

顎関節に生じた滑膜性軟骨腫症の1例
—組織化学的検討および文献的考察—

鳥取大学医学部歯科口腔外科学教室（主任：濱田 駿教授）

八尾正己・領家和男・谷尾和彦・澤田孝紀・入澤 徹

加納 聡・高橋啓介・石倉信造・濱田 駿

米子医学雑誌 45 卷 6 号 別冊

平成 6 年 11 月

Reprinted from

THE JOURNAL OF THE YONAGO MEDICAL ASSOCIATION

Vol. 45, No. 6, *November 1994*

顎関節に生じた滑膜性軟骨腫症の1例

—組織化学的検討および文献的考察—

鳥取大学医学部歯科口腔外科学教室（主任：濱田 駿教授）

八尾正己・領家と男・谷尾和彦・澤田孝紀・入澤 徹
加納 聡・高橋啓介・石倉信造・濱田 駿

A case of synovial chondromatosis of the temporomandibular joint

—Histochemical study and review of literature—

Masami YAO, Kazuo RYOKE, Kazuhiko TANIO,
Takanori SAWADA, Tohru IRISAWA, Satoshi KANO,
Keisuke TAKAHASHI, Shinzo ISHIKURA, Takeshi HAMADA
*Department of Oral and Maxillofacial Surgery,
Faculty of Medicine, Tottori University, Yonago 683, Japan*

ABSTRACT

Synovial chondromatosis of temporomandibular joint(TMJ) is rare disease. We experienced a case of synovial chondromatosis of the right TMJ. The patient was a 60-year-old woman complained of displeased feeling at the right TMJ, and was referred to our department due to suspicion of tumor of the right TMJ. After examinations of X-ray photographs, computed tomography, magnetic resonance imaging and ultra sonic resonance, we removed the mass and resected synovium as widely as possible under general anesthesia. The histopathological diagnosis was synovial chondromatosis of the TMJ.

We examined histochemically with alcian blue and toluidine blue staining about extirpated mass, and reviewed 18 cases of synovial chondromatosis of the TMJ in the literature in Japan.
(Accepted on September 8, 1994)

Key words : synovial chondromatosis (滑膜性軟骨腫症)
temporomandibular joint (顎関節)
histochemistry (組織化学)

緒 言

滑膜性軟骨腫症は、滑膜が軟骨化生または骨化生を起こす疾患である。本症は膝関節や肘関節に

好発する疾患であるが、顎関節における報告は少ない。今回われわれは、右顎関節に認められた滑膜性軟骨腫症の1例を経験したので、組織化学的検討および本邦報告例にもとづく文献的考察を加

え報告する。

症 例

患 者：60歳 女性。

初 診：平成4年1月17日。

主 訴：右顎関節部の違和感。

既往歴：昭和45年、後頸部肉芽腫の摘出を受けた。昭和54年より高血圧症にて降圧剤内服中であった。

現病歴：昭和62年、右顎関節部の腫脹、疼痛および開口障害を自覚し、耳鼻科を受診した。投薬処置により、腫脹および疼痛は速やかに消退した。その後、同部の軽度違和感を自覚するも放置していた。平成3年12月、歯科治療の際、右顎関節部のX線不透過像を指摘され、当科を紹介された。

現 症

全身所見：特記事項なし。

口腔外所見：右耳介前部に、無痛性の軽度びまん性腫脹を認めた。

口腔内所見：開口度は31mmで、開口時著明な下顎の右方偏位を認めた。また $\frac{7+2}{7+7}$ に義歯（初診より1か月前に作製）が装着されていたが、咬合状態に異常は認めなかった。

X線所見：パノラマ撮影で、右顎関節部より下

顎切痕付近に至るやや不均一な母指頭大のX線不透過像を認めた（図1）。

CT所見：下顎切痕部付近に、母指頭大のX線不透過像を認めた（図2）。

MRI所見：右顎関節頭の内前方で、関節包内部に存在する腫瘤を認めた。関節円板は正常な位置にあり、腫瘍の周囲への浸潤はなかった（図3）。

超音波検査所見：右下顎切痕内に直径13mmの境界明瞭なHypoechoic massを認めた。

臨床診断：右顎関節部腫瘍。

処置および経過：平成4年4月2日、全身麻酔下に腫瘍切除術を施行した。耳前側頭切開を加え、顎関節部を剖出し、滑膜と一部癒着した腫瘍を摘出するとともに、可及的に滑膜の切除を行った（図4）。摘出物は塊状で、浅部はやや粗造にて、深部に向かうほど硬さを増していた。浅部の薄い膜様物を破ると、内部より多数の白色の小顆粒状石灰化物を認めた（図5）。術後、開口度は47mmとなり、顎関節部違和感も消失し、術後経過は良好である。

病理組織所見：HE染色による病理像では、線維性結合組織から軟骨組織に移行する、いわゆるCartilagenous metaplasiaの所見を認めた（図6a）。アルシアン青染色では、軟骨化生の存在する領域

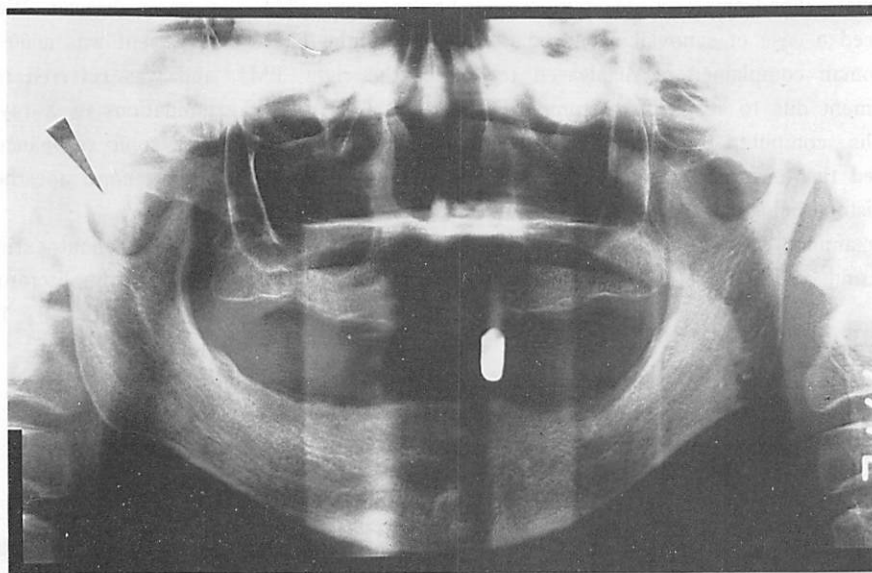


図1 初診時のパノラマ写真。

右顎関節部より下顎切痕部付近に至るX線不透過像を認める。

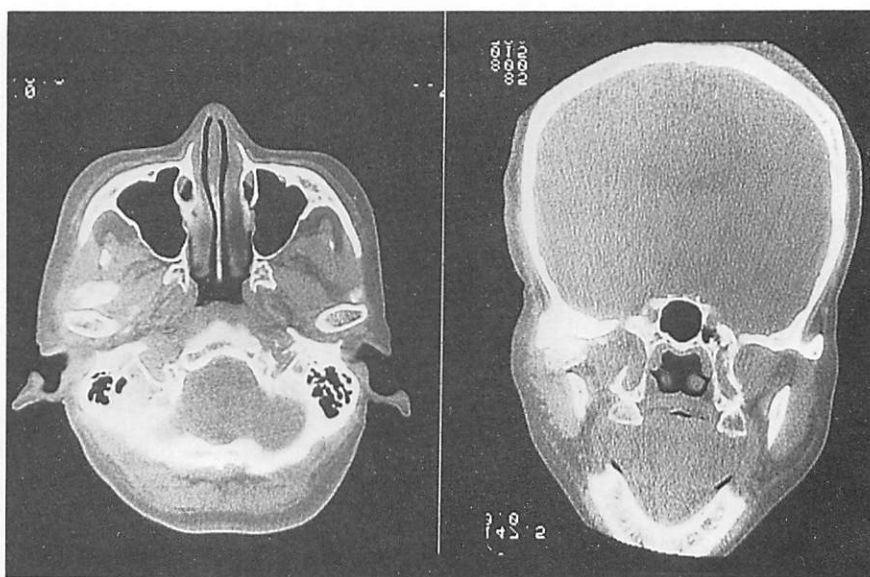


図2 CT所見.
下顎切痕部付近にX線不透過像を認める。

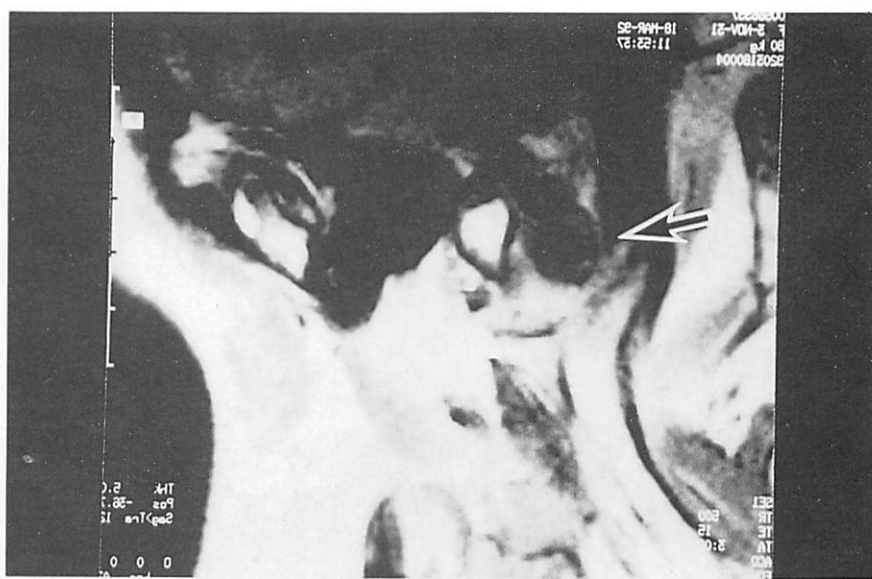


図3 MRI所見.
関節包内部に存在する腫瘤を認める。関節円板は正常な位置に存在する。

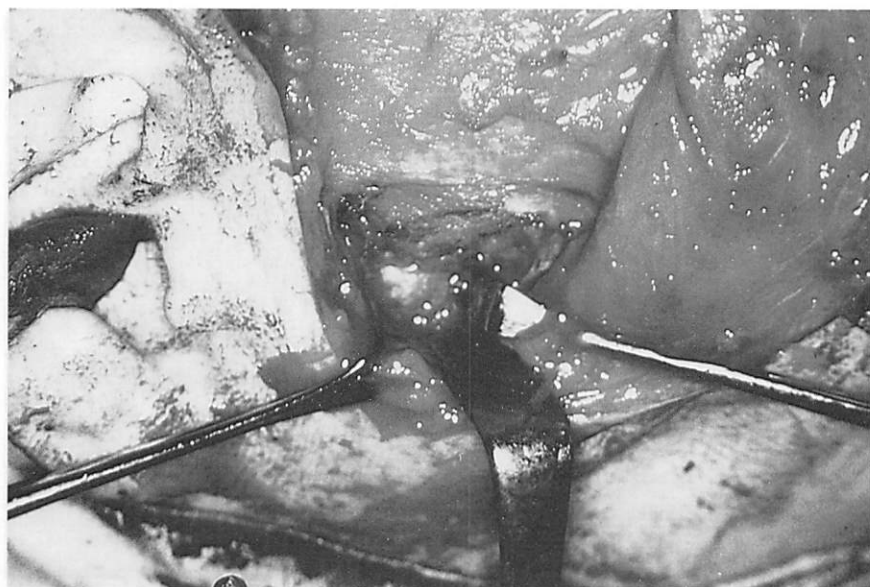


図4 手術時所見



図5 摘出物所見

図6a HE染色
(×100)

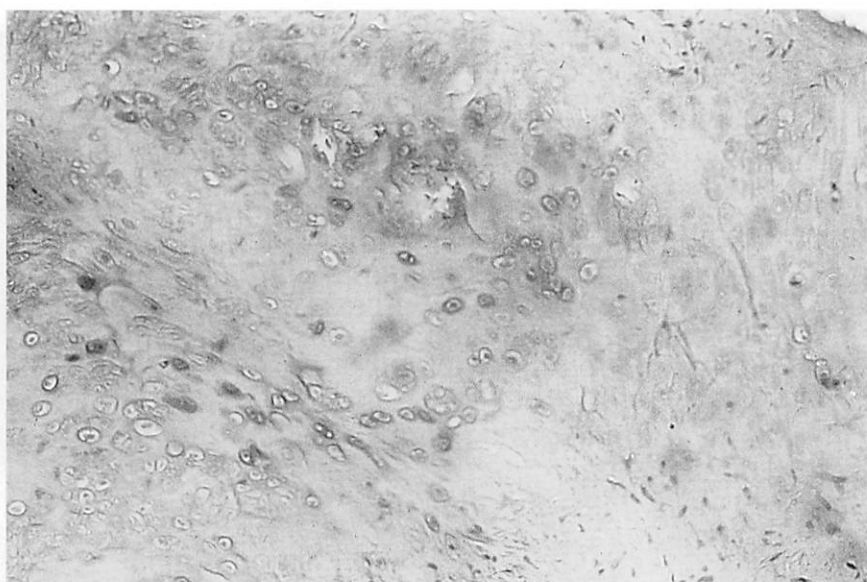
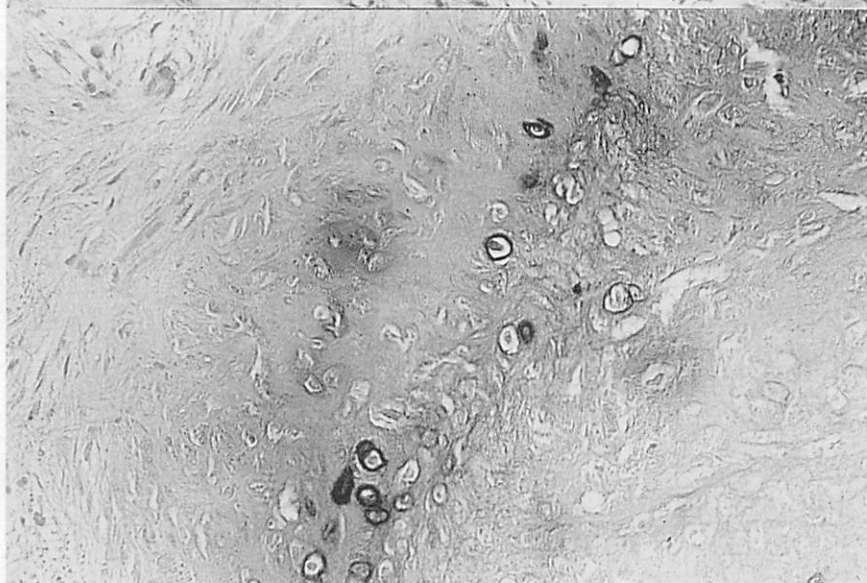


図6b アルシアン青染色
(×100)



に、陽性所見を認めた(図6b)。pH2.5トルイジン青染色では、ごく一部に陽性所見を(図7a)、pH4.1トルイジン青染色では軟骨化生部全体に陽性所見を(図7b)、pH7.0トルイジン青染色では強度の陽性所見を認めた(図7c)。

病理組織診断：右顎関節滑膜性軟骨腫症。

考 察

顎関節に生じる滑膜性軟骨腫症は比較的まれな疾患であるが、近年では画像診断の進歩、手術症

例の増加に伴い報告例が漸増している。われわれが渉猟し得た滑膜性軟骨腫症に関する本邦での報告は、自験例を含めて18例であった^{3,6,8,10,11,12,14,17,21,22,23,25,32,34,35,36}。

性別では、男性5例、女性13例で女性に多い傾向を認めた。年齢分布では、30歳代に最も多く、最低年齢23歳、最高年齢66歳であり、平均年齢は41.8歳であった(表1)。自験例は、60歳の女性であり比較的高年齢層に属するものであった。

主訴としては、重複例を含むが、顎関節部痛56

図7a pH2.5 トルイジン青染色
(×100)

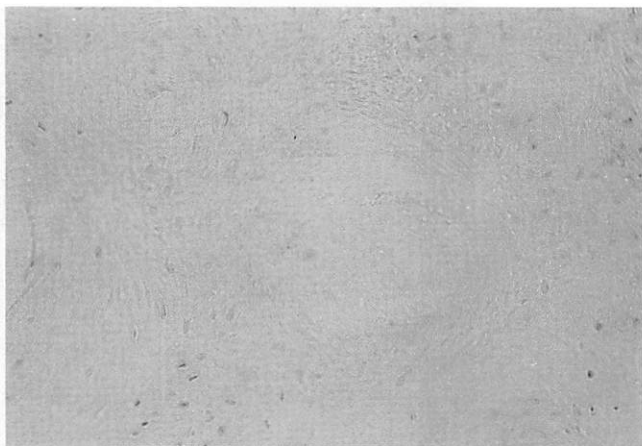
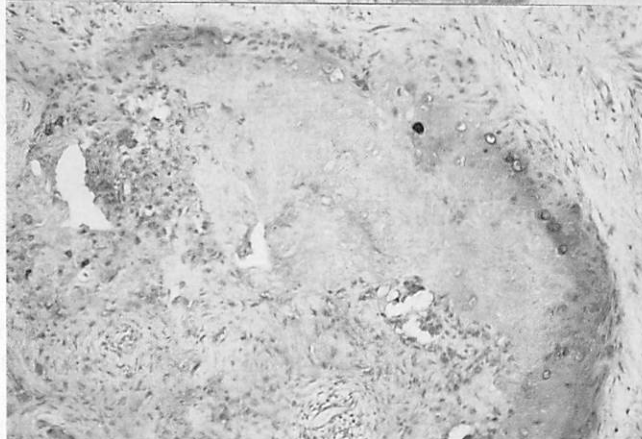


図7b pH4.1 トルイジン青染色
(×100)



図7c pH7.0 トルイジン青染色
(×100)



% (10例), 開口障害39% (7例), 咬合不全17% (3例), 顎関節部違和感, 顎関節部腫脹がそれぞれ11% (2例), 関節雑音, 顎運動時下顎偏位がそれぞれ6% (1例)であった(表2). ここ

では2つ以上の症状を主訴とした症例が8例みられたため総数は26例となっている. 初発から来院までの間の症状としては, 顎関節部痛78% (14例), 開口障害67% (12例), 顎運動時下顎偏位56% (10

表1 年齢・性別分布

年齢	男性	女性	総数
20-29	1	1	2
30-39	1	8	9
40-49	0	2	2
50-59	1	1	2
60-69	2	1	3
総数	5	13	18

表3 初発から来院までの症状

症状	症例数
顎関節痛	14
開口障害	12
顎運動時下顎偏位	10
顎関節部腫脹	10
関節雑音	5

表2 主訴

主訴	症例数
顎関節痛	10
開口障害	7
咬合不全	3
顎関節部違和感	2
顎関節部腫脹	2
関節雑音	1
顎運動時下顎偏位	1

表4 手術法

手術法	症例数
腫瘍摘出	5
腫瘍摘出+滑膜切除	5
腫瘍摘出+滑膜切除+円板切除	1
腫瘍摘出+滑膜切除+円板切除+下顎頭切除	7

例), 顎関節部腫脹56% (10例), 関節雑音28% (5例)であった(表3)。なお, 主訴および臨床症状とも患者の年齢層との関連は見い出せなかった。自験例では, 一般的に比較的頻度の高い疼痛は認めなかった。

本疾患の病因については, 外傷による2次的変化が考えられているが⁴⁾, 顎関節内症に伴って発症することも示唆されている²⁰⁾。関節円板の前方転位によって, 後方の滑膜に富んだ結合組織部分が下顎頭によって損傷され易い位置に移動し, 持続的摩擦が加わることが予想される。さらに, 顎関節内症の原因と成り得る様な咬合不全自体も軟骨化生の病因になりうるのではないかと考えられている¹⁹⁾。本邦報告例18例のうち, 顎関節部に影響を与え得るような外傷の既往の記載のあったものは2例, 顎関節症様の症状を長期にわたって呈していた症例は11例であった。この様な外傷および顎関節内症が滑膜に異常を起こし, 化生を生じる可能性がある。

顎関節部の外傷あるいは顎関節内症が, 関節滑膜の軟骨化生を引き起こす機序としては以下のこ

とが推測される。

顎関節滑膜は, 下顎頭軟骨面, 関節円板および下顎窩軟骨面を除く関節包の内面を被覆する間葉系の膜⁵⁾で, 関節円板により上関節腔の滑膜と下関節腔の滑膜に分けられる。滑膜は, 肉眼的には乳白色で平滑に見えるが, 光顕的には繊維芽細胞に類似の1-3層の表層細胞とその直下の血管に富む疎性結合組織とからなり, 基底膜を有していない。透過型電子顕微鏡観察では, 滑膜表層細胞はA型細胞と, B型細胞に区別されると報告されている¹⁾。A型細胞はマクロファージに類似し, ゴルジ装置や空胞, 微飲小胞および被覆小胞に富むが, 粗面小胞体に乏しく, 主として食食作用を行う。B型細胞は繊維芽細胞に類似しており, 粗面小胞体が豊富で, 糖タンパク複合体などの合成能を有すると考えられている^{13, 20)}。従って滑膜の機能は, 滑液成分の産生²⁾, 関節腔内に生じた局所代謝産物や造形剤などの外来性異物の排除, 滑液の量や組成の制御などが挙げられる。また, 顎関節の滑膜表面の90-95%はA型細胞が占め, B型細胞は3-4%程度であるといわれている³⁰⁾。咬合

異常が実験的に引き起こされた滑膜においては、滑膜表面のA型細胞の変性が生じ、上記の制御機構の崩壊がみられる^{15,39)}。変性が生じたA型細胞は、モノカインを産生し、それによってB型細胞が増殖することが示されており^{7,9)}、増殖したB型細胞が軟骨基質を産生して本症が発生するという可能性も考えられる。従って、本症の発生機序のひとつとしては、顎関節滑膜に対する何らかの機械的刺激がB型細胞の軟骨基質の産生を促し、滑膜の軟骨化生が生じるものとも考えられる。

自験例においては当科初診より1か月前に上下顎義歯を製作しており、それ以前の咬合状態については不明であったが、初診5年前に右顎関節部の腫脹を自覚し、以後同部に違和感を認めていた。これが、本疾患の発症に何らかの影響を与えていたのかもしれない。

軟骨は無血管系の特殊な結合組織で、軟骨細胞と細胞間の基質から構成される²⁷⁾。細胞間の基質は、コラーゲンに代表される線維成分と、無定形なゲル状構造物からなる有機基質に分けられる。有機基質の主体をなすものはムコ多糖類でグリコサミノグリカン（以下GAG）といわれている。GAGは硫酸基を持たない非硫酸化GAG、すなわちヒアルロン酸とコンドロイチン硫酸、および硫酸基を持つ硫酸化GAGすなわちコンドロイチン4硫酸、デルマトン硫酸、コンドロイチン6硫酸、ケラト硫酸、ヘパリンからなる。アルシアン青は、酸性ムコ多糖類の酸性基と結合し、特にpHの低い溶媒中では主として硫酸基と結合すると考えられており、酸性ムコ多糖類は青色に染まり、核は赤色に染まる。トルイジン青は酸性ムコ多糖類、軟骨基質に対しメタクロマジーを示し、酸性ムコ多糖類では赤紫色に、核およびその他の組織成分は青色に染まる^{28,31)}。また、トルイジン青染色液のpHを変えると、酸性ムコ多糖類の構成成分であるヒアルロン酸、含硫酸多糖類の存在を識別できる。すなわち、pH4.1、pH7.0の染色液ではヒアルロン酸および含硫酸多糖とも陽性を示すが、pHの2.5染色液では、酸性ムコ多糖のうち、コンドロイチン硫酸、ムコイチン硫酸等の含硫酸多糖類のみが染色される。自験例に上記染色法を施行した結果、pH2.5の染色液ではごく一部に陽性を示し、pHの値が高い染色液ほど強い反応を示した。以上より、自験例の軟骨成分はヒアルロン酸がその主たる組成を占めていることが示唆され

た。電氣的仮骨形成過程における軟骨組織のGAGの観察において、電気刺激開始の初期には硫酸化GAGが存在するが、3週以降よりは硫酸化GAGの消退が認められる¹⁹⁾。これは、硫酸化GAGは陰性電荷が高いため、軟骨の石灰化を抑制するが、硫酸化GAGの消退に伴って石灰化が進むことに起因すると示唆されている²⁹⁾。自験例も含めて、滑膜性軟骨腫症は滑膜の石灰化の過程に比較的長時間を要するため、石灰化が生じた時点では硫酸化GAGは消退してしまうと思われる。そのために本症の軟骨成分はヒアルロン酸が主たる組成を占めているのではないかと考えられた。

処置としては、腫瘤摘出のみのものが28%（5例）、滑膜まで切除したものが28%（5例）、円板まで切除したものが6%（1例）、下顎頭切除例が39%（7例）認められた（表4）。しかし、治療における最近の見解としては、本疾患が良性の腫瘍で、現在までに悪性化の報告はなく再発例も少ないため¹⁶⁾、下顎頭切除などは必要なく、可及的に関節滑膜を切除し、増殖した軟骨瘤を摘出すればよいとされている²⁴⁾。本症例においては、腫瘤の摘出および滑膜の可及的切除を施行し、術後経過は良好であるが、引き続き再発、咬合状態の変化等について経過観察を行う予定である。

結 語

60歳女性の右顎関節部に発生した滑膜性軟骨腫症の1症例を経験したので、組織化学的検討および本邦報告例にもとづく文献的考察を加えその概要を報告した。

本論文の要旨は第37回日本口腔外科学会総会（1992年11月、神奈川）にて発表した。

文 献

- 1) Barland, P., Novikoff, A. B. and Hamerman, D. (1962). Electron microscopy of the human synovial membrane. *J Cell Biol* 14, 207-220.
- 2) Barland, P., Smith, C. and Hamerman, D. (1968). Localization of hyaluronic acid in synovial cells by radioautography. *J Cell Biol* 37, 1326.
- 3) 千葉昌子, 伊藤重人, 水野博之, 横尾恵美子, 扇内秀樹, 下野正基 (1992). 下顎頭の肥大

- を伴った顎関節部に発生したSynovial osteochondromatosisの1例. 日顎誌 4, 73-79.
- 4) Deboise, A. and Roche, Y. (1991). Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint possibly secondary to trauma. *Int J Oral Maxillofac Surg* 20, 90-92.
 - 5) 藤田尚夫, 藤田恒夫 (1985). 標準組織学総論. pp138, 医学書院, 東京.
 - 6) 福田真也, 筑丸 寛, 海野 智, 川辺良一, 大村 進, 林 誠一, 増田元三郎, 小野 繁, 藤田浄秀 (1988). 左顎関節に発生したSynovial osteochondromatosisの1症例 (抄). 日口外誌 34, 2839.
 - 7) Gillepsie, G. Y., Estes, J. E. and Pledger, W. J. (1985). Macrophage-derived growth factors for mesenchymal cells. *Lymphokines* 11, 213-247.
 - 8) 服部吉幸 (1986). 顎関節に発生したSynovial chondromatosisの1例 (抄). 頭頸部腫瘍 3, 137.
 - 9) 桧垣 恵 (1991). 慢性関節リウマチにおける滑膜細胞増殖機構. 医学のあゆみ 156, 464-466.
 - 10) 東山 聖, 勝村浅樹, 小野富昭, 名倉英明, 榎本昭二, 高木実 (1985). 右側下顎関節突起部に生じた滑膜性軟骨腫症の1例 (抄). 日口外誌 31, 978.
 - 11) 井上哲生, 茅野照雄, 野口明彦, 内田正興 (1983). 関節に発生したSynovial Chondromatosisの1例. 日口外誌 29, 532-537.
 - 12) 岩城 太, 古谷昌裕, 平木紳一郎, 大西正信, 森岡 聡, 村上賢一朗 (1994). 中頭蓋底の骨吸収を伴った顎関節滑膜性軟骨腫症の1例. 日口外誌 40, 179-181.
 - 13) Kakudo, K. (1980). Ultrastructural cytochemical studies of horseradish peroxidase uptake by synovial lining cells of the rat temporomandibular joint. *Okajimas Folia Anat Jpn* 57, 219-240.
 - 14) 河内四郎, 古賀一郎 (1983). Synovial chondromatosisの1例 (抄). 日口外誌 29, 2491.
 - 15) Kubo, Y. (1987). The uptake of horseradish peroxidase in monkey temporomandibular joint synovium after occlusal alteration. *J Dent Res* 66, 1049-1054.
 - 16) Lustmann, J. and Zelster, R. (1989). Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint. *Int J Oral Maxillofac Surg* 18, 90-94.
 - 17) 三森昭彦, 佐藤 徹, 浅田洗一, 石橋克禮, 小島広正, 菅原信一 (1987). 側頭下窩に拡大し骨浸潤を認めたSynovial chondromatosisと思われる1例 (抄). 口科誌 36, 1130.
 - 18) 森 啓充 (1992). 電氣的仮骨形成過程におけるプロテオグリカンとS-100蛋白の免疫組織化学的検討. 口科誌 41, 668-678.
 - 19) Morrish, R. B., Hansen, L. S. and Ware, W. H. (1984). Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint. *J Cranio-mandibular Practice* 2, 65-70.
 - 20) Murnane, T. W. and Feagans, W. M. (1970). Fine structure of synovial lining cells in the squamosal-mandibular joint of the rat. *J Dent Res* 49, 1068-1073.
 - 21) 中嶋頼俊, 井上農夫男, 門脇 繁, 中村芳幸, Mohiuddin Ahmed, 近藤正信 (1993). 顎関節に生じた滑膜性軟骨腫症の1例. 日口外誌 39, 607-609.
 - 22) 中村武之, 中村博行, 三浦尚徳, 斉藤 徹, 杉浦英利, 水越孝典, 福田 博, 飯塚 正, 蒲原義信, 進藤正信, 向後隆男, 雨宮 璋, 山口博雄, 久保木芳徳 (1987). Synovial osteochondromatosisの1例 (抄). 口科誌 36, 1130.
 - 23) 中村芳幸, 中嶋頼俊, 門脇 繁, 土井上輝夫, 井上農夫男, 河村正昭, 近藤正信, 飯塚 正, 向後隆男, 雨宮 璋 (1992). 顎関節に発生したSynovial osteochondromatosisの2例 (抄). 日口外誌 38, 165.
 - 24) Norman, J. E. B., Stevenson, A. R. L., Painter, D. M., Sykes, D. G. and Feain, L. A. (1988). Synovial osteochondromatosis of the temporomandibular joint. *J Cranio-Maxillofac Surg* 16, 212-220.
 - 25) 大谷端夫, 小谷英二, 鈴木 明, 小野謙三, 栗田賢一 (1989). 顎関節に発生したsynovial chondromatosisの1例 (抄). 日口外誌

- 35, 3017.
- 26) Segami, N. and Murakami, K. (1992). Atypical synovial chondromatosis of the temporomandibular joint. Proceedings of the 16th Congress of IAMFS, 423-424.
- 27) 須田立雄, 小澤英浩, 高橋栄明 (1986). 骨の科学, pp.11-14, 医歯薬出版, 東京.
- 28) 杉山繁雄 (1984). 染色法のすべて. pp.78-80, 医歯薬出版, 東京.
- 29) Suzuki, F, Takase, T., Takigawa, M., Uchida, A. and Shimomura, Y. (1981). Stimulation of the initial stage of endochondral ossification: In vitro sequential culture of growth cartilage cells and bone marrow cells. Proc Nat Acad Sci USA 78, 2368-2372.
- 30) 田口 望, 中田茂樹, 岡 達 (1983). 顎関節滑膜の微細構造に関する研究—イヌ・サル顎関節滑膜の表面構造—. 日口外誌 29, 185-189.
- 31) 田村邦夫 (1984). 染色法のすべて. pp.87-89, 医歯薬出版, 東京.
- 32) 谷尾和彦, 柴田孝典, 木山陽介, 高橋啓介, 八尾正己, 加納 聡, 領家和男, 濱田 駿 (1994). 顎関節鏡視により発見し得た滑膜軟骨腫症の1例. 米子医誌 45, 20-26.
- 33) Ueno, S. (1982). The uptake of horseradish peroxidase in the temporomandibular joint synovium of the rat following unilateral extraction of molars. J Dent Res 61, 516-520.
- 34) 渡辺克益, 小池 真, 牧野惟男 (1975). 極めて稀なる顎関節Synovial Chondromatosisの1例. 臨整外誌 10, 733-736.
- 35) 山崎 裕, 佐藤 明, 中村博行, 中村武之, 水越孝典, 三浦尚徳, 北田秀昭, 戸塚靖則, 福田 博, 飯塚 正, 蒲原義信, 進藤正信, 向後隆男, 雨宮 璋 (1987). 顎関節にみられたSynovial osteochondromatosisの1症例(抄). 日口外誌 33, 2310.
- 36) 依田哲也, 佐藤 修, 石川雅彦, 小野富昭, 榎本昭二, 木野孔司 (1988). 顎関節に発生したsynovial osteochondromatosisの1例ならびに文献的考察. 日口外誌 34, 1708-1715.