

歩行開始時より跛行を呈した股関節ヘモジデリン沈着性滑膜炎の症例

自治医科大学 とちぎ子ども医療センター 小児整形外科

岩城 真樹子・渡邊 英明・萩原 佳代・吉川 一郎

要旨 原因不明のヘモジデリン沈着性股関節炎を経験した。4歳男児で、1歳から跛行があり、4歳まで続くために来院した。初診時跛行と左股関節外旋可動域制限があった。血液検査は正常であったが、単純X線で左大腿骨骨頭に骨透亮像がみられた。単純MRIでは関節液はなく、骨頭にT1 low, T2 isoの所見があるため、ベルテス修復期の診断となり、免荷と可動域訓練を行って経過を診た。しかし、痛みと可動域制限は改善せず、骨頭と臼蓋に単純X線で骨透亮像の増加と造影MRIでT1 low, T2 lowの所見とその周囲が造影される所見があり、ヘモジデリン沈着性関節炎の診断で、股関節切開術を行った。骨頭周囲にヘモジデリンが沈着し、滑膜も増生していたが、リンパ球の浸潤像や泡沫細胞はなかった。術後はギプス固定後長下肢免荷装具とした。術後5年経過の現在、ヘモジデリン沈着性股関節炎の原因はわからなかったが、跛行は改善し、単純X線で大腿骨骨頭はほぼ球形になった。

はじめに

早期発症のベルテス病を疑い、免荷と関節可動域訓練を行っても症状が改善せず、単純X線で大腿骨骨頭と臼蓋の骨透亮像が悪化した原因不明のヘモジデリン沈着性股関節炎を経験した。

症例

4歳男児で、主訴は左股関節痛である。既往歴に外傷や出血素因はない。歩行は1歳から可能であったが跛行があり、4歳になっても跛行が続くために来院した。初診時身体所見では、跛行と左股関節外旋可動域制限があった。血液検査はWBC 6600/ μ l, Plt 37.0×10^4 / μ l, CRP < 0.06 mg/ μ l, PT-INR 1.03, APTT 34.8秒と正常であった。また、他院小児科を受診し、第Ⅷ, IX因子と抗CCP抗体やその他リウマチ抗体も正常であった。単純X線では、左大腿骨骨頭は外側偏

位し、荷重部に骨透亮像がみられた(図1)。単純MRIでは、関節液の貯留はなく、骨頭荷重部にT1でlow, T2でlowの中に一部isoの所見があった(図2)。症状の経過が長いこと、関節液の貯留がないことから、ベルテス修復期の診断となり、免荷と関節可動域訓練を行って経過を診た。しかし、その後痛みと可動域制限は改善せず、単純X線と単純CTで骨頭と臼蓋に骨透亮像の増加がみられた(図3, 4)。そのために再度MRIを行ったところ、STIRでT1 low, T2 lowの所見が、骨頭内前上方から臼蓋の荷重部にまで拡大しており、造影でその中の一部と周囲が造影されることから、ヘモジデリンが関節内に沈着している所見であった(図5)。このことから、ヘモジデリン沈着性関節炎の診断となり、血腫による軟骨の変性を防ぐ目的¹⁾⁵⁾と滑膜の生検目的で、可及的早期に股関節切開術を行った。術中所見では、骨頭周囲にヘモジデリンが沈着し、滑膜も増生してい

Key words : hemosiderin coxitis(ヘモジデリン沈着性滑膜炎), child(小児), claudication(跛行)

連絡先 : 〒 329-0498 栃木県下野市薬師寺 3311-1 自治医科大学 とちぎ子ども医療センター 小児整形外科
岩城真樹子 電話 (0285) 58-7374

受付日 : 2014年3月8日

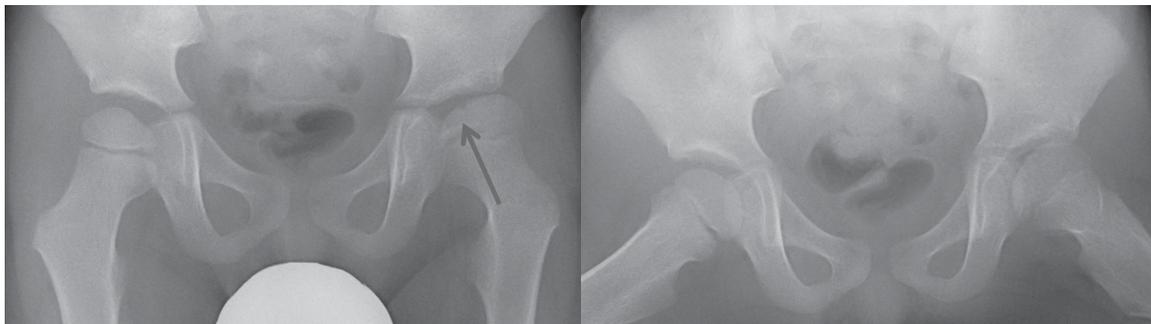


図1. 初診時単純X線(左:正面像, 右:最大外転外旋位像)
左大腿骨骨頭は外側偏位し, 荷重部に骨透亮像がみられた.

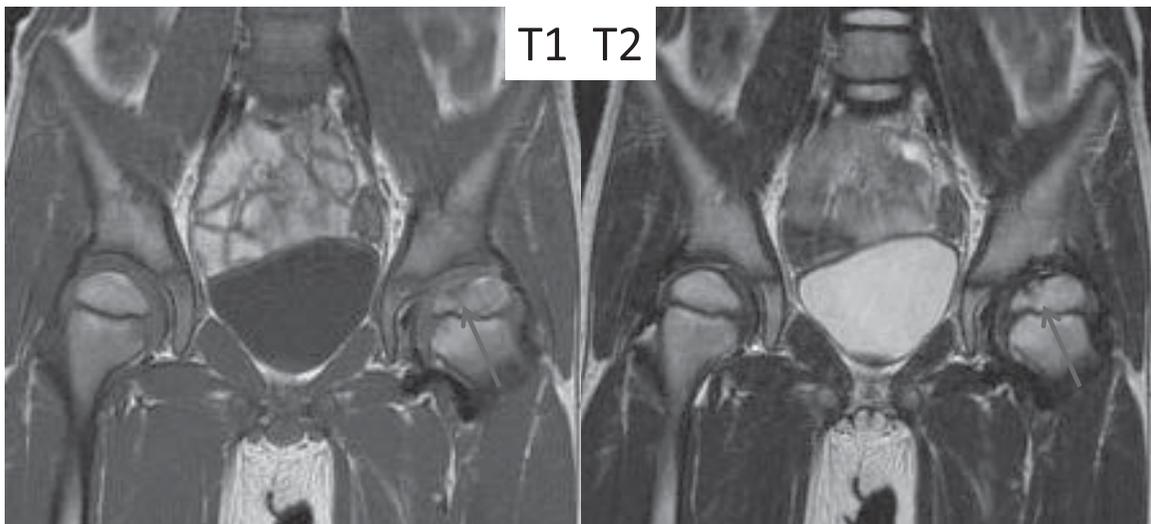


図2. 初診時単純MRI
関節液の貯留はなく, 骨頭荷重部に T1 で low, T2 で low の中に一部 iso の所見があった.

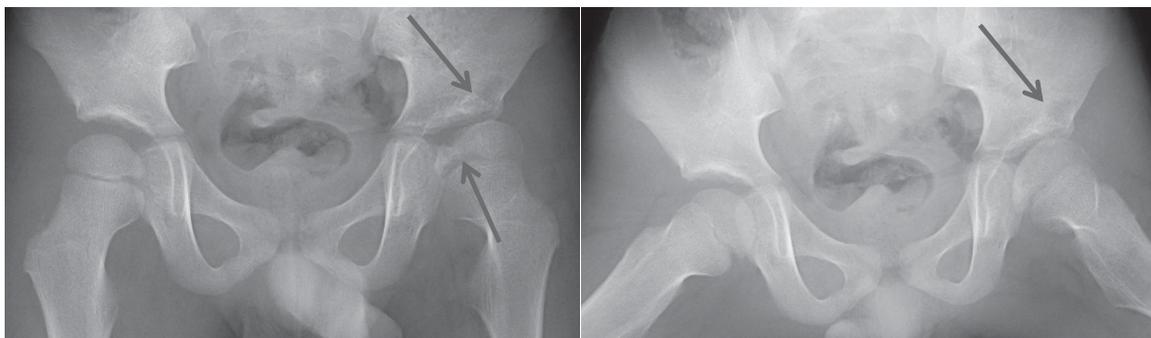


図3. 4か月後単純X線(左:正面像, 右:最大外転外旋位像)
骨頭と臼蓋に骨透亮像の増加がみられた.

た. また, すでに骨頭荷重部の軟骨の色は悪く, 変性しているものと考えられた(図6). 軟骨を傷つけるとさらに変性が進行すると思え, 骨頭内の

病変には手を加えず, 滑膜とヘモジデリンは見える範囲で可能な限り切除した. 滑膜を病理検査に提出したが, リンパ球の浸潤像や泡沫細胞はな

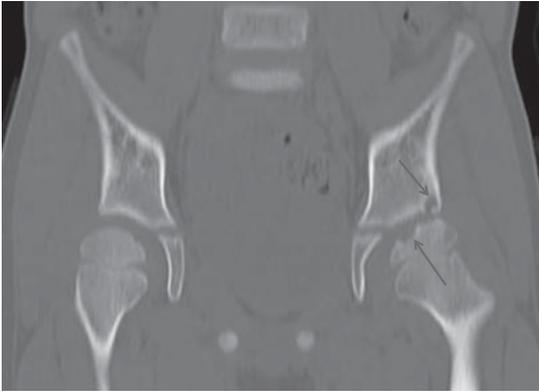


図4. 4か月後単純CT
CTでも骨頭と臼蓋に骨透亮像の増加がみられた。

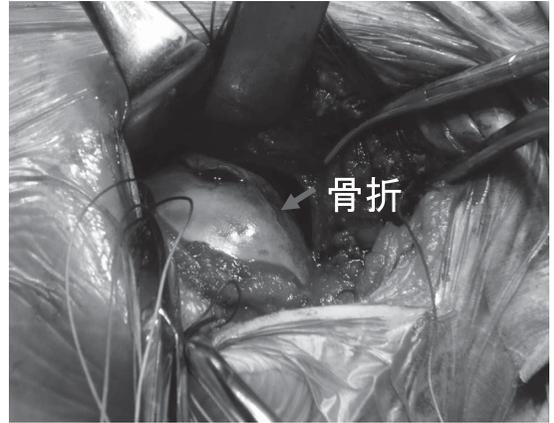


図6. 術中所見
骨頭周囲にヘモジデリンが沈着し、滑膜も増生していた。また、すでに骨頭荷重部の軟骨の色は悪く、変性しているものと考えられた。さらに骨頭荷重部に骨折があった。

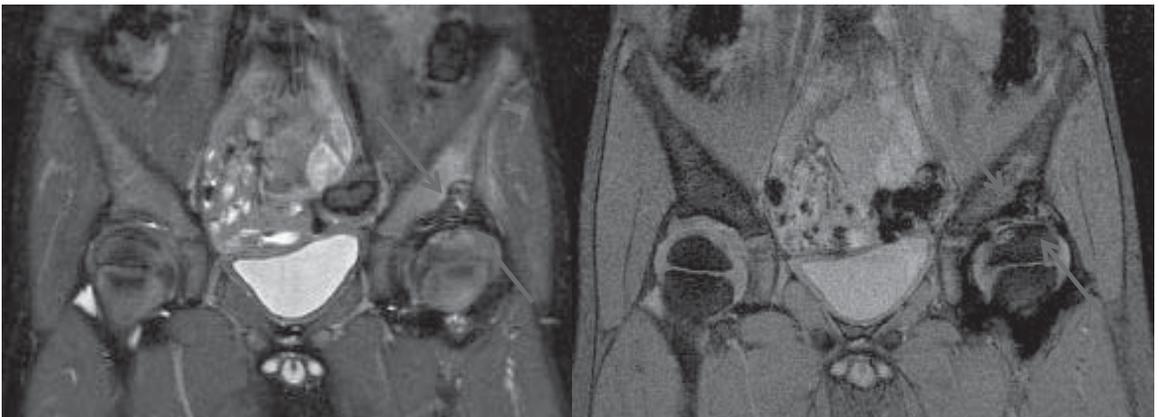


図5. 4か月後MRI
STIRでT1 low, T2 lowの所見が、骨頭内前上方から臼蓋の荷重部にまで拡大しており、造影でその中の一部と周囲が造影されることから、関節内にヘモジデリンが沈着している所見であった。

かった。術後は脱臼を防ぐ目的で股関節ギプスを6週間固定後、長下肢装具を使用し免荷とした。術後5年経過している現在では、跛行と関節可動域制限も改善し、単純X線では骨頭や臼蓋の骨透亮像も消失して、骨頭はほぼ球形になったが、軟骨の変性の為か関節裂隙はやや狭くなった(図7)。

考 察

ヘモジデリン沈着性関節炎の鑑別診断として抗凝固剤の使用、外傷、血友病、関節リウマチ、乾

癱性関節炎、ヘモクロマトーシス、壊血病、滑膜炎性血管腫、サラセミア、色素性絨毛結節性滑膜炎などがあげられる²⁻⁵⁾が、今回の症例では外傷の既往、凝固系のなどの血液検査、皮膚異常もなく、病理診断からも関節リウマチ、滑膜炎性血管腫、色素性絨毛結節性滑膜炎の確定診断には至らず、原因不明のヘモジデリン沈着性股関節炎の症例であった。ヘモジデリン沈着性股関節炎は、放置しておくとも関節裂隙が狭くなり、変形性関節症に至る可能性もあったため¹⁾⁵⁾、可及的早期に血腫除去術を行った。そして、術後装具療法による免荷

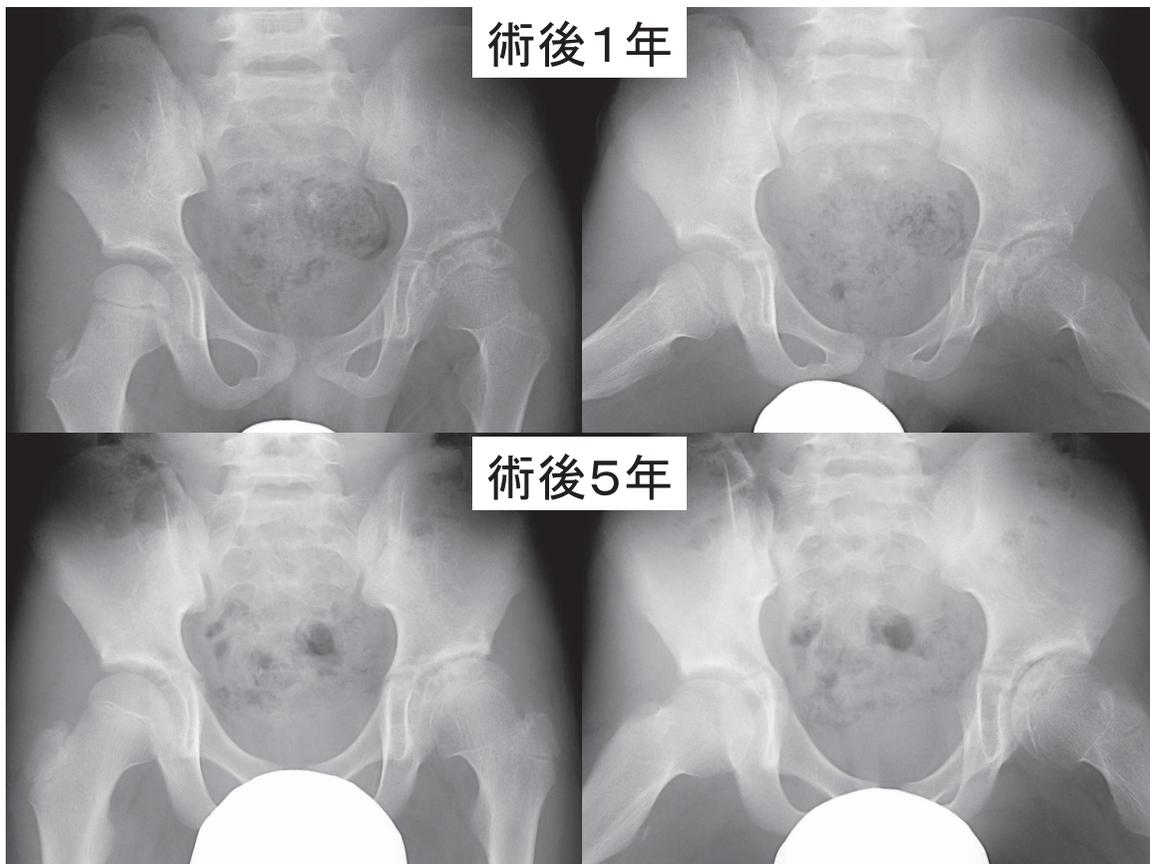


図7. 術後1年と5年単純X線(左:正面像, 右:最大外転外旋位像)
経過とともに骨頭や臼蓋の骨透亮像も消失して, 骨頭はほぼ球形になったが, 軟骨変性のためか関節裂隙はやや狭くなった.

も行い, 関節裂隙はやや狭くなったが, 大腿骨頭はほぼ球形に治癒することができた. ヘルテス病を疑って免荷をしても, 痛みや関節可動域制限が改善せず, 単純X線で骨透亮像が骨頭から臼蓋まで増加する時には, 関節内血腫も疑い, 早期に造影MRIを行うことが重要であると考えられた. そして, 関節内血腫がある時は, 軟骨変性が進行する前に, 早期に手術で血腫を除去することが, 良い結果を得るために重要であると考えられた.

文献

- 1) Abrahams TG, Pavlov H, Bansal M et al: Concentric joint space narrowing of the hip

associated with hemosideric synovitis including pigmented villonodular synovitis. *Skeletal Radiol* 17 : 37-45, 1988.

- 2) Finsterbush A, Ferber I, Mogle P: Lower limb pain in thalassemia. *J Rheumatol* 12 : 529-532, 1985.
- 3) O'Connell JX: Pathology of the synovium. *Am J Clin Pathol* 114 : 773-784, 2000.
- 4) 王寺亨弘: 小児の膝関節内腫瘍. *関節外科* 26 : 74-81, 2007.
- 5) Yalcin N, Beltaser B, Cicekli O et al: An unusual cause of recurrent joint effusions: nonhemophilic hemosiderotic synovitis of the knee. *Acta Orthop Traumatol Turc* 44 : 162-165, 2010.

Abstract

Hemosiderin Coxitis with Claudication at Gait Initiation

Makiko Iwaki, M. D., et al.

Department of Pediatric Orthopedic Surgery, Jichi Medical Children's Center

We report a case of hemosiderin coxitis of unknown cause in a 4-year-old boy. The patient was referred to our hospital with a three-year history of claudication. On examination, there was claudication and a limited range of motion in the left hip joint in external rotation. The blood chemistry was within normal ranges. Plain radiographs showed translucency around the left femoral head. Plain MRI showed synovial fluid was absent, and a low intensity on T1-weighted and iso intensity on T2-weighted images of the left femoral head. Based on these findings, the initial diagnosis was the healed phase after Perthes' disease. Treatment included load relieving and range of motion training. However over time, pain increased, the range of motion was not improved, and plain radiographs showed increased translucency of the femoral head and acetabulum, with T1- and T2-weighted contrast MRI showing low intensities and enhancement of the surrounding region. The diagnosis was then changed to hemosiderotic arthritis, and coxotomy was performed. Hemosiderin was found deposited around the femoral head, and overgrowth of the synovial membrane was noted, but no infiltrating lymphocyte or foamy cells were present. Postoperatively a cast was applied, and a load-relieving knee-ankle-foot orthosis was used. At 5 years postoperatively, claudication was improved, and plain radiographs showed the femoral head was almost globular. However, the cause for the hemosiderotic coxitis could not be identified.