Mueller T, Barthel T, Cramer A, et al: Primary synovial chondromatosis of the elbow. *J Shoulder Elbow Surg.* 2000; 9: 319-22.
- 3) Matsumoto K, Hukuda S, Fujita M, et al: Cubital bursitis caused by localized synovial chondromatosis of the elbow. A case report. *J Bone Joint Surg Am.* 1996; 78: 275-7.
- 4) Karanjia ND, Stiles PJ: Cubital bursitis. *J Bone Joint Surg Br.* 1988; 70: 832-3.
- 5) Espiga X, Alentorn-Geli E, Lozano C, et al: Symptomatic bicipitoradial bursitis: a report of two cases and review of the literature. *J Shoulder Elbow Surg.* 2011; 20: e5-9.
- 6) 白井久也, 杉本裕宣, 野田和王ほか: 上腕二頭筋腱周囲滑液包炎を伴い橈骨粗面に生じた骨軟骨腫様病変. *日肘会誌.* 2012; 19: 308-11.
- 7) Nojiri H, Yoon S, Kai F, et al: Enthesopathy of the bicipital tuberosity of the radius causing painful forearm rotation. *J Shoulder Elbow Surg.* 2009; 18: e17-20.
- 8) Singh AP, Chadha M, Singh AP, et al: Isolated tuberculous biceps tenosynovitis bicipitoradial bursitis: a case report. *J Shoulder Elbow Surg.* 2009; 18: e30-3.
- 9) Ng C, Bibiano L, Grech S, et al: Antecubital fossa solitary osteochondroma with associated bicipitoradial bursitis. *Case Rep Orthop.* 2015; Epub.