

日本におけるペルテス病の多施設調査報告

日本小児整形外科学会 Multi-center Study 委員会

金 郁 喆・日本小児整形外科学会 MCS 委員

要 旨 【目的】 少子化に伴って小児整形外科疾患の発生数は少なくなっている。本稿は日本小児整形外科学会が企画した多施設調査対象のひとつであるペルテス病の日本における疫学的調査と調査期間の治療法とその成績およびペルテス病の予後因子を明らかにすることである。

【対象および方法】 1993年1月1日から1995年12月31日の間にペルテス病と診断された16歳未満の小児を対象とした。日本整形外科学会が研修指定施設と認定した約2000の病院や小児施設にアンケートを送り、その回答を収集解析した。アンケート項目は診断時年齢、性別、罹患側、症状(疼痛の有無、疼痛部位、歩行時痛や跛行の有無)、家族歴、既往歴、スポーツ歴、単純X線学的診断分類(Catterall分類, Herring分類)とその発症からの分類時期、治療方法(containment療法かnon-containment療法, 保存療法か手術療法, 装具療法の肢位、荷重か非荷重)、治療成績(Stulberg分類)であった。

【結果】 全国95施設から回答を得た。1993年～1995年の3年間に711症例(766股)がペルテス病と診断された。発症率は小児10万人に対して約1人程度で、3年間の平均は0.9人であった。男女比は6.3対1、罹患側は右:左:両側で5.1:6.8:1であり、両側例は7.7%であった。症状として疼痛を有した症例は91.7%、歩行時痛は83.3%、跛行は96.0%であった。家族歴は4.5%に認められた。Containment療法は632例(92.5%)に、Non-containment療法は35例(5.1%)に施行された。16例は不明または放置症例であった。13歳以上または3.5年以上追跡された症例のStulberg分類ではtype Iが76(25%)例、135(44%)例がtype II、69(23%)例がtype III、21(7%)例がtype IV、3(1%)がtype Vであった。片側症例での多変量解析では保存療法群は1.87倍のオッズ比で手術療法群より危険率が有意に高かった。治療成績に関与する有意な危険因子は第一にHerring分類、第二に診断時年齢、第三に罹患側(右側はリスクが高い)であった。

【考察】 日本の発症率は過去に報告がないが、小児10万人に約1人という数字は欧米の報告より低い。回答のなかった施設分が不足していると考えられた。症状で疼痛のない症例が8%に認められたことは診断や病院受診の遅れる要因と考えられた。跛行は96%に認めており、診断にあたって重要な臨床症状と考えられた。多変量解析では従来の報告と同様に予後は発症時年齢(低年齢ほど成績は良好)、骨頭の圧潰の程度(Herring分類)に大きく影響されていた。また、右側の罹患が危険因子となる結果を得たがその原因として効き足の関与以外に明らかな要因は考えられなかった。

はじめに

今日、少子化に伴い小児整形外科疾患の発生数も減少しているため、2000年に日本小児整形外科

学会は日本でのMCS(多施設調査)の委員会を充足させた。本稿ではその中のペルテス病の多施設調査について報告する。この調査は日本でのペルテス病の発生率を含めた疫学調査と治療方法およ

Key words : MCS, Perthes disease, prognosis, treatment

連絡先 : 〒 602-8655 京都市上京区河原町広小路梶井町上ル 465 京都府立医科大学大学院運動器機能再生外科学(整形外科) 金 郁 喆 電話(075)251-5549

※ original の paper は JOS 11 : 333-341, 2006. に掲載されております。

びその成績について調査した。また、多変量解析を行って予後に関する危険因子を調べた。

対象および方法

日本整形外科学会認定の研修指定約 2000 施設にアンケート調査を行った。1993 年 1 月 1 日から 1995 年 12 月 31 日の間にペルテス病と診断された患児を対象とした。同性同名で誕生日が同じ症例 2 名のうち 1 例は除外した。アンケート項目は誕生日、性別、診断時年齢、家族歴、スポーツ歴、罹患側、症状、疼痛部位、Catterall 分類とその分類時期、Herring 分類とその分類時期、治療開始日、治療方法 (containment 療法か non-containment 療法、保存療法では荷重の有無)、装具の種類と装着期間および最終調査時の Stulberg 分類とその判定時年齢であった。治療成績の評価では内分泌異常、遺伝子疾患、先天性股関節脱臼例は除外した。治療方法の比較では両側発症例を除外した。Stulberg 分類は 13 歳以上または診断後 3.5 年以上経過して評価された症例を対象とした。統計学的解析では治療方法の成績比較で Kruskal-Wallis H test を用いた。多変量解析 (ordinal logistic regression analysis) では、診断時年齢、性別、罹患側、Herring 分類とその発症後の診断時期、治療方法 (手術療法; Salter 骨盤骨切り術 (SIO)、大腿骨減捻内反骨切り術 (FVO) / 保存療法; 両側外転全荷重装具 (BFW)、両側外転非荷重装具 (BNW)、片側外転全荷重装具 (HFW)、片側外転部分荷重装具 (HPW)、片側外転非荷重装具 (HNW)、および最終調査までの期間を従属変数、Stulberg 評価を独立変数としてすべての従属変数の欠損がない症例を対象とした。解析結果のオッズ比は $\exp(B)$ で算出される。たとえば性別で男性に対する女性のオッズ比が $\exp(B) = 1.5$ で表現された場合、女性は男性より予後が 1.5 倍悪いという意味である。すべての統計学的解析は Social Science (SPSS) version 12.0 J software を用いた。また、有意水準を 0.05%未満とした。

結果

こども病院、肢体不自由施設および大学病院を含め 95 施設から回答を得た。1993 年 1 月 1 日から 1995 年 12 月 31 日の間にペルテス病と診断された症例は 711 例 766 股であった。1993 年 217 例、1994 年 266 例、1995 年 228 例 (表 1) であった。男児は 619 例、女児は 92 例であった。平均診断時年齢は 7 歳 1 ヶ月 (2.3~14.3 歳)。罹患側は右 281 例、左 372 例、不明 3 例、両側 55 例 (7.7%) であった。40 症例は合併症や基礎疾患を有していた。6 例は内分泌異常 (下垂体機能低下性小人症 4 例、甲状腺機能低下症 2 例)、低身長 (-2 SD 以下) 2 例、側弯・片側肥大症 1 例、先天性股関節脱臼 3 例、内反足 1 例、骨幹端異形成症 1 例、習慣性膝蓋骨脱臼 1 例、アレルギー疾患 13 例、先天性心疾患 3 例、遺伝子疾患 2 例、精神発達遅延 1 例、大腿骨外顆骨壊死症 1 例、聴覚障害 1 例、斜視 1 例、低出生体重時 1 例、合併症があるも詳細不明が 2 例であった。疼痛が主訴であった症例は全体の 92% で 56% は股関節、12.5% は膝関節、9.2% は大腿部に疼痛を自覚していたが、8% は疼痛がなかった。歩行時痛は 83.3%、跛行は 96% に認められた (表 2)。家族歴は 4.5% に認められた。そのうちの 50% は兄弟・姉妹であった (表 3-a)。スポーツ歴は 14.2% であった (表 3-b)。Catterall 分類では 50.6% が group 3 で 30.2% が group 4 (表 4-a) であった。Catterall 分類の比率と発症後の判定時期とのあいだには有意差は認めなかった (図 1-a)。Herring 分類では 60.9% が type B で 27.3% が type C (表 4-b) であった。Herring 分類の比率とその判定時期の間には有意な相関を認めた (Kruskal-Wallis H test; $p = 0.008$) (図 1-b)。治療方法に関して (表 5) Containment 療法は 632 (92.5%) に施行されていた (外転装具 447 例、Salter 骨盤骨切り術 17 例、大腿骨内反骨切り術 74 例など)。一方、non-containment 療法は 35 例 (5.1%) に施行されていた (非荷重 3 例、牽引後の非外転装具療法 11 例、スリング療法 4 例、運動制

表 1. ペルテス病の発症率 1993 年～1995 年

	ペルテス病	人口(<16 歳)	発症率(/10 ⁵)
	男/女/計	男/女/計(×10 ⁵)	男/女/計
1993 年	190/27/217	137/130/267	1.39/0.21/0.81
1994 年	230/36/266	135/123/258	1.70/0.29/0.10
1995 年	199/29/228	136/126/262	1.46/0.23/0.87
平均			1.51/0.24/0.90

表 2. ペルテス病の症状

疼痛なし	58/695(8%)
疼痛あり	637/695(92%)
疼痛部位	
股関節	359
膝関節	80
大腿部	59
股、膝関節	44
股関節、大腿部	42
大腿部、膝関節	15
股・膝関節、大腿部	11
下腿、足部	9
その他(腰など)	8
歩行時痛	443/532(83.3%)
跛行	626/652(96.0%)

表 3. 家族歴とスポーツ歴

a. 家族歴

なし	530(95.5%)
あり	25(4.5%)
兄弟・姉妹	12
父	7
その他 (いとこなど)	2
不明	4
無回答	10

b. スポーツ歴

なし	350(85.8%)
あり	58(14.2%)
サッカー	27
野球	10
体操	4
陸上	4
水泳	3
その他	7
不明	2
無回答	303

表 4. Catterall 分類と Herring 分類

a. Catterall 分類

group 1(G1)	30(4.3%)
group 2(G2)	103(14.8%)
group 3(G3)	352(50.6%)
group 4(G4)	210(30.2%)

b. Herring 分類

type A(HA)	68(11.8%)
type B(HB)	350(60.9%)
type C(HC)	157(27.3%)

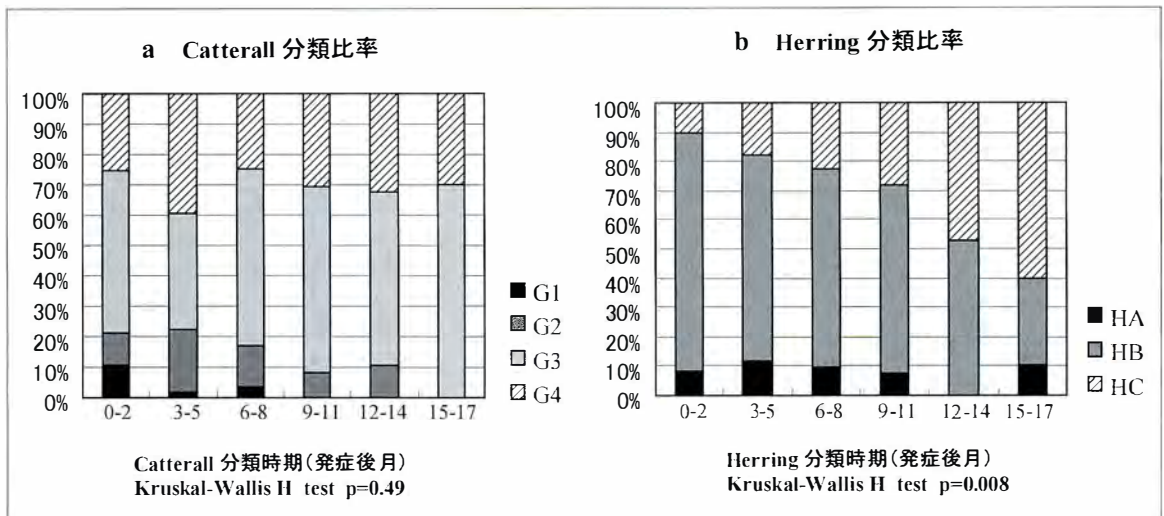


図 1. Catterall 分類および Herring 分類の比率とその分類時期

限 3 例, 大腿骨外反骨切り術 5 例, 大腿骨頭前方回転骨切り術 4 例, Chiari 骨盤骨切り術 1 例, 生検後の血管柄付き骨移植術 1 例, 大転子下降術 2 例など). 16 例(2.3%)は経過観察のみで治療は行われなかった. 治療成績の比較のために 611 例中 Stulberg 分類が行われた 304 例を抽出した. それらは骨格成熟期に近い 13 歳以上で Stulberg 分類をされた症例または診断後少なくとも 3.5 年以上の追跡後に Stulberg 分類された症例であっ

た. 304 例中 Stulberg type I は 76(25%)例, type II は 135(44%), type III は 69(23%), type IV は 21(7%), type V は 3(1%)(表 6)であった. Herring type A では 96.7%が Stulberg type I と II であり, Catterall group 1 は 100%, Catterall group 2 は 93.5%が Stulberg type I と II であった. それゆえ, 若年群と年長群(表 7, 8)における 7 種類の治療方法による成績比較では Catterall group 1 と group 2, Herring type A を除外した.

表 5. ペルテス病の治療方法

Containment 療法	632/683 (92.5%)
保存的	519 (82.1%)
手術的	113 (17.9%)
非 containment 療法	35/683 (5.1%)
保存的	25 (71.4%)
手術的	10 (28.6%)
経過観察	16/683 (2.3%)
無回答	28
合計	711

表 6. ペルテス病の治療成績 (13 歳以上で Stulberg 分類または診断後 3.5 年以上の追跡期間症例: n = 304)

Stulberg 分類							
Stulberg 分類の時期 (診断後)	平均	標準偏差 (年)	I	II	III	IV	V
	12.0 ± 2.2		76 (25)	135 (44)	69 (23)	21 (7)	3 (1) (%)

片側ペルテス病

診断時年齢 (年)	性別	罹患側	追跡期間 (年)				
平均	標準偏差	男	女	右	左	平均	標準偏差
7.0 ± 2.1		270	34	140	164	5.0 ± 1.0	

単純 X 線学的分類

Catterall 分類の時期 (発症後)	平均	標準偏差 (月)	I	II	III	IV
	6.9 ± 4.2		10	39	164	91
Herring 分類の時期 (発症後)	平均	標準偏差 (月)	A	B	C	
	6.6 ± 3.9		30	204	70	

表 7. 8 歳未満の治療成績 (Catterall I, 2 群と Herring type A を除外: n = 173)

n. s.; Kruskal-Wallis H test

	年齢 (年 s)	性別		罹患側		Ca 分類月	Cat-terall	He 分類月	Herring	手術月	装具 期間 (月)	St 分類年	Stulberg 分類					追跡 期間 (年)		
	Av ± SD	男	女	右	左	Av ± SD	III	IV	A	B	C	Av ± SD	I	II	III	IV	V	Av ± SD		
SIO (n=9)	6.7 ± 0.8	9	0	6	3	8.0 ± 3.5	7	2	8.0 ± 3.5	5	4	5.1 ± 2.4	-----	12.5 ± 1.4	3	5	1	0	0	5.8 ± 1.0
FVO (n=24)	6.4 ± 1.2	21	3	14	10	4.0 ± 3.3	11	13	4.3 ± 3.7	15	9	5.6 ± 3.4	-----	11.5 ± 1.3	8	6	7	3	0	5.1 ± 0.8
HNW (n=40)	6.0 ± 1.5	39	1	21	19	8.8 ± 4.1	26	14	8.2 ± 3.3	30	10	-----	19.3 ± 7.0	11.0 ± 2.1	9	22	5	4	0	5.0 ± 0.8
HPW (n=12)	6.1 ± 1.3	10	2	3	9	6.3 ± 3.5	9	3	6.4 ± 3.4	8	4	-----	12.9 ± 4.3	11.8 ± 2.1	4	2	5	0	0	5.8 ± 1.2
BNW (n=59)	6.0 ± 1.3	52	7	30	29	7.4 ± 4.0	31	28	7.0 ± 3.9	46	13	-----	17.5 ± 7.3	11.0 ± 1.5	12	31	11	5	0	5.0 ± 0.8
BFW (n=29)	5.5 ± 1.4	27	2	18	24	8.0 ± 4.9	17	12	7.5 ± 4.5	14	15	-----	17.0 ± 7.3	10.9 ± 1.9	4	10	13	2	0	5.3 ± 1.2

SIO; Salter 骨盤骨切り術, FVO; 大腿骨内反骨切り術, HNW; 片側非荷重外転装具, HPW; 片側部分荷重外転装具, HFW; 片側全荷重外転装具, BNW; 両側非荷重外転装具, BFW; 両側全荷重外転装具, Ca 分類月; Catterall 分類時期 (発症後), He 分類月; Herring 分類時期 (発症後), St 分類年; Stulberg 分類時期 (発症後), Av; 平均, SD; 標準偏差

しかしながら, 若年群と年長群の間には治療成績に有意な差を認めなかった (HFW 群は症例数が少ないため比較においては除外した) (Kruskal-Wallis H test). 多変量解析としての ordinal logistic regression analysis では Herring 分類が最も高い予後因子でオッズ比は A/C と B/C でそれぞれ 0.030 と 0.170 であった. 次に高い予後因子は診断時年齢で一歳年齢が高くなるごとにオッズ比

は 1.445 倍となった. また, 右側は左側より予後不良でそのオッズ比は 1.577 倍であった. 保存療法と手術療法では保存療法が有意に予後不良で, そのオッズ比は 1.872 (表 9) であった. また, 保存療法では各種治療法の間有意差を認めなかった (BFW, BNW, HFW, HPW, HNW) (表 10). 手術療法では SIO と FVO の間に有意差を認めなかった (表 11).

表 8. 8 歳以上の治療成績(Catterall 1,2 群と Herring type A を除外: n = 65)

n. s. ; Kruskal-Wallis H test

	診断時年齢		性別		罹患側		Ca 分類月		Catterall 分類月		He 分類月		Herring 分類月		手術時月		装具期間(月)		St 分類年		Stulberg 分類					追跡期間(年)	
	Av	SD	男	女	右	左	Av	SD	III	IV	Av	SD	B	C	Av	SD	Av	SD	Av	SD	I	II	III	IV	V	Av	SD
SIO (n=4)	10.0±1.8		3	1	1	3	12.0±3.7		3	1	12.0±3.7		2	2	4.3±1.3		-----		15.0±1.7		0	1	2	0	0	4.8±0.7	
FVO (n=14)	9.8±1.1		13	1	5	9	4.3±3.7		11	3	4.4±3.7		12	2	4.3±3.3		-----		14.5±1.5		3	7	2	1	1	4.7±0.7	
HNW (n=11)	9.6±1.2		10	1	4	7	7.5±3.4		9	2	7.5±3.0		10	1	-----		24.4±10.8		14.5±1.8		1	3	4	1	2	4.8±0.9	
HPW (n=3)	9.1±1.2		3	0	1	2	7.7±1.5		2	1	12.0±3.6		1	2	-----		15.7±5.1		13.9±1.1		0	0	2	1	0	4.8±1.4	
BNW (n=29)	9.4±1.6		26	3	11	18	6.9±4.0		21	8	6.6±3.7		27	2	-----		16.2±5.5		14.0±1.8		1	16	10	2	0	4.6±0.8	
BFW (n=4)	9.7±1.5		4	0	2	2	7.5±3.3		3	1	6.5±1.7		2	2	-----		12.3±1.7		15.0±2.2		0	2	1	1	0	5.4±1.0	

SIO ; Salter 骨盤骨切り術, FVO ; 大腿骨内反骨切り術, HNW ; 片側非荷重外転装具, HPW ; 片側部分荷重外転装具, HFW ; 片側全荷重外転装具, BNW ; 両側非荷重外転装具, BFW ; 両側全荷重外転装具, Ca 分類月 ; Catterall 分類時期(発症後), He 分類月 ; Herring 分類時期(発症後), St 分類年 ; Stulberg 分類時期(発症後), Av ; 平均, SD ; 標準偏差

表 9. Ordinal logistic regression analysis(全例 : n = 294)

	B	SE	Wald	95% CI for Exp(B)		
				Lower	Exp(B)	Upper
診断時年齢 (年)	0.368	0.059	39.23***	1.288	1.445	1.621
性別 女/男	0.282	0.355	0.628	0.661	1.325	2.658
罹患側 右/左	0.455	0.226	4.071*	1.013	1.577	2.454
Herring 分類時期 (月)	-0.034	0.031	1.202	0.910	0.967	1.027
Herring type A/C	-3.498	0.526	44.30***	0.011	0.030	0.085
	B/C	-1.774	0.305	33.74***	0.093	0.170
治療法 保存/手術	0.627	0.296	4.502*	1.049	1.872	3.341
追跡期間 (年)	0.205	0.119	2.971	0.972	1.228	1.550

Property of model : paralell line test

	-2 exponential likelihood	χ^2	df	p value
null hypothesis	651.788			
general	640.648	11.140	24	0.988

*p<0.05. **p<0.01. ***p<0.001
SE ; standard error.
95% CI ; 95% of confidence interval
Exp(B) ; exponential B = Odds ratio

考 察

1) 疫学的結果

今日まで、日本での大規模なペルテス病の疫学的調査報告はない。1993 年のペルテス病発生数は 217 例(男 190 例, 女 27 例), 1994 年は 266 例(男 230 例, 女 36 例), 1995 年は 228 例(男 199 例, 女 29 例)であった。一方、国民人口統計によると

1993 年の 15 歳未満の人口は 2670 万人, 1994 年は 2580 万人, 1995 年は 2620 万人であったため, 発生率は 1993 年で 10 万人に 0.81 人, 1994 年は 1.03 人, 1995 年は 0.87 人となり, この 3 年間の平均は 0.90 人であった(表 1)。これは過去の報告と比較して, Molloy⁴⁾らの報告を除き, 白人の発生率より低い^{4)~7)}(表 12)。発生率は性, 人種, 国, 経済状況によって異なると報告されてお

表 10. Ordinal logistic regression analysis(保存療病例：n = 237)

		B	SE	Wald	95% CI for Exp(B)		
					Lower	Exp(B)	Upper
診断時年齢	(年)	0.389	0.067	34.02***	1.295	1.475	1.681
性別	女/男	0.307	0.401	0.588	0.620	1.360	2.983
罹患側	右/左	0.590	0.262	5.071*	1.079	1.803	3.012
Herring 分類時期	(月)	-0.072	0.035	4.204	0.868	0.930	0.997
Herring type	A/C	-3.623	0.587	38.12***	0.008	0.027	0.084
	B/C	-1.672	0.359	21.70***	0.093	0.188	0.380
治療法	BFW/HPW	0.800	0.538	2.215	0.779	2.226	6.386
	BNW/HPW	0.449	0.505	0.791	0.582	1.567	4.220
	HFW/HPW	-0.856	0.945	0.819	0.067	0.425	2.711
	HNW/HPW	0.425	0.543	0.612	0.528	1.530	4.434
装具期間	(月)	0.028	0.020	1.949	0.989	1.028	1.069
追跡期間	(年)	0.209	0.137	2.335	0.943	1.233	1.613

Property of model : paralell line test

	-2 exponential likelyhood	χ^2	df	p value
null hypothesis	507.902			
general	490.026	17.873	36	0.995

*p<0.05. **p<0.01. ***p<0.001
SE ; standard error.
95% CI ; 95% of confidence interval
Exp(B) ; exponential B = Odds ratio

表 11. Ordinal logistic regression analysis(手術療病例：n = 57)

		B	SE	Wald	95% CI for Exp(B)		
					Lower	Exp(B)	Upper
診断時年齢	(年)	0.350	0.150	5.467*	1.058	1.419	1.902
性別	女/男	0.134	0.883	0.023	0.202	1.144	6.458
罹患側	右/左	-0.033	0.507	0.004	0.358	0.967	2.614
Herring 分類時期	(月)	-0.034	0.089	1.073	0.921	1.096	1.304
Herring type	A/C	-2.865	1.452	3.895*	0.003	0.057	0.980
	B/C	-1.497	0.691	4.694*	0.058	0.224	0.867
手術方法	FVO/SIO	0.806	0.727	1.227	0.538	2.238	9.313
追跡期間	(年)	0.205	0.272	0.645	0.730	1.245	2.123

Property of model : paralell line test

	-2 exponential likelyhood	χ^2	df	p value
null hypothesis	132.079			
general	111.241	20.838	24	0.648

*p<0.05
SE ; standard error.
95% CI ; 95% of confidence interval
Exp(B) ; exponential B = Odds ratio

り^{4)~7)}、白人は黄色人種より高く、黄色人種は黒人より高いと報告されている⁶⁾。

両側発生例はこの調査期間では7.7%であった。両側例の家族歴は9.5%の陽性率で片側例より高かった。男女比は片側例の場合と比べて差はなかった。1978年、英国エジンバラ・グラスゴー地区では両側例発生例は11.3%と Wynne-Davies⁸⁾らが報告しており、発生率は一般的に10~13%といわれている。もし、今回の調査期間が長くなれば、少し数値が増加した可能性はある。

両側例の分析では、711症例の中56例が両側例で、男児49例、女児6例、不明1例であった。1例に糖尿病の合併症があった。調査期間内に両側例と診断された症例の平均診断時年齢は6歳9ヵ月で他の報告⁸⁾と同様に片側例より若かった。55例中、同時発生か先発側の有無について回答のなかった症例は4例、ほぼ同時発症は2例、時間差のあった症例は49例であった。先発側と後発側の時間的差は51例で平均6.2ヵ月であった。

ペルテス病の主な症状は疼痛、歩行時痛、跛行

表 12. ペルテス病の発生率報告

	男/女/計(/10 ⁵)
1966 Molloy MK ¹⁾ (USA, Massachusetts)	/0.57
1972 Gray IM ³⁾ (Canada, Br. Columbia)	8.4/1.6/ 5.1
1983 Hall AJ ⁹⁾ (England, Liverpool)	25.8/4.9/15.6
1992 Moberg A ⁷⁾ (Sweden, Uppsala)	8.5/2.1/ 6.3
2005 MCS in Japan	1.51/0.24/0.9

であり、疼痛部位が股関節に限局するものは56.4%、膝関節単独は12.5%であり、大腿部に限局するものは12.5%であった。疼痛を有する症例は92%であった。初診時に8%が疼痛を自覚していなかった点は特に留意する必要がある(表2)。歩行時に痛みを訴える症例は83.3%で、疼痛の有無にかかわらず96%は跛行を認めた。片側例の家族歴は4.5%で兄弟、姉妹、双子、甥、父、叔父に認められた。Wynne-Davies⁸⁾らは一親等で1.0%、二親等で0.3%、三親等で0.3%と報告している。

X線学的重症度分類ではHerring分類B型が最も多く、全体の60%を占めていた。2005年Herringらは新たにB/C型を分類してその予後との関連を検討している。今回の調査はそれより以前の調査であるため、B/C型は含んでいない。Herring分類の最適な分類時期は分節期とされ、発症後7か月以降はLateral pillarの高さに大きな変動はないと報告している¹⁰⁾が、Herring分類時期とその型の比率はその分類時期によって変動があった。今回の調査では分類時期が遅れるほどC型が有意に増加していた(Kruskal-Wallis H test; $p=0.008$) (図1-b)。このことはlateral pillarの高さが発症後、経時的に徐々に圧潰することを示していると考えられた。Catterall分類ではその分類時期と型の比率に有意な相関はなかった(図1-a)、Catterall分類は壊死範囲で決定されており、圧潰の程度とは直接関連がない点から、この結果を理解できるが、壊死を免れた部分の変形や二方向からの単純X線像から分類するCatterall分類は判定が複雑で、今日有用とはされていない。

2) 治療方法

1910年にLegg, Calvé, Perthesらが時を同じくしてペルテス病を報告して以来、その主な治療法はDanforth¹¹⁾やSundt¹²⁾が報告しているように長期臥床や下肢の牽引療法であった。しかし、長期臥床は筋力低下など多くの問題を生じるため、患肢の免荷を保った歩行可能な治療方法が工夫さ

れてきた。

1958年Evans¹³⁾はSnyder¹⁴⁾スリングについてその治療成績は臥床療法と変わらないと報告した。

1966年Harrison¹⁵⁾らは1929年にParkerが提唱したcontainment療法の有用性について報告した。そのcontainment療法の有用性が急速に世界に広がり、日本でも多くの異なった治療法が試みられてきた。Newington 装具¹⁶⁾、Atlanta (Scottish-Rite)装具¹⁷⁾、Bachelor (Toronto)装具やA-castギプス^{18)~20)}などの両側の外転位装具療法が行われた。しかし、これらの装具療法は長期間の入院を必要とするため、近年、歩行可能で外来通院や通学も可能なさまざまな種類の装具が作られてきた。Tachdjian 装具²¹⁾、西尾式装具²²⁾、改良型ポゴースティック²²⁾²³⁾装具、SPOC (Shiga pediatric orthopaedic centre)装具²⁵⁾などが今日日本で普及している。しかし、牽引療法や免荷療法、長期臥床などのnon-containment療法もまだ行なっている施設もあった。手術療法では、大腿骨内反骨切り術、Salter 骨盤骨切り術、triple 骨盤骨切り術、大腿骨外反骨切り術、骨頭回転骨切り術、Chiari 骨盤骨切り術、血管柄付骨移植術、大転子前進術などが行われていた。今回の調査期間中、632例中512例(82.1%)に保存的containment療法(HFW, HPW, HNW, BFW, BNW)が行われ、113例(17.9%)に手術的containment療法(SIO, FVO)が施行されていた。これらは欧米において手術療法が主流となる傾向があるが、日本では保存療法が主流であることが明らかとなった。

3) 片側ペルテス病の治療成績

1986年にCooperman²⁶⁾らは松葉杖による免荷療法、Atlanta 装具療法、Newington 装具療法、大腿骨内反骨切り術を行った計248例の治療成績

を報告した。Stulberg I 型, II 型は免荷療法群で 50%, Atlanta 装具療法群で 64%, Newington 装具療法群で 71%, 大腿骨内反骨切り術群で 70% と報告しており, いずれの群間にも有意差はなかったと報告した。また, 1995 年, Wang²⁷⁾らは Mose²⁶⁾法による治療成績評価で good, fair の占める割合を検討した結果, 免荷と運動療法を行った治療群は good または fair が 49%, Atlanta 装具療法群で 49%, Petrie cast 群では 62%, 大腿骨内反骨切り術群で 60%, Salter 骨盤骨切り術群で 60% であったが, いずれの治療群間にも有意差はなかったと報告した¹⁸⁾。さらに Grzegorzewski²⁹⁾らは 142 例の治療成績を報告した。Stulberg I 型, II 型の占める割合は長期臥床や下肢牽引療法群で 80%, Petrie cast 群で 71%, 外転装具療法で 74%, 大腿骨内反骨切り術群で 73% であり, いずれの群間にも有意差はなかったと報告している。これらの報告からはいずれも有効な治療法はなかったと結論づけていた。しかし, これらの報告を含め近年多くの予後因子について検討が加えられてきた³⁰⁾が, いずれも Stulberg 分類による治療成績評価と Herring の lateral pillar 分類や発症時年齢とは有意な相関があると報告していた。この MCS では治療方法の比較にあたって, 年齢の影響を除外するため, 8 歳未満と 8 歳以上の診断時年齢に分け, 若年群と年長群として 7 種の治療法を統計学的に比較検討した。診断時年齢が 8 歳未満の若年群では Stulberg I 型と II 型が SIO 群で 89%, FVO 群で 58%, HNW 群で 78%, HPW 群で 55%, BNW 群で 73%, BFW 群で 48% であった(表 7)。診断時年齢が 8 歳以上の年長群では Stulberg I 型と II 型の症例が SIO 群で 33%, FVO 群で 71%, HNW 群で 36%, HPW 群で 0%, BNW 群で 59%, BFW 群で 50% であった(表 8)。若年群では SIO 群, HNW 群, BNW 群が, 年長群では FVO 群の治療成績がよかったが症例数が少なく, 多群間の比較としては統計学的有意差については検討できなかった(Kruskal-Wallis H test)(表 7, 8)。手術療法に関して FVO 群は年長群に

において良好な成績であったが, SIO 群では若年群で良好な治療成績であった。SIO は年長児よりも若年児に施行するとより良好な骨頭被覆が行えたためではないかと推測した。

4) 片側ペルテス病の多変量解析による

オッズ比

多因子がペルテス病の予後と関係するため, 多変量解析として ordinal logistic regression analysis を施行した。その結果, 予後と高い関連を持つ因子として, Herring 分類, 診断時年齢, 罹患側であることが判明した(表 9)。罹患が左側であれば予後が良好との報告はないが, 効き足との関係が治療成績に影響したと考えられる。また, ordinal logistic regression analysis で手術療法(SIO, FVO)と保存療法(BFW, BNW, HFW, HPW, HNW)を比較した結果, 手術療法は有意に良好な治療成績であり, オッズ比は 1.87 ($p=0.034$)であった。しかし, 保存療法の各種治療群間には有意差を認めなかった(表 10)。また, SIO 群と FVO 群の比較でも有意な差を認めなかった(表 11)。細分化した保存療法群や手術療法群の症例数が少なく, 統計学的検討にはもう少し多くの症例が必要であったと考えられる。日本ではペルテス病に対する多くのさまざまな治療法が行われているが, 今回の調査では最適な治療法を明らかにすることはできなかった。しかし, 日本の治療成績は全体として海外の報告と比較しても決して劣るものではなかった。

5) 今回の調査の限界

今回の MCS の問題点は, 診断時の骨年齢など単純 X 線像の画像評価が得られなかったこと, 治療成績と関連する治療開始遅延の情報が不十分であったことである。また, Stulberg 分類時に骨格成熟にいたった症例が約 1/3 と少なかったため, 治療成績が数年後には変化した可能性がある。

謝 辞

日本小児整形外科学会 MCS 委員会にご協力くださった 95 施設, また統計学的処理にご協力くださった今枝敏彦先生に深謝いたします。

文 献

- 1) Catterall A : The natural history of Perthes' disease. *J Bone Joint Surg Br* 53 : 37-53, 1971.
- 2) Herring JA, Neustadt JB, Williams JJ, Early JS, Browne RH : The lateral pillar classification of Legg-Calvé-Perthes disease. *J Pediatr Orthop* 12 : 143-150, 1992.
- 3) Stulberg SD, Cooperman DR, Wallensten R : The natural history of Legg-Calvé-Perthes disease. *J Bone Joint Surg Am* 63 : 1095-1108, 1981.
- 4) Molloy MK, MacMahon B : Incidence of Legg-Perthes disease (osteochondritis deformans). *N Engl J Med* 275 : 988-990, 1966.
- 5) Gray IM, Lowry RB, Renwick DH : Incidence and genetics of Legg-Perthes disease (osteochondritis deformans) in British Columbia : evidence of polygenic determination). *J Med Genet* 9 : 197-202, 1972.
- 6) Hall AJ, Barker DJ, Dangerfield PH, Taylor JF : Perthes' disease of the hip in Liverpool. *Br Med J* 287 : 1757-1759, 1983.
- 7) Moberg A, Rehnberg L : Incidence of Perthes' disease in Uppsala, Sweden. *Acta Orthop Scand* 63 : 157-158, 1992.
- 8) Wynne-Davies R, Gormley J : The Aetiology of Perthes' disease. —Genetic, epidemiological and growth factors in Edinburgh and Glasgow patients—. *J Bone Joint Surg Br* 60 : 6-13, 1978.
- 9) Herring JA, Kim HT, Browne R : Legg-Calvé-Perthes disease, Part I : Classification of radiographs with use of the modified lateral pillar and Stulberg classifications. *J Bone Joint Surg Am* 86 : 2103-2118, 2004.
- 10) Lappin K, Kealey D, Cosgrove A : Herring classification : how useful is the initial radiograph? *J Pediatr Orthop* 22 : 479-482, 2002.
- 11) Danforth M : The treatment of Legg-Calvé-Perthes disease. *J Bone Joint Surg* 16 : 516-534, 1934.
- 12) Sundt H : Further investigation respecting mature coxae—Calvé-Legg-Perthes disease with special regard to prognosis and treatment. *Acta Chir Scand Suppl* 148 : 1-101, 1949.
- 13) Evans DL, Lloyd-Roberts GC : Treatment in Legg-Calvé-Perthes' disease. A comparison of in-patient and out-patient methods. *J Bone Joint Surg Br* 40 : 182-189, 1958.
- 14) Snyder CH : A sling for use in Legg-Perthes disease. *J Bone Joint Surg* 29 : 524-526, 1947.
- 15) Harrison MHM : Legg-Calvé-Perthes disease. The value of roentgenographic measurement in clinical practice with special reference to the Broomstick plaster method. *J Bone Joint Surg Am* 48 : 1301-1318, 1966.
- 16) Martinez AG, Weinstein SL, Dietz FR : The weight-bearing abduction brace for the treatment of Legg-Perthes disease. *J Bone Joint Surg Am* 74 : 12-21, 1992.
- 17) Meehan PL, Angel D, Nelson JM : The Scottish Rite abduction orthosis for the treatment of Legg-Perthes disease. A radiographic analysis. *J Bone Joint Surg Am* 74 : 2-12, 1992.
- 18) Petrie JG, Bitenc I : The abduction weight-bearing treatment in Legg-Calvé-Perthes' disease. *J Bone Joint Surg Br* 53 : 54-62, 1971.
- 19) 田村 清, 井上紀彦, 石岡 勉, 大寺和満, 清水和也, 藤原敏夫, 山田明彦, 藤森洋一 : ペルテス病の治療—modified A-cast 法—. *関節外科* 4 : 257-263, 1985.
- 20) 田村 清, 二見 徹, 小林雅彦, 秋山治彦 : A-cast 変法の長期成績とその限界. *日小整会誌* 3 : 157-162, 1993.
- 21) Tachdjian MO, Jouett LD : Trilateral socket hip abduction orthosis for the treatment of Legg-Perthes' disease. *Orthosis and Prosthetics* 22 : 49-62, 1968.
- 22) 窪田秀明, 野口康夫, 中島康晴, 末永英慈, 岩本幸英 : ペルテス病に対する西尾式装具治療の成績. *日小整会誌* 9 : 15-18, 2000.
- 23) 金 郁結, 久保俊一, 平澤泰介, 日下部虎夫 : ペルテス病における Tachdjian 装具と pogo-stick 改良型の比較. *日小整会誌* 4 : 275-279, 1995.
- 24) 金 郁結, 細川元男, 土田雄一, 河本清榮, 久保俊一, 平澤泰介, 日下部虎夫, 張 京 : ペルテス病における外転免荷装具(NPS 装具)の治

- 療成績とその限界, 日小整会誌 9 : 85-88, 2000.
- 25) 笠原吉孝, 瀬戸洋一, 大浦好一郎 : ペルテス病の SPOC 装具療法と骨頭修復. 関節外科 5 : 93-104, 1986.
- 26) Cooperman DR, Stulberg SD : Ambulatory containment treatment in Perthes' disease. Clin Orthop 203 : 289-300, 1986.
- 27) Wang L, Bowen JR, Puniak MA, Guille JT, Glutting J : An evaluation of various methods of treatment of Legg-Calvé-Perthes disease. Clin Orthop 314 : 225-233, 1995.
- 28) Mose K : Methods of measuring in Legg-Calvé-Perthes disease with special regard to the prognosis. Clin Orthop 150 : 103-109, 1980.
- 29) Grzegorzewski A, Bowen JR, Guille JT, Glutting J : Treatment of the collapsed femoral head by containment in Legg-Calvé-Perthes disease. J Pediatr Orthop 23 : 15-19, 2003.
- 30) Herring JA, Kim HT, Browne R : Legg-Calvé-Perthes disease, Part II : Prospective multi-center study of the effect of treatment on outcome. J Bone Joint Surg Am 86 : 2121-2134, 2004.

Abstract

MCS for Perthes Disease in Japan

Wook-Cheol Kim, M. D., et al.

The Multi-center Study Committee of Japanese Paediatric Orthopaedic Association

【Background】 The Japanese Pediatric Orthopaedic Association created a project team in 2000, to research pediatric orthopaedic disease through a multi-center study. The aim of this study is to collect epidemiological data of Legg-Calvé-Perthes disease (LCPD) in Japan.

【Materials】 The following data were collected by a survey : Birthday, gender, date of diagnosis, family history, sports history, affected sites, symptoms, location of pain, Catterall classification, Herring classification, date of initiation of treatment, treatment methods, bracing period, and Stulberg classification.

【Results】 The total number of patients was 711 with 766 affected hips from Jan. 1, 1993 to Dec. 31, 1995. The average incidence of LCPD was 0.9/100000 a year. The average age at diagnosis was seven years and one month (2.3 to 14.3 yrs.). The male to female ratio was 6.3 to 1 in the study population. The affected side ratio of the right hip to left hip to both hips was 5.1 to 6.8 to 1. Both hips were affected in 7.7% of this series. In Stulberg classification, type I and II was 211 (69.4%) of 304 patients. Six treatment methods for unilateral LCPD were compared. There was no significant difference in outcome among the six treatment groups. The ordinal logistic regression analysis showed that Herring classification, age at the diagnosis of disease and the affected side in unilateral LCPD was significant predictor. The ordinal logistic regression analysis also showed that the operative treatment had a better outcome than conservative treatment with an odds ratio of 1.872.

【Conclusion】 Many different containment methods for LCPD have been performed in Japan, and the optimal treatment method for LCPD could not be revealed in this study. The overall outcome, however, was not worse than worldwide reports.