

小児下肢変形の原因が下肢延長術の治療成績に及ぼす影響

京都府立医科大学大学院医学研究科運動器機能再生外科学(整形外科)

金 郁 喆・吉 田 隆 司・岡 佳 伸
山 田 尚 武・西 田 敦 士・久 保 俊 一

京都第二赤十字病院整形外科

日下部 虎 夫

要 旨 下肢アライメント異常を有する 15 歳以下の小児に対して創外固定器を用いて矯正した症例の治療成績とその原因疾患との関連性について検討した。20°以上の回旋・角状変形や 20 mm 以上の脚長補正を行った 25 例(男 13 例, 女 12 例)35 肢を対象とした。原因疾患は原因不明または先天的な下肢変形・成長障害(C 群)と外傷や感染症および腫瘍による後天的変形・成長障害(A 群)の 2 群に分けて、それぞれの骨癒合率, EFI, 追加手術回数, 合併症を比較検討した。結果, 骨癒合率は C 群で 86%, A 群で 100%であった。EFI は C 群で 54.5 ± 15.4 日/cm, A 群で 39.5 ± 7.9 日/cm と有意差を認めた。合併症として感染/骨折/変形を C 群ではそれぞれ 6/2/1 例, A 群では 7/1/1 例に認め、ピン刺入部感染の合併症が多かった。先天的な原因不明の変形や成長障害では仮骨成熟の遅延を念頭におくことが必要である。

はじめに

小児下肢変形矯正や脚延長ではその変形の原因疾患によって治療成績や合併症が異なる。今回小児の下肢変形や成長障害に仮骨延長法を行い、その原因疾患が治療成績や合併症に及ぼす影響について検討した。

対象および方法

対象は 20°以上の変形矯正および 20 mm 以上の脚長補正を行った 25 例(男 13 例, 女 12 例)35 肢を対象とした。手術時平均年齢は 7.5 歳(1~15 歳)。大腿骨が 10 骨, 胫骨が 25 骨であった(両側同時手術 2 例)。緩徐矯正は 1 日 1°または 1 mm の矯正速度で行った。使用した創外固定器は単支

柱式 16 骨, リング式 19 骨であった。平均追跡期間は 6 年 1 か月であった。これら 25 症例を軟骨無形成症や先天性下腿偽関節症および原因不明で生下時から成長軟骨や骨膜の異常を原因とする群(以下, C 群: 9 例 14 骨)と外傷や感染および腫瘍などにより後天的に下肢の変形や成長障害をきたした群(以下, A 群: 16 例 21 骨)に分けた(表 1, 2)。これら両群について骨癒合率, EFI(external fixation index), 追加手術回数, 合併症について比較検討した。統計学的比較には Mann-Whitney U test を用い、危険率 5%未満を有意とした。

結 果

手術時年齢は C 群で若い傾向にあったが、変形量や矯正量ともに有意な差はなかった。A 群は

Key words : callotasis(仮骨延長法), external fixation index (EFI), correction deformity(変形矯正), limb lengthening (脚延長)

連絡先 : 〒 602-8566 京都市上京区河原町通広小路上の梶井町 465 京都府立医科大学整形外科 金 郁喆
電話(075)251-5549

受付日 : 平成 22 年 2 月 4 日

表 1. 原因疾患の内訳

C 群：先天的成長軟骨・骨膜障害	
疾患不明な下肢成長障害	3 例
先天性下腿偽関節症	2 例
腓骨列形成不全	1 例
Russel-Silver 症候群	1 例
軟骨無形成症	1 例
Blount 病	1 例
A 群：後天的成長軟骨・骨膜障害	
外傷・感染後	7 例
骨・軟部腫瘍	5 例
片側下肢肥大症(健側延長)	3 例
麻痺性疾患(二分脊椎)	1 例

表 2. C 群と A 群の内訳

	C 群 (9 例 14 骨)	A 群 (16 例 21 骨)
年齢(歳)	6.9±4	8.2±3.7
男/女	5/4	8/8
大腿/下腿(骨)	2/12	8/13
矯正・延長量(cm)	45.6±14.0	43.7±15.8
単支柱/リング	5/9	11/10

表 3. 治療成績・合併症の比較

	治療成績・合併症の比較	
	C 群(9 例 14 骨)	A 群(16 例 21 骨)
骨癒合率	86% (12/14)	100% (21/21)
EFI(day/cm)	54.5±15.4	39.5±7.9*
追加手術回数	4 回(CPT 2 例)	4 回(成長過程 2 例)
再手術(偽関節)	2 例	0 例
感染/骨折/変形	6/2/1	7/1/1
感染	6/14(42.9%)	7/21(33.3%)
内訳 骨折	2/14(14.3%)	1/21(4.8%)
変形	1/14(7.1%)	1/21(4.8%)

* : p<0.05 : Mann-Whitney U test

大腿骨での矯正が多かった。またリング式は C 群に多かった。

治療成績では骨癒合率は C 群で 86%, A 群で 100%であった。EFI は C 群で 54.5±15.4 日/cm, A 群で 39.5±7.9 日/cm と有意に C 群の EFI が長かった(p<0.05)。追加手術回数は C 群で 4 回、いずれも先天性下腿偽関節症の 2 例であった。A 群は 4 回で成長に応じて繰り返し延長を行った 2 症例であった。骨癒合が得られず偽関節となった症例は C 群で 2 例, A 群にはなかった。

合併症の感染、骨折、仮骨部の変形は C 群でそれぞれ 6 骨, 2 骨, 1 骨, A 群で 7 骨, 1 骨, 1 骨であった(表 3)。合併症の多くはピン刺入部感染で全体の 37%, 延長仮骨部や他部位での骨折は全体の 8.6%, 延長部の変形は 2.9%であった。合併症に関する 2 群の比較では C 群に多い傾向にあったが有意な差は認めなかった。

症 例

症例 1(C 群)：先天性下腿偽関節症の患児で、3 歳時に初回手術を行った。8 cm の脚延長を行い骨癒合が得られたが(図 1)、創外固定除去後 2 か月で同部の骨折を生じた。4 歳児に再度偽関節手術(Ilizarov 法)を施行した。延長仮骨部の骨癒合は良好であったが、偽関節の癒合のため約 9 か月間の長期の固定を必要とした(図 2)。

症例 2(A 群)：688 g の超低体重出生児で、栄養確保のためのカテーテルによる損傷で右大腿動脈閉塞をきたした。大腿骨遠位、脛骨近位、脛骨遠

位の骨端線は早期閉鎖していた。2 歳時に初回延長を施行、以後成長に応じて 3 回の追加手術を行った。下腿では延長部はほぼ同一部位で行ったが EFI の値に大きな変化はなく良好な仮骨形成を認めた(図 3)。

考 察

骨癒合率が C 群で 86%と不良であったのは先天性下腿偽関節症の影響であった。

EFI の値は原因疾患によって異なると報告されている。小児の下肢延長における EFI は種々の報告から約 35 日/cm 程度である。良性腫瘍であるオリエル病では Watanabe ら⁴⁾は腫瘍部延長で平均 39.7 日/cm, 腫瘍外延長では平均 30.8 日/cm と報告した。今回、Blount 病は原因不明な疾患であるが、脛骨内側の成長軟骨障害と考え C 群とした。EFI は C 群の下腿偽関節症例を除いてもその値は 51.6±15.1 日/cm であり、A 群の 39.5±7.9 日/cm より高値であったが統計学的有意差はなかった(p=0.22)。外傷後の脚延長・変形矯正では Sangkaew³⁾は平均 50 日/cm と報告したが、独自の創外固定器を使用しており、その固定性については問題があること、また外傷による変形矯正では理想的な骨切り部位に正常骨膜は

a|b

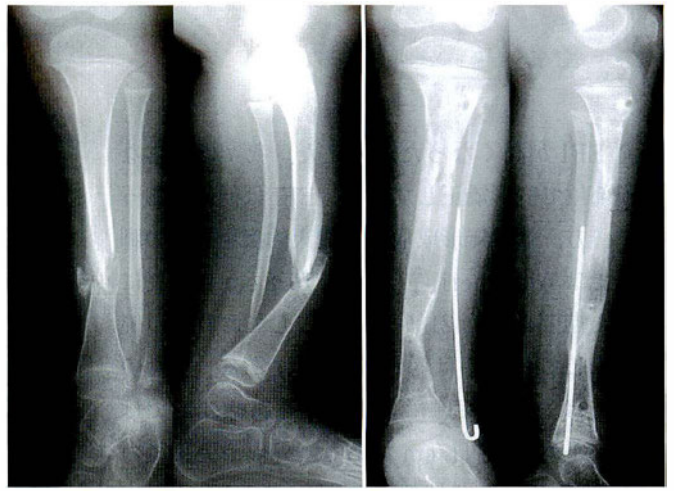


図 1.

症例 1：先天性下腿偽関節症例(C 群)

初回手術

a：1 回目手術前(3 歳 2 か月)

b：1 回目抜釘後(3 歳 9 か月)

脛骨：延長量 8.2 cm, EFI 21.5 day/cm

a|b|c

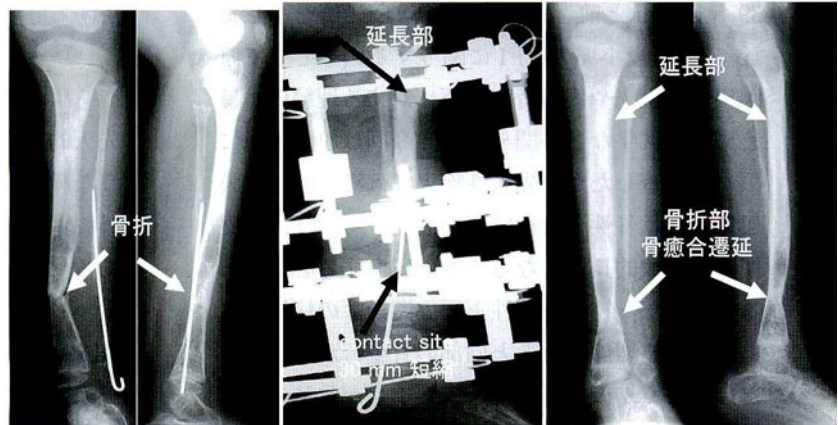


図 2.

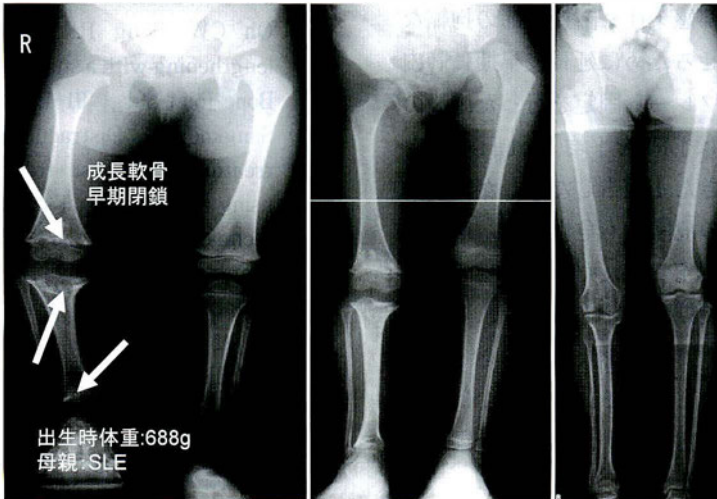
症例 1 の経過. 再度 Ilizarov 法を施行

a：骨折(3 歳 11 か月)

b：再手術(4 歳 1 か月)

c：最終調査時(6 歳)

脛骨：延長量 3.0 cm, EFI 78.7 day/cm



a|b|c

図 3. 症例 2：大腿動脈閉塞後の右下肢成長障害例(A 群)

成長に応じて計 4 回の手術を施行した。

a：初回術前 2 歳 6 か月, b：1 回目術後 4 歳 3 か月, c：最終調査時 12 歳 3 か月

1 回目延長術(2 歳 6 か月)脛骨：延長量 3.3 cm, EFI 48.2 day/cm

2 回目延長(4 歳 3 か月)脛骨：延長量 6.1 cm, EFI 40.5 day/cm

3 回目延長(8 歳 4 か月)脛骨：延長量 6.0 cm, EFI 39.8 day/cm

4 回目延長(9 歳 11 か月)大腿骨：延長量 7.0 cm, EFI 26.7 day/cm

なく EFI が高くなったと考えた。我々は正常な骨膜部位で変形矯正しており、EFI は低値であった。一方、軟骨無形成症など先天性疾患患児の脚延長では Aldegheri ら¹⁾が平均 10.8 cm の延長に要した期間が平均 21 か月と報告しており、単純に計算しても EFI は約 60 日/cm である。我々の結果では先天性疾患による成長障害や変形では EFI が平均 54.5 日/cm であり、外傷や感染後の後天的疾患および健側の延長では EFI は平均 39.5 日/cm と前者が有意に高い EFI 値を示した ($p < 0.05$)。小児の EFI に関与する因子として原因疾患、患児や親権者の治療に対する理解度、易感染性、就学などが関与する。今回は原因疾患に限って調査したが、先天性疾患では潜在的な骨膜異常や内軟骨性の骨化障害が潜在しており、治療期間が比較的長期になることに留意する必要があると考えた。特に先天性下腿偽関節症の症例では偽関節部を切除したあと同部の骨癒合が遅延するだけでなく、仮骨延長部の成熟不良が生じることもあり、創外固定期間が長期化しやすい。近年、脚延長ではピン刺入部感染症や隣接関節の拘縮などの合併症を減少させるために延長後早期に髄内釘固定やロッキングプレート固定を行った施設の報告が多い。Oh ら²⁾は EFI を平均 15.1 日/cm と従来の 1/3 に減少できたと報告した。しかし、手術回数の増加や感染の危険性も危惧され、内固定への早期移行には躊躇する。ただ、大腿骨の延長など創外固定期間が長期化すると予想される場合にはピン刺入部感染や関節拘縮が回避できる点で今後考慮すべき治療法と考える。合併症ではピン刺入部感染が高頻度を占めるが、我々の結果では

全体で 37% と比較的低い頻度であった。延長仮骨部の骨折や変形は全体では 8.6% で小児では比較的低い数値と考えたが、創外固定期間が短くなれば骨折の危険性も高まるため、創外固定除去の時期に関しては患児の性格や理解度を含めて個々の症例で総合的に判断すべきと考えている。今回、腓骨列形成不全症の患児で疲労骨折や延長中の変形をきたしたが、遺残した線維性の軟部組織の切離やピン刺入法、ピン数、延長量などを今後考慮する必要があると考えている。

結 語

先天的な成長軟骨の骨化障害や下腿偽関節症のような膜性骨化障害をもつ症例では比較的長期の創外固定期間を必要とすることを念頭に置くべきである。

参考文献

- 1) Aldegheri R, Dall'Oca C : Limb lengthening in short stature patients. *J Pediatr Orthop* 10 : 238-247, 2001.
- 2) Oh CW, Song HR, Kim JW et al : Limb lengthening with a submuscular locking plate. *J Bone Joint Surg* 91-B : 1394-1399, 2009.
- 3) Sangkaew C : Distraction osteogenesis for the treatment of post traumatic complications using a conventional external fixator. A novel technique. *Injury* 36 : 185-193, 2005.
- 4) Watanabe K, Tsuchiya H, Sakurakichi K et al : Treatment of lower limb deformities and limb-length discrepancies with the external fixator in Ollier' disease. *J Orthop Sci* 12 : 471-475, 2007.

Abstract

Outcomes from Callotasis and the Causes of Lower Limb Deformity in Children

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

Department of Orthopaedics, Graduate School of Medical Science,
Kyoto Prefectural University of Medicine

The objective of this study was to clarify the relationship between the outcomes from callotasis and the different causes of the limb deformity and growth disturbance, in children. Limb deformity was defined as more than 20 degrees, and growth disturbance as a length discrepancy of more than 20 mm, in the lower limbs. We investigated 35 cases (bones) involving 25 children treated using gradual correction by external fixators. The 35 bones were divided into two groups according to congenital (Group C) or acquired (Group A) deformity. Group C included congenital diseases and unknown causes, while Group A included acquired deformity and shortening caused by infection, trauma or tumor. The bony union rate was 86% in Group C, and 100% in Group A. EFI was 54.5 ± 15.4 day/cm in Group C, and 39.5 ± 7.9 days/cm in Group A, with a significant difference between the groups. Complications included pin-site infection, fracture, and callus deformity occurring 6, 2, and 1 times respectively in Group C, and 7, 1, and 1 times respectively in Group A. The most frequent complication was pin-site infection in both groups. There was a longer maturing time needed for distraction callus in Group C than in Group A.