

顎関節に生じ長期観察中の石灰化病変 —非活動性CPPD（ピロリン酸カルシウム）結晶沈着症と 思われる1例：追跡報告

瀧田正亮 高橋真也 西川典良 京本博行

大阪府済生会中津病院 歯科口腔外科

抄録

診断後6年以上にわたって非活動性に経過している顎関節石灰化病変を報告した。患者は45歳、男性。患者は過去春先に右側顎関節の痛みを訴えることがあったが、4年前より春先の症状も消失しており、画像所見を基に右側顎関節部の小石灰化を有する非活動性CPPD（ピロリン酸カルシウム）結晶沈着症（35×15mm）として追跡観察を行っている。現在石灰化病巣も僅かに縮小している。顎関節部に生じた無症候性CPPD結晶沈着症の観察例は見られないので報告した。

Key words：顎関節疾患，顎関節症状，無症候性石灰化病変

緒言

CPPD（ピロリン酸カルシウム）結晶沈着症は一般的には関節内にCPPD結晶が沈着することにより様々な病態を示す関節炎の一つと考えられている^{1,2}。顎関節部に発生した最近10年間での主な報告例でも疼痛や開口障害等で発見されているが³⁻⁸、無症状のまま経過している例の観察報告は見られない。今回われわれは、既報⁹に続きにその後も3年間にわたって無症状に経過しているCPPD結晶沈着症と考えられる1例を追跡観察しているので報告をする。

症例

患者：45歳、男性。

初診：200A年3月B日

経過：主に春先に右側顎関節部の疼痛を訴えるため、右側顎関節症の診断下に適宜投薬治療を行っていたが、3年を経過した時点で精査により同部に石灰化病変が発見された。当初は画像所見より滑膜性軟骨腫瘍として手術適応としたが、患者は春先を除き症状は消失していることが多いため手術を辞退した。以後定期観察を継続し今年で6年を経過しているが無症状に経過し、画像所見も6年前と比較するとむしろ縮小傾向にある（200A+9年6月C日）（図1，図2，図3，図4）

ため、現在、非活動性病変CPPD結晶沈着症として観察を継続している。なお、顎関節節症状に対する最終処方200A+5年4月D日、すなわち4年前であり以後は春先でも症状の出現は見られない。

考察

1. CPPD（ピロリン酸カルシウム）結晶沈着症の病因と症状

病因については顎関節を除く関節を対象として病理学の領域やリウマチ科領域からも種々論じられており^{1,2}、主なものは外傷、若年者での代謝性疾患（低マグネシウム血症、副甲状腺機能亢進症、ヘモクロマトーシス等）に続発する例、遺伝性（家族性）等が挙げられ、高齢者では無症候性に見られる例が多いとされているが、初発症状は急性または慢性関節炎・関節周囲炎様を呈するとされている。しかし、本症の病因については未だ明らかではなく、口腔外科からの報告でも、上記に該当する病因は見られず原因についても言及されていない³⁻⁸。なお、顎関節部に生じたCPPD結晶沈着症として報告された例の症状は耳前部や顎関節部の疼痛、顎関節運動時の疼痛、開口障害の他、咬合の違和感、等の通常の顎関節症症状や顎関節周囲の腫脹として初発している³⁻⁸が、咬合や咀嚼運動等の

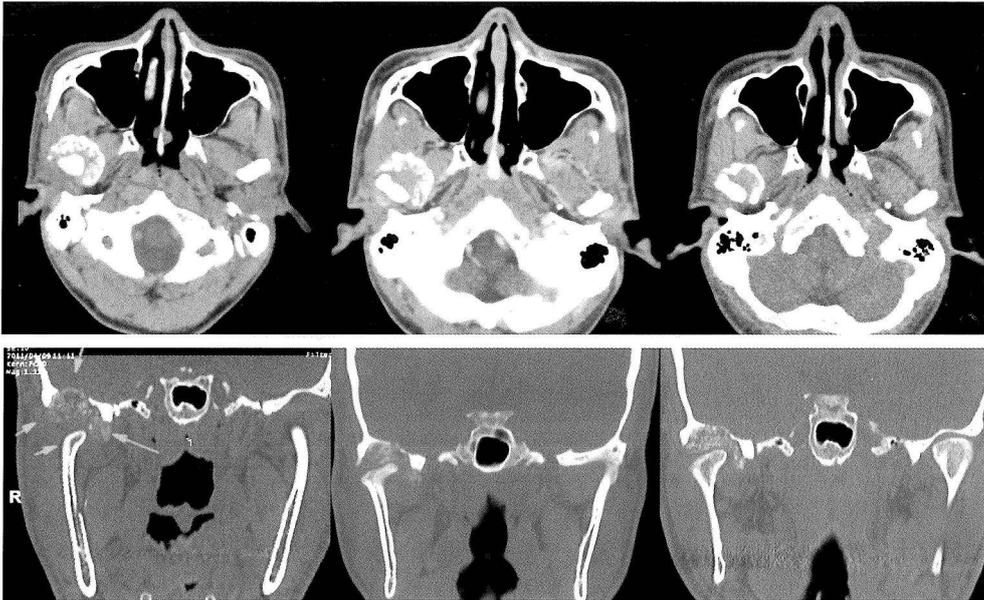


図1 CT所見 200A+3年(左)、200A+6年(中央)、200A年+9年(右)、上段:横断面、下段:冠状面。上段では明らかに病巣範囲の縮小が示される。

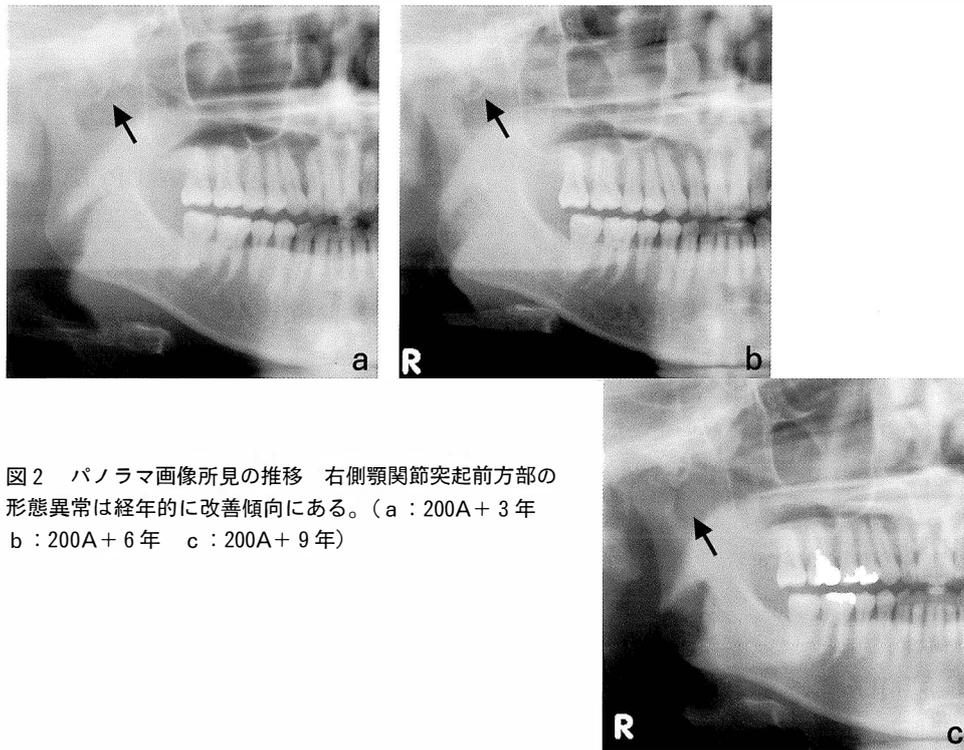


図2 パノラマ画像所見の推移 右側顎関節突起前方部の形態異常は経年的に改善傾向にある。(a:200A+3年 b:200A+6年 c:200A+9年)

解剖学的、生理学的な特性が、他部位の関節に発生したものとの病態の異なりを生じている可能性も否定できない。一方、Schleeらの結晶性関節炎(Cristal arthritides)に関する総説にはCPPDの病因の一つとしてとして局所での炎症病態が軟骨細胞のピロリン酸代謝の異常に関与し滑液中での尿酸の結晶化が論じられている¹⁰。この見方は顎関節に及ぶ咬合・咀嚼に関

連した慢性外力が特定の条件下での炎症病態を形成しCPPD結晶沈着症を起こす可能性にも応用し得ると思われる。

2. 顎関節部に発生したCPPD(ピロリン酸カルシウム)結晶沈着症の診断の確定と治療

CPPD結晶沈着症の確実な診断にはX線回析または化学分析によるCPPD結晶の証明が必要である¹が、

本例では実施していない。本例では長期にわたって無症状に経過しているため、生検や穿刺等による刺激で炎症を惹起することを危惧し、極めて特徴的な画像所見より無症候性CPPD結晶沈着症と診断し追跡観察を行っている。治療や処置については、全摘出、可及的摘出、生検のみ等が報告されており³⁻⁸、摘出を試みても症状消失には至らない例があることから、対応については慎重にならなければならない。このことは、

病変の大きさに比してパノラマX線画像では顎関節突起の形態変化に乏しい例^{4,6,9}があることにも関連していると思われる。本例では患者の意思により摘出を回避し、咬合・咀嚼、食生活や睡眠習慣等に注意して情動と連動する顎関節機能⁹を生理的に保持しつつ最近の4年間は無症状のまま観察を続けている。

3. 本例の経過と特徴

本例では右顎関節部の疼痛を主訴に来院し、しかも

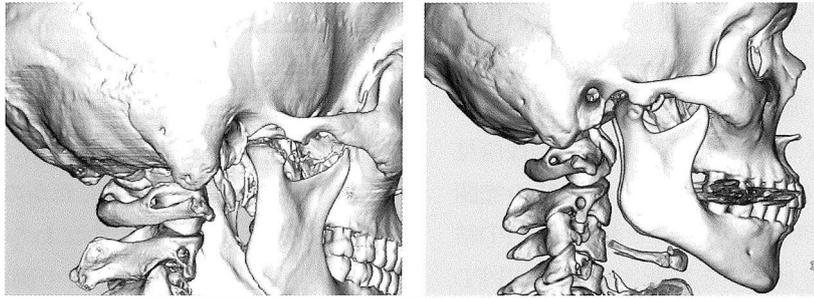


図3 3-DCT所見 200A+9年 顎関節周囲に異常な骨吸収像はみられない。

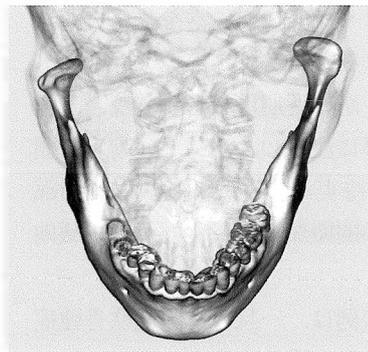
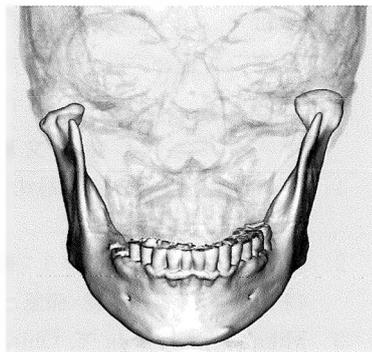
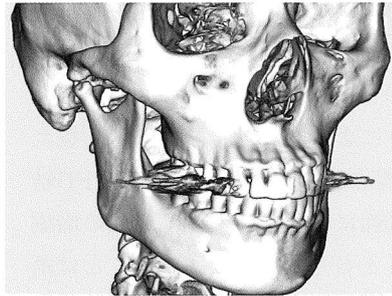


図4 3-D マルチマスクの所見 (6年経過中) 右側関節突起の形態は軽度発育不良様所見を呈するが、異常な吸収像はみられない。

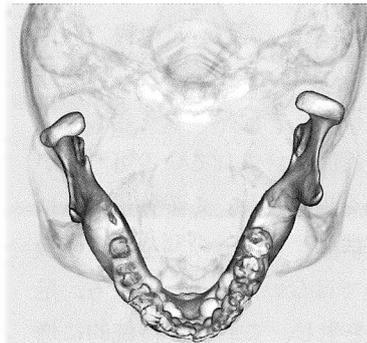


表1 滑膜性軟骨腫病変の画像診断後治療経過によりCPPD結晶沈着症と診断された例

	年齢	性	画像診断	治療	経過	初診からの観察期間
足立ら ⁴	72	F	左側顎関節滑膜性軟骨腫	摘出	疼痛継続VAS*:2	1年8ヶ月
本例	45	M	右側顎関節滑膜性軟骨腫症	保存	無症状(4年前より)	9年

*VAS: Visual Analogue Scale

春先に症状を訴えることが多かった。

季節の変化に伴う情動的、情動的な要因の影響による咀嚼筋の筋緊張が背景にあったのであろうか。しかし、初診3年後に右顎関節部に石灰化病変が発見された後も通常の顎関節症すなわち咀嚼指導と適宜の投薬治療(4~5日)でその都度症状は消失し、4年前からは投薬することなく無症状に経過している。すなわち、当初の顎関節症状と6年前に発見された画像所見とは既報告の症状^{3,8}の点で整合せず、初診時の顎関節症状は通常の顎関節症によるものであり、CPPD結晶沈着症によるものではないと判断された⁹。CPPD結晶沈着症の疼痛の原因は結晶に対する炎症性サイトカインの関与する炎症拡大と考えられている¹が、本例の経過からは当初の顎関節症状はCPPDに対する炎症性サイトカインのみによるものと単純には考え難えにくい。すなわち、顎関節症の病態のなかでCPPD結晶沈着が起こり非活動性に経過しつつ顎関節症の治療により縮小傾向にあるとも考えられた。このことは画像所見からも窺える(図1, 図2)。先にも述べたようにSchleeらの総説論文にみられる関節部における炎症病態が軟骨細胞のピロリン酸代謝異常を誘発し滑液中にCPPD結晶が析出するという見方は本例にも適応できるのではないだろうか。長期にわたって咬合・咀嚼、食生活や睡眠習慣等に注意して情動と連動する顎関節機能⁹を生理的に保持することにより、顎関節部の炎症病態が改善され顎関節部の石灰化像が縮小傾向にあると考えられたい。

今回のわれわれの報告例は、一旦は滑膜性軟骨腫症と診断され、その後にCPPD結晶沈着症と診断された点および非結節性であった点から足立ら⁴の報告例に類似している。足立ら⁴は顎関節症と診断され顎関節症の治療法を受けたにも関わらず症状が改善されない症例には、CPPD結晶沈着症が含まれている可能性があり関節腔内洗浄の適応を提唱した。この背景からは顎関節症の病因とCPPD結晶沈着症との関連性への検討の余地が示唆されるのではないだろうか。一方、足立ら⁴は散在性に結晶塊を生じ、これらが持続的に増

大、癒合を繰り返した結果、結節を生じるという可能性を推測したが、本例では顎関節症に対する生活習慣への指導を含めた長期的な治療によりむしろ症状は消失し石灰化病巣は縮小傾向を示した(表1)。咬合・咀嚼、食生活や睡眠習慣等日常生活に影響される情動に関連した顎関節への外傷性応力の個別性も顎関節部に生じたCPPD結晶の経過に影響する可能性が本例を通じて考えられる。だとすると、顎関節症とCPPD結晶沈着症のどちらが初発したかの疑問が残る。本例の場合200A年3月B日、すなわち9年前の初診時のパノラマ所見やシュラー法での画像所見では図2aに示した所見が見られず、通常の顎関節の治療を適宜行い効果が得られていた。このことから、顎関節症が先行し経過中にCPPD結晶沈着症が併発したが、顎関節症の治療を適宜継続することにより、CPPD結晶沈着症も沈静化しつつあると推定し得た。今後の報告と究明が必要とされる。

結 語

顎関節に発症し無症状に経過しているCPPD結晶沈着症を呈した例の6年間の追跡報告(患者:45歳,男性)を行い、CPPD結晶沈着症を一独立病態ではなく顎関節症の病因との関連性、すなわち顎関節部に及ぶ外傷性応力との可能性について述べた。

参 考 文 献

1. 石田 剛, 今村哲夫: 結晶沈着症と関連疾患. 病理と臨床, 2001. 19: 307-319
2. 益田郁子: 偽痛風(ピロリン酸カルシウム結晶沈着症; CPPD)の病態と治療. 痛風と核酸代謝, 2011. 35: 1-7
3. Mikami T, Takeda Y, Ohira A, et al: Tumoral calcium pyrophosphate dehydrate crystal deposition disease of the temporomandibular joint: identification on crystallography. Pathol Int, 2008. 58: 723-729
4. 足立忠文, 山崎勝己, 中島昌宗, 他: 顎関節におけるピロリン酸カルシウム結晶沈着症の1例. 日口外誌, 2008. 54: 458-462
5. Takata Y, Koeda S, Inahara H, et al: Tophaceous pseudogut(tumoral calcium pyrophosphate dehydrate

- crystal deposition disease) of the temporal bone. Asian Maxillofac Surg, 2010. 22: 108-111
6. 片山良子, 栗田賢一, 福田幸太, 他: 滑膜性骨軟骨腫症と関節円板の石灰化を併発した顎関節部ピロリン酸カルシウム結晶沈着症の1例. 日口外誌, 2012. 58: 366-370
 7. Kudoh K, Kudoh T, Tsuru K, et al: A case of tophaceous pseudogout of the temporomandibular joint extending to the base of the skull. Int J Oral Maxillofac Surg, 2017. 46: 355-359
 8. 於保耕太郎, 宮脇昭彦, 秋森俊行, 他: 側頭下窩を占拠する巨大な結節性偽痛風の1例. 日口外誌, 2017. 63: 517-522
 9. Takita M, Misumi S, Nishikawa N, et al: Calcified pseudotumor of the temporomandibular joint suspected as tophaceous pseudogout: A case of conservative observation. 中津年報, 2013. 24: 216-219
 10. Schlee S, Bollheimer LC, Bertsch T, et al: Crystal arthritides - gout and calcium pyrophosphate arthritis: Part 1: Epidemiology and pathophysiology. Z Gerontol Geriatr. 2018, 51: 453-460.

Asymptomatic calcified lesion of temporomandibular joint: A follow-up report as calcium pyrophosphate dehydrate crystal deposition disease (CPPD)

Masaaki Takita, Shinya Takahashi
Noriyoshi Nishikawa and Hiroyuki Kyomoto

Department of Dentistry and Oral Surgery, Saiseikai Nakatsu Hospital, Osaka

The case of an asymptomatic calcified lesion (35×15 mm) that occurred within the glenoid fossa is presented. The patient was a 45-year-old man. In early spring, he had suffered from right-side temporomandibular joint arthrosis. He has been asymptomatic for four years even in the early spring. For the last 6 years we have continued follow-up as calcium pyrophosphate dehydrate crystal deposition disease (CPPD) based on CT images. Mild regression in size on CT images has been noted to date. In the literature reports on asymptomatic and size regression of CPPD of the temporomandibular joint are rare. Some cases CPPD of the temporomandibular joint do not show progressive behavior.