

膝関節可動域制限を主訴に来院した少関節炎型若年性特発性関節炎

清水 淳也¹⁾・藤田 裕樹¹⁾・松山 敏勝²⁾・山下 敏彦³⁾

1)北海道立子ども総合医療・療育センター 整形外科

2)札幌市子ども発達支援総合センター 整形外科

3)札幌医科大学 整形外科

要旨 膝関節可動域制限を主訴に来院した少関節炎型若年性特発性関節炎の3例を検討した。いずれの症例も2歳で、疼痛を認めなかった。採血では白血球、C反応性蛋白共に基準値範囲内であった。MRIでは、関節内に水腫と滑膜炎を示唆する病変を認めた。診断確定のため、関節鏡視下生検を施行し、少関節炎型若年性特発性関節炎の診断となった。少関節炎型若年性特発性関節炎は、特徴的な臨床所見に乏しく、しばしば診断の確定が遅延する。膝関節に罹患することが多く、可動域制限を主訴に整形外科を受診することが多いことから、2歳前後の小児の可動域制限例の鑑別として念頭に置く必要がある。

はじめに

若年性特発性関節炎(Juvenile Idiopathic Arthritis: 以下, JIA)は比較のまれな疾患である。今回、我々は膝関節可動域制限を主訴に来院した少関節炎型 JIA の3例を経験したので報告する。

症例(表1)

症例1: 2歳3か月, 女児

主訴: 左膝関節伸展制限

現病歴: 2か月前より誘因なく続く左膝伸展制限を主訴に他院を受診した。MRIを撮影し、左

膝関節内水腫を認めた。診断の確定と精査目的に当院紹介受診となった。

合併症: ぶどう膜炎(-)

既往歴: 特記事項なし

現症: 左膝関節の発赤、熱感および圧痛は認めなかった。膝関節伸展可動域は右0°, 左-15°であった(図1)。膝蓋跳動を左で認めた。血液検査所見では、C反応性蛋白(以下, CRP)0.10 mg/dL未滿, 白血球10800/ μ L, リウマチ因子(以下, RF)5 U/mL未滿, 抗核抗体(以下, ANA)40倍であった。単純X線像では明らかな異常所見は認めなかった。MRIでは関節内に関節液の貯留

表1. 症例のまとめ

	性別	年齢	経過観察期間	併存症	血液検査所見				MRI所見		関節鏡所見
				ぶどう膜炎	WBC	CRP	RF	ANA	水腫	滑膜肥厚	米粒体
症例1	女	2歳3か月	5か月	なし	10800	<0.10	5未滿	40倍	あり	あり	なし
症例2	男	2歳1か月	5年4か月	なし	9000	0.28	3未滿	80倍	あり	あり	あり
症例3	女	2歳2か月	4年5か月	なし	7100	0.11	1	80倍	あり	あり	なし

Key words: juvenile idiopathic arthritis(若年性特発性関節炎), child(小児), knee joint(膝関節), arthroscopy(関節鏡), oligoarthritis(少関節炎型)

連絡先: 〒006-0041 北海道札幌市手稲区金山1条1丁目240番6 北海道立子ども総合医療・療育センター 整形外科
清水淳也 電話(011)691-5696

受付日: 2019年10月8日



図 1. 症例 1

- a: 左膝関節腫脹を認める
- b: 左膝伸展 - 15°
- c: 右膝伸展 0°

a|b|c



図 2. 症例 1

初診時 MRI T2 強調画像：関節内水腫，膝蓋上嚢に滑膜組織の肥厚を認める(矢印)

と膝蓋上嚢に T1 強調画像(以下，T1WI)で低信号，T2 強調画像(以下，T2WI)で低信号の滑膜肥厚を認めた(図 2)。幼児期の片側膝関節の伸展制限の鑑別として JIA，円板状半月，血友病性関節症などの出血性関節障害，化膿性関節炎や非定型抗酸菌性関節炎などの感染性疾患が挙げられる。発症年齢，また，疼痛を認めないことから鑑別診断の一番として少関節炎型 JIA の可能性を考えた。小児科を受診するも診断確定に至らず，診断確定目的に膝関節鏡を施行した。左膝関節内には肥厚し，発赤した滑膜を認めた(図 3)。滑膜組織を一部切除し，病理検査，細菌培養検査に提出した。その後，滑膜組織を可及的に切除した。

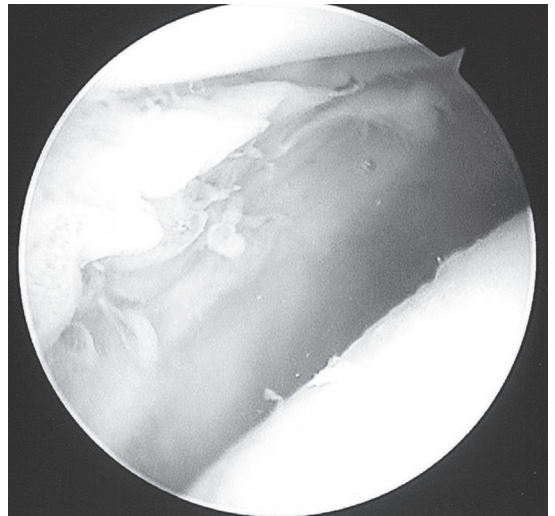


図 3. 症例 1

膝関節鏡検査：発赤，肥厚した滑膜組織を認める

培養検査は陰性であり，病理検査から形質細胞浸潤と滑膜の炎症所見を認め，少関節炎型 JIA の診断となった。小児科にてナプロキセン製剤を処方され治療開始となった。

症例 2：2 歳 1 か月，男児

主訴：左膝伸展制限

現病歴：2 か月前から誘因なく続く左膝伸展制限を主訴に来院した。近医を受診し，円板状半月を疑われ，MRI を撮影した。MRI で左膝関節内に腫瘍性病変を認めたため，当院紹介受診となった。

合併症：ぶどう膜炎(-)

既往歴：特記事項なし

現症：左膝関節の発赤，熱感とは認めず，圧痛も



図4. 症例2
初診時MRI：関節内水腫，膝蓋上嚢に滑膜組織の肥厚を認める(矢印)

認めなかった。膝関節伸展可動域は右 0° ，左 -5° であった。膝蓋跳動を左で認めた。血液検査所見ではCRP 0.28 mg/dL，白血球 $9000/\mu\text{L}$ ，RF 3 U/mL未満，ANA 80倍であった。単純X線像では明らかな異常所見なく，MRIでは関節内に関節液の貯留と膝蓋上嚢にT1WIで低信号，T2WIで低信号の滑膜肥厚を認めた(図4)。症例1と同様に少関節炎型JIAを鑑別として考えたが，MRIでの関節内病変が腫瘍性疾患である可能性も考え，診断確定のため，膝関節鏡を施行した。関節内には米粒体を多数認め，発赤した滑膜増生を認めた(図5)。病理検査では滑膜間質から形質細胞を主体とした炎症細胞浸潤を認め，少関節炎型JIAの診断となった。小児科にてイブプロフェン内服が開始され，2歳4か月時でイブプロフェンの内服が中止された。2歳9か月時で膝関節腫脹は軽快し，最終経過観察時の7歳3か月時では独歩可能で，MRIでは膝関節内の滑膜肥厚，水腫は軽快した。一方で，膝関節の自動伸展不全と患側で+11 mmの脚長差を認めたため，経過観察を行っている。

症例3：2歳2か月，女児

主訴：右膝関節腫脹，伸展制限

現病歴：3週間前より靴底の減り方が進んでい

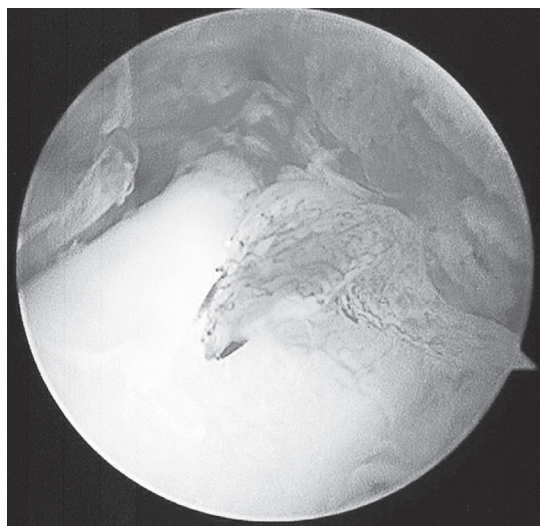


図5. 症例2
膝関節鏡検査：発赤，肥厚した滑膜組織を認める

ることに母親が気付いた。その後，右膝関節の腫脹に気付いたため，近医を受診した。 37.7°C の発熱とCRPが1.8 mg/dLであったことから右化膿性膝関節炎を疑われ，当院紹介受診となった。

合併症：ぶどう膜炎(-)

既往歴：特記事項なし

現症：当院受診時，体温 36.8°C で右膝関節の発赤，熱感および圧痛は認めなかった。膝関節伸展可動域は右 0° ，左 10° であった。膝蓋跳動を右で認めた。血液検査所見ではCRP 0.11 mg/dL，白血球 $7100/\mu\text{L}$ ，RF 1 U/ml，ANA 80倍であった。MRIでは膝関節内に関節液を認め，膝蓋上嚢にT1WIで低信号，T2WIで低信号の腫瘤状の結節影を認めた(図6)。関節穿刺を施行すると，淡黄色透明液を認めた。グラム染色では細菌を検出できなかった。グラム染色が陰性であることから化膿性関節炎の可能性は低いと考えたが，JIAや円板状半月などの可能性も考え，診断確定のため，膝関節鏡を施行した。関節内には滑膜の増殖を認めた(図7)。病理検査では滑膜組織にリンパ球を主体とした炎症細胞浸潤を認め，少関節炎型JIAの診断となった。小児科にてイブプロフェン内服が開始された。術後半年で膝関節腫脹は軽快し，5歳7か月でイブプロフェンの内服が中止され，

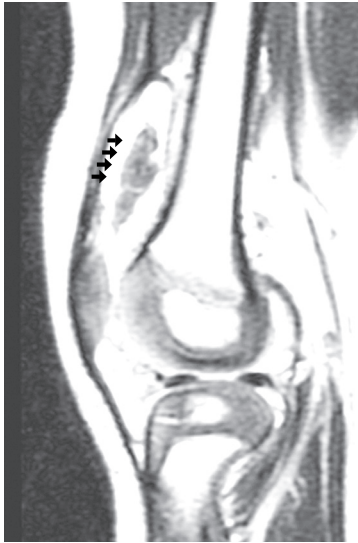


図 6. 症例 3
初診時 MRI：関節内水腫，膝蓋上
嚢に滑膜組織の肥厚を認める(矢印)

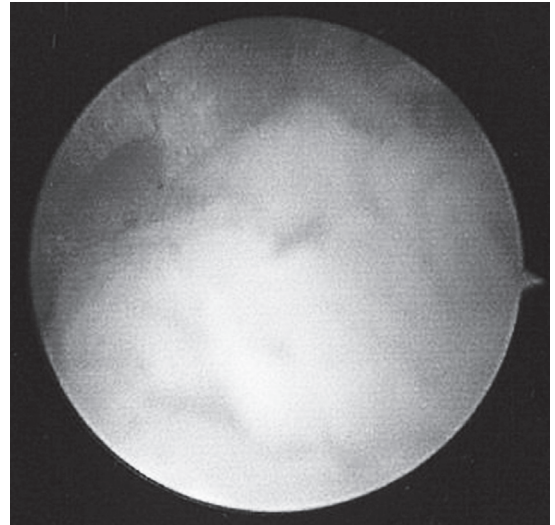


図 7. 症例 3
膝関節鏡検査：発赤，肥厚した滑膜組織を認める

最終経過観察時の 6 歳 7 か月時では独歩可能で、膝関節の可動域制限なく、MRI でも膝関節内の滑膜肥厚，水腫は軽快した。

考 察

JIA は小児リウマチ疾患で最多の疾患である。しかし、小児人口 10 万人対 10~15 人程度とまれであり、整形外科の日常臨床では遭遇する機会が少ない¹⁾⁶⁾¹⁰⁾。

少関節炎型は、0~6 歳では全 JIA の 7 割と比較的高率に発生し、女児が男児の 3 倍多いことが報告されている⁷⁾。主に下肢に発生し、8 割の患者は膝関節に発生するとの報告もある⁵⁾¹¹⁾。また、発熱や倦怠感などの全身症状を欠くことも多い。したがって、本症例のように可動域制限，関節腫脹を主訴に整形外科外来を初診することがあるが、整形外科医にとっては比較的なじみがないため注意を要する。国内の報告でも局所所見に乏しく、関節鏡による生検ならびに滑膜切除が有用であったとの報告が散見される²⁾⁶⁾⁹⁾。

JIA の診断には、国際リウマチ連盟による JIA の分類基準が利用されている。近年では造影 MRI や関節エコーの有用性が報告されているが、明確な診断基準がなく、病理学的検査を診断の根

拠としている症例も少なくない²⁾⁶⁾⁹⁾。

関節鏡は伸展制限の原因疾患の一つである円板状半月の有無を評価したり、腫瘍性疾患や滑膜炎の有無を評価することが可能であるため有用である。また、病理組織から炎症細胞浸潤や感染の有無を判定することも可能である。鏡視所見や病理所見のみから診断をつけることはできないが、診断確定の有用な検査の一つとして考えられる。

今回の 3 症例を検討すると、①年齢がいずれも 2 歳、②疼痛がなく、可動域制限が主訴、③ MRI で腫瘤様の滑膜肥厚を認める点、④白血球の増加を認めない、CRP、RF が陰性、ANA が 40~80 倍と正常上限よりやや高値である点が共通していた。少関節炎型 JIA は好発年齢が 1~3 歳であり、6 歳以下に発症するとされており⁷⁾、今回の症例はいずれも好発年齢に該当した。可動域制限は関節内水腫に伴って起きると考えられるため、必ずしも生じる所見ではないが、関節炎に伴う水腫を認める症例では屈曲，伸展共に制限を認める場合がある⁶⁾。また、疼痛が 4 人に 1 人で認められないとの報告があるため、疼痛の有無は鑑別には有用ではない⁷⁾。MRI は JIA を診断する上で重要な検査であると報告されている³⁾。すなわち、関節水腫や滑膜肥厚を評価することが可能であり、骨

髓の信号変化も評価可能である³⁾。Hemkeらは、造影MRIは関節水腫と滑膜肥厚を区別するのに重要であることを報告している⁴⁾。梅林は、滑膜炎は造影を用いないと評価できないが、感染や他の膠原病でも滑膜炎が生じることに留意すべきであることを報告している⁸⁾。診断確定のために、造影MRIの撮影を考慮してもよかったのかもしれない。また、少関節炎型JIAの血液所見は、赤沈、CRPは正常でRF陽性の頻度が5%未満、ANA陽性の頻度が30~50%であると報告されている⁷⁾。少関節炎型では正常範囲にとどまる例もあることが報告されている⁸⁾。すなわち、特異度が低いため、血液検査所見は本疾患の確定診断には有用ではないと考える。

今回の症例のようにJIAの中でも特に少関節炎型は全身、局所共に所見に乏しく、特異的な所見がないため、診断に難渋することがある。関節鏡による生検が早期の診断確定に有用であったと考えられた。

結 論

年少時の膝関節可動域制限例では疼痛や血液検査における異常などの所見に乏しい場合もあるため、少関節炎型JIAを鑑別に挙げるべきである。また、関節鏡検査を行うことは確定診断のために有用であると考えられた。

(本論文について開示すべきCOIはありません)

文献

- 1) 秋岡親司：若年性特発性関節炎—病型分類からみたJIAの正しい理解—。日臨免疫会誌 **39**：513-521, 2016.
- 2) 甘利留衣, 横井広道：関節型若年性特発性関節炎に対する関節鏡視下滑膜切除術の経験。日小整会誌 **22**：449-453, 2013.
- 3) Hemke R, Tzaribachev N, Barendregt AM et al：Imaging of the knee in juvenile idiopathic arthritis. *Pediatr Radiol* **48**：818-827, 2018.
- 4) Hemke R, Kuijpers TW, van den Berg JM et al：The diagnostic accuracy of unenhanced MRI in the assessment of joint abnormalities in juvenile idiopathic arthritis. *Eur Radiol* **23**：1998-2004, 2013.
- 5) 川合 博：若年性特発性関節炎—少関節型の診断と治療。小児科診療 **68**：611-617, 2005.
- 6) 大柝英昭, 小寺正純, 森脇孝博ほか：診断に難渋した膝関節水腫のみを呈した若年性特発性関節炎の一例。日小整会誌 **20**：451-455, 2011.
- 7) Staheli LT：Evaluation, Joint Swelling. In *Fundamentals of Pediatric Orthopedics*, 5th ed., Wolters Kluwer Health, Seattle, 38-39, 2016.
- 8) 梅林宏明：若年性特発性関節炎(多関節型・少関節型)。小児科診療 **81**：763-770, 2018.
- 9) 渡部昌平, 竹田治彦, 鎌田一億ほか：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。日小整会誌 **19**：298-302, 2010.
- 10) Yokota S, Mori M, Imagawa T et al：Proposal for juvenile idiopathic arthritis guidance on diagnosis and treatment for primary care pediatricians and neopediatric rheumatologists. *Mod Rheumatol* **17**：353-363, 2007.
- 11) Žuber Z：Oligoarticular onset juvenile idiopathic arthritis as the most common cause of disability of children and young adults. *Rheumatologia* **57**：189-191, 2019.