

# 少関節型若年性特発性関節炎に対する鏡視下滑膜切除術の有用性

愛媛大学大学院医学系研究科運動器学

渡部 昌平・竹田 治彦・鎌田 一徳

高橋 敏明・山本 晴康

愛媛大学大学院医学系研究科ゲノム病理学

宮崎 龍彦・能勢 真人

**要旨** 【目的】単関節炎で発症した若年性特発性関節炎(JIA)の2症例に対して鏡視下滑膜切除術(Arthroscopic synovectomy: AS)を行ったのでその有用性について報告した。【症例1】13歳, 女性。左膝関節痛を自覚し当科を紹介されて受診した。MRIにて結節性病変が認められASを施行。病理所見で滑膜の絨毛状増生等が認められ, 単関節炎で発症したJIAと診断した。症状は消退し臨床検査成績も正常化した。【症例2】1歳6か月, 男児。右膝関節の腫脹, 疼痛を訴え受診。MRIにて滑膜増殖が認められたのでASを施行した。病理所見でmesenchymal transformation等が認められJIAと診断した。術後関節炎は再燃したが, DMARDsとPSLの投与で症状は改善し経過を観察している。【結論】少関節型JIAに対するASは診断, 治療において有用であった。

## はじめに

少関節型若年性特発性関節炎(JIA)を経験し, 膝関節鏡視下滑膜切除術を施行したのでその有用性につき報告する。

## 対象と方法

単関節炎で発症した13歳, 女性と1歳6か月, 男児のJIAの2症例である。いずれの症例にも膝関節鏡視下滑膜切除術施行した。

## 症例

**症例1:** 13歳, 女性

**主訴:** 左膝関節引っかかり感

**現病歴:** 平成17年4月中旬頃, 特に誘因なく左膝関節痛が出現した。近医にて関節炎を指摘さ

れ, 4月27日当科紹介受診した。

**合併症:** ぶどう膜炎(-)

**既往歴:** 特記事項なしであった。単純X線像には明らかな異常は認めなかった。MRIでは, 関節液貯留と, 出血を伴っていると思われるT1WI低信号, T2WI中等度の信号を呈する滑膜肥厚を認め, さらに軟骨片の存在を示唆する小さな異常信号を複数認めた(図1)。血液血清検査所見ではCRPは1.18と上昇していたが, RF, 抗CCP抗体, IgG-RF, MMP-3, 抗ガラクトース欠損IgGは正常範囲内であり, 経過途中の上昇も認めなかった。疼痛などの症状は改善傾向にあったので特にNSAIDsなどの処方を行わなかった。腫瘍性病変の除外等確定診断を得るために6月10日鏡視下滑膜切除術を行った(図2)。MRIで見られる小結節と思われるところに外観は黄色, 弾性硬

Key words : oligoarthritis(少関節型), juvenile idiopathic arthritis(若年性特発性関節炎), arthroscopic synovectomy(鏡視下滑膜切除術), knee joint(膝関節)

連絡先: 〒791-0295 愛媛県東温市志津川 愛媛大学大学院医学系研究科運動器学 渡部昌平 電話(089)960-5343  
受付日: 平成22年2月4日

の腫瘍を認めた。可及的に切除した。滑膜組織像は、軽度の絨毛状増生、lining の palisading、血管増生、形質細胞浸潤など、RA に特徴的な所見が認められた(図3)。以上より単関節型の若年性特発性関節炎(JIA)と診断した。

**症例2**：1歳6か月，男児

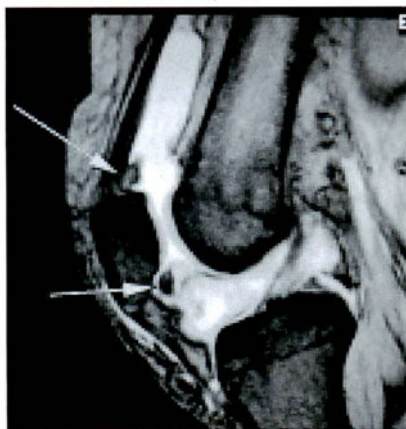
**主訴**：右膝関節痛

**現病歴**：平成17年5月頃より，特に誘因なく右膝痛および関節可動域制限が出現した。

**合併症**：ぶどう膜炎はなし，ハウスダストによるアレルギーを認めた。

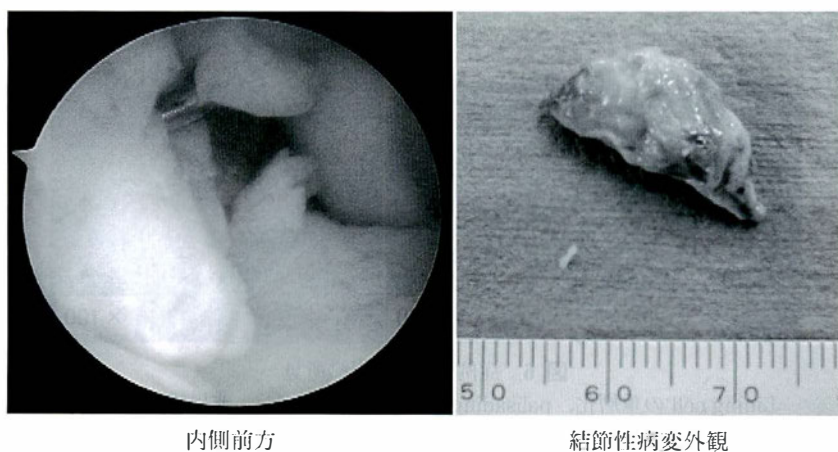
**既往歴**：在胎40週1日，胎児仮死，先天性内反足があったが，装具治療により改善している。単純X線像には明らかな異常は認めなかった。

MRIでは，膝蓋上嚢を中心に関節液貯留を認めた。窩間にT2強調像で径5mm程度の低信号を示す結節を認めたが，activeな滑膜の増殖を示唆する所見ではなかった。MRIの撮像条件はT2WI(TR3992.86，TE100)であった(図4)。血液WBC 10300/ $\mu$ l，CRP 0.25 mg/dl，ESR 35 mm/h，であった。MMP-3，RF，抗CCP抗体，IgG-RF，MMP-3，抗ガラクトース欠損IgGは正常範囲内であった。症状発現から9か月の平成18年2月1日に鏡視下滑膜切除術を行った。関



**図1**。症例1：MRI像  
関節液貯留と，出血を伴っていると思われるT1WI低信号，T2WI中等度の信号を呈する滑膜肥厚を認め，さらに軟骨片の存在を示唆する小さな異常信号を複数認めた。MRIの撮像条件はT2WI(TR500，TE16)であった。

節内に瀰漫性の滑膜増生がみられた。前十字靭帯より内側窩間に粘膜靭帯様の結節がみられた。その周囲も滑膜増生がみられた(図5)。滑膜病理組織学的所見は lining cell の重層化，palisading，fibrinoid necrosis，非異物性多核巨細胞の出現，血管増生，形質細胞とリンパ球からなる慢性炎症所見から JIA を疑う組織像であった(図6)。以上より単関節型の若年性特発性関節炎(JIA)と診断した。



内側前方

結節性病変外観

**図2**。症例1：関節鏡所見  
MRIで見られる小結節と思われるところに外観は黄色，弾性硬の腫瘍を認めた。

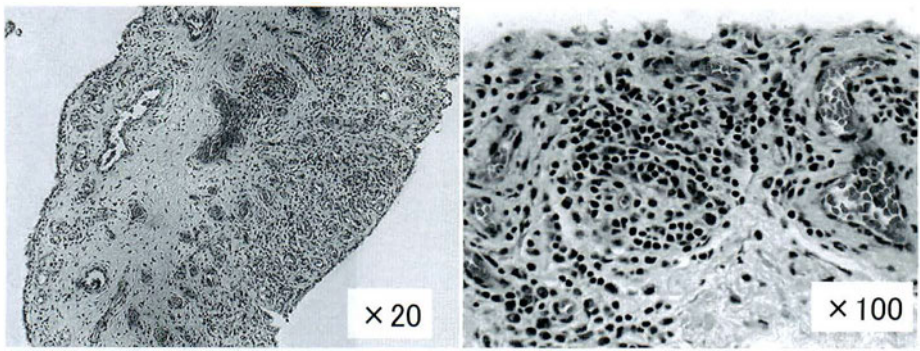


図 3. 症例 1：病理組織所見

軽度の絨毛状増生, lining の palisading, 血管増生, 形質細胞浸潤など, RA に特徴的な所見が認められた。



図 4. 症例 2：MRI 像

膝蓋上嚢を中心に関節液貯留を認めた。窩間に T2 強調像で径 5 mm 程度の低信号を示す結節性病変を認めたが, active な滑膜の増殖を示唆する所見ではなかった。MRI の撮像条件は T2WI(TR3992.86, TE100)であった。



図 5. 症例 2：関節鏡所見

関節内に瀰漫性の滑膜増生がみられた。前十字靭帯より内側窩間に粘膜靭帯様の結節がみられた。その周囲も滑膜増生がみられた。

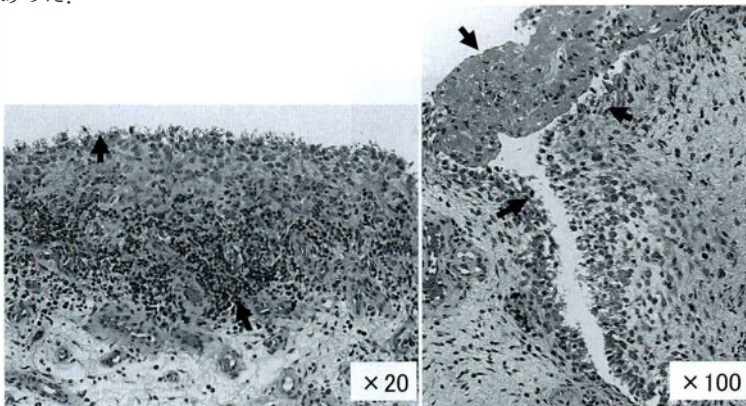


図 6. 症例 2：病理組織所見

Lining cell の重層化, palisading, fibrinoid necrosis, 非異物性多核巨細胞の出現, 血管増生, 形質細胞とリンパ球からなる慢性炎症所見から JIA を疑う組織像であった。

表 1. JIA の病型分類とその特徴

|                        | 全身型    | 多関節型   | 少関節型   |
|------------------------|--------|--------|--------|
| 病型の割合                  | 10%    | 40%    | 50%    |
| 男女比                    | 1 : 1  | 1 : 3  | 1 : 5  |
| ぶどう膜炎発症頻度              | 1%     | 5%     | 20%    |
| RF 陽性                  | <2%    | 5-10%  | <2%    |
| ANA 陽性                 | 5-10%  | 40-50% | 75-85% |
| JIA 臨床経過で5以上の関節に波及する割合 | 50-60% | 100%   | 40%    |
| X線像でびらんまたは関節裂隙狭小化      | 45%    | 54%    | 28%    |

## 考 察

16歳以前に発症し、(ウイルス感染症による一過性関節炎除外のため)6週間以上関節炎が持続し(関節炎を起こす可能性のある他の全疾患を除外することができ)その原因が不明であればJIAと診断され、現在7つのサブタイプがある<sup>4)</sup>。特に少関節型については鑑別疾患として、細菌感染性関節炎(単関節例がほとんどである)、ウイルス性関節炎、ライム病、他のリウマチ性疾患に伴う関節痛・関節炎(全身性エリテマトーデス、混合性結合組織病、シェーグレン症候群、炎症性腸疾患、若年性強直性脊椎炎、若年性乾癬関連関節炎、ベーチェット病、アレルギー性紫斑病など)、整形外科的疾患(とくに十字靭帯障害)、小児白血病などが挙げられる。外来診療で多い小児の関節痛は「成長痛」で、夕方から夜にかけて膝や足関節の痛みを訴える。この場合には、関節の診察で炎症所見を認めることはない<sup>7)</sup>。

JIAの一般的な病型別の特徴を示す。JIAは全身型、多関節型、少関節型に分けられ、本症例は少関節型である。少関節型で発症するJIAは50%と他の型と比較し多く、女兒の割合が多い。ぶどう膜炎の合併が他の型より多く、抗核抗体が高値となりやすい特徴がある。予後は他の型と比べるとよい。なおJIA予後を左右するリウマトイド因子陽性は多関節型に多い(表1)。

Johnsonらは発症早期のJIA患者11例のMRIを行い、滑膜の増殖、関節液の貯留、リンパ節や軟部組織の腫脹などの所見がみられ、有用であったという報告をしている<sup>2)</sup>。我々の症例でもMRIを行っており、滑膜の腫脹、関節液の貯留が認められ関節炎を疑わせる所見であったが、2症例とも結節状の陰影もあり診断の確定には至らなかった。

JIAに対して鏡視下滑膜切除術を行った症例では術後の痛み、関節可動域制限の改善等について短期および長期的において有用であるという報告も散見され<sup>1)5)6)</sup>。特に単関節に発症したJIAにつ

いてMineらは他覚所見に乏しく膝関節拘縮のみの症例に対しMRIと関節鏡所見によって診断が可能であった症例を報告している<sup>3)</sup>。

今回の2症例はともに単関節炎で発症しており局所の炎症所見に乏しかったので当初は半月板損傷、膝内障等が疑われた。RF、抗CCP抗体、抗核抗体はいずれも陰性であり、加えて発症早期であったため、診断に苦慮した。今回、鏡視下滑膜切除術より得た滑膜病理組織学的所見により診断された。

## まとめ

- 1) 単関節型で発症した若年性特発性関節炎(JIA)の2例を経験した。
- 2) 2例は鏡視下滑膜切除術より得た滑膜病理学的所見より診断した。
- 3) 単関節型で発症したJIAに対する鏡視下滑膜切除術は診断、治療の上で有用であると考えられた。

## 文 献

- 1) Faraj AA, Schilders E, Martens M : Arthroscopic findings in the knees of preadolescent children : report of 23 cases. *Arthroscopy* 16 : 793-795, 2000.
- 2) Johnson K, Wittkop B, Haigh F : The early magnetic resonance imaging features of the knee in juvenile idiopathic arthritis. *Clin Radiol* 57 : 466-471, 2002.
- 3) Mine T, Tanaka H, Ishida Y et al : Juvenile rheumatoid arthritis manifesting in only limping due to flexion contraction of the knee. *Clin Rheumatol* 26 : 433-435, 2006.
- 4) Petty RE, Southwood TR, Manners P et al :

- International League of Associations for Rheumatology classification of juvenile idiopathic arthritis : second revision, Edmonton, 2001. *J Rheumatol* 31 : 390-392, 2004.
- 5) Saciri V, Pavlovic V, Zupanc ● et al : Knee arthroscopy in children and adolescents. *J Pediatr Orthop B* 10 : 311-314, 2001.
- 6) Sarpel Y, Ozkan C, Toğrul E et al : Arthroscopy of the knee in pre-adolescent children. *Arch Orthop Trauma Surg* 127 : 229-234, 2007.
- 7) 横田俊平, 森 雅亮, 今川智之ほか : 若年性特発性関節炎初期診療の手引き. *日小整会誌* 111 : 1103-1112, 2007.

## Abstract

### Arthroscopic Synovectomy in Children with Juvenile Idiopathic Arthritis

Shohei Watanabe, M. D., Ph. D., et al.

Department of Bone and Joint Surgery, Ehime University Graduate School of Medicine

We report two cases of oligoarthritis in juvenile idiopathic arthritis (JIA) treated using arthroscopic synovectomy. Case 1 is of a 13-year-old girl presenting pain in the right knee with swelling for 8 weeks. Case 2 is of a 18-month-old boy presenting clinical symptoms of flexion contracture in the right knee with no swelling or other inflammatory signs. In both cases, conservative treatment failed to bring relief from symptoms, and so we performed arthroscopic synovectomy. From the clinical symptoms and findings from the histopathological examinations of the synovial specimens which revealed synovial proliferation, blood vessel invasion and mesenchymal transformation of the synovial tissue, both cases were diagnosed as JIA. In Case 1, synovectomy brought relief and she is symptom free at one year postoperatively. In Case 2, synovectomy was followed by administration of MTX and steroids, and he is symptom free. We concluded that arthroscopic synovectomy was effective for both accurate diagnosis and for treatment of JIA especially in these two cases of oligoarthritis.