

4歳未満で発症したペルテス病の治療成績

中村 順一¹⁾²⁾・亀ヶ谷 真琴³⁾・西須 孝¹⁾
赤木 龍一郎¹⁾²⁾・伊藤 錦哉¹⁾・小林 倫子¹⁾
瀬川 裕子¹⁾・村上 玲子¹⁾・若生 政憲¹⁾

1) 千葉県こども病院整形外科

2) 千葉大学大学院医学研究院整形外科

3) 千葉こどもとおとなの整形外科

要旨 【目的】 4歳未満で発症したペルテス病の治療成績を検討すること。

【対象・方法】 4歳未満で発症したペルテス病 30例 36股について、発症年齢、初診時病期、Lateral Pillar 分類、亀ヶ谷の予測式、治療法、最終成績、% sphericity を検討した。

【成績】 発症年齢は平均 3.3歳であった。初診時病期は滑膜炎期 24股、分節期 11股、修復期 1股であった。Lateral Pillar 分類は A 3股、B 6股、B/C border 5股、C 22股であった。治療法は運動制限のみ 18股、数週間の入院牽引 11股、A キャスト 3股、装具治療 8股、手術治療 5股であった。最終診察時年齢平均 13.0歳、経過観察期間平均 9.1年間の時点で修正 Stulberg 分類は I 3股、II 6股、III a 13股、III b 12股、IV 2股であった。亀ヶ谷の予測式で 1.5以下の 8股はすべて保存治療で最終成績は good (I 3股、II 5股)であった。% sphericity は平均 72.6%、AHI は平均 73.2%、ATD は平均 14.9mm であり、3者間に相関を認めた。

【結論】 年少児ペルテス病でも予後不良例は少なからず存在するため注意が必要である。

はじめに

低年齢で発症したペルテス病の予後は良好とされてきたが、4歳未満の予後についての報告は少ない。本研究の目的は4歳未満で発症したペルテス病の治療成績を明らかにすることである。

方法

1989～2007年までに千葉県こども病院を受診したペルテス病 332例のうち、4歳未満(48か月未満)で発症した症例は 30例(9%)であった。両側例は 11例あり、反対側が4歳以降に発症した 5

股を除いた 30例 36股を対象とした。

検討項目はペルテス病発症年齢、初診時病期、Lateral Pillar 分類、最終成績、亀ヶ谷の予測式、% sphericity とした。発症年齢はペルテス病と診断された時点での暦年齢とした。初診時病期は Waldenström 分類¹⁾を用い、滑膜炎期(硬化期)、分節期(壊死期)、修復期、遺残期に分類した。Lateral Pillar 分類¹⁾は分節期で最も Lateral Pillar が低くなった時点で評価した。最終成績については亀ヶ谷の修正 Stulberg 分類²⁾を用いた。原著の Stulberg 分類¹⁾との相違点は II 群のうち、Mose 法³⁾で 0mm の骨頭を真の II 群、1mm ないし 2

Key words : Legg-Calvé-Perthes disease (LCPD) (ペルテス病), less than 4 years old (4歳未満), outcome (治療成績), % sphericity (球形度)

連絡先 : 〒260-0856 千葉市中央区玄奘 1-8-1 千葉大学大学院医学研究院整形外科 中村順一 電話(043)226-2117
受付日 : 22年2月1日



図 1. % sphericity

正面像で骨頭荷重部に沿う同心円を描き、この円の半径(R:点線)と円の中心から head neck junction までの最短距離(J:矢線)の百分率(J/R×100)と定義する。

mm の骨頭をⅢa群と区別した点である。また原著の Stulberg Ⅲ群をⅢb群とした。評価はⅠ群とⅡ群を Good, Ⅲa群を Fair, Ⅲb群・Ⅳ群・Ⅴ群を Poor とした。亀ヶ谷の予測式⁵⁾とは発症年齢、壊死範囲、亜脱臼の3項目により予後予測を行うものであり([予測スコア] = -0.697 + 0.418 [発症年齢] + 0.860 [壊死範囲] + 0.248 [亜脱臼]), 予測スコアが1.5以下を Good, 2.6以上を poor, 中間を fair とした。% sphericity とは正面像で骨頭荷重部に沿う同心円を描き、この円の半径と円の中心から head neck junction までの最短距離の百分率と定義した(図1)。さらに Acetabular Head Index (AHI) と Articulo-Trochanteric Distance (ATD) を測定した。

統計解析について、Lateral Pillar 分類と最終成績の関係は Pearson の χ^2 検定を用いた。% sphericity と AHI, ATD の関係は Spearman の相関係数を用いた。統計ソフトは SPSS16.0 を用い、 $p < 0.05$ を有意とした。

結果

ペルテス病発症年齢は平均 3.3 歳 (2.0~3.9 歳) であった。初診時病期は滑膜炎期 24 股、分節期 11 股、修復期 1 股であった。Lateral Pillar 分類は A 群 3 股、B 群 6 股、B/C border 群 5 股、C 群 22 股であり、全体の 75% が B/C border 群または C 群であった。治療法は原則として骨端部

表 1. Lateral Pillar 分類と修正 Stulberg 分類の関係

	I / II 群	Ⅲ a 群	Ⅲ b 群	Ⅳ 群	合計(股)
A 群	3	0	0	0	3
B 群	4	1	1	0	6
B/C border 群	1	3	1	0	5
C 群	1	9	10	2	22
合計(股)	9	13	12	2	36

が修復されるまでは運動制限を指示した。運動制限の具体的な内容は保育園や幼稚園の登園を一定期間中止する、外遊びなどを禁止し活動性を下げることなどであり、疼痛や跛行の消失、可動域の改善などを判断の目安にした。運動制限のみで外来経過観察しえた症例は 18 股 (50%) であった。なんらかの追加治療を行った 18 股 (50%) の内訳 (重複含む) は、入院牽引治療 11 股、全身麻酔下の股関節造影¹⁰⁾ と最大外転位でのギプス治療 (A キヤスト) 3 股、装具治療 8 股、手術治療 5 股であった。入院牽引治療は、運動制限にもかかわらず外転可動域が 30° 未満となった場合に、数週間の安静絶荷と 2 kg 程度の介達牽引を指示した。装具治療の内容は Atlanta 装具 4 股、Thomas 装具 2 股、Atlanta 装具と Thomas 装具の併用 1 股、Tachdjian 装具 1 股であった。4 歳未満では装具の付け外しや装具歩行が難しい場合があるので、家族とよく相談して行った。可動域制限が強い場合は、まずは入院牽引等により可動域の改善をはかってから、装具治療を開始した。手術治療の内容は大腿骨内反骨切り術³⁾ 3 股、大腿骨内反骨切り術と Pemberton 骨盤骨切り術の合併手術 2 股であった。

最終成績については、最終診察時年齢平均 13.0 歳 (6.5~22.4 歳)、経過観察期間平均 9.1 年間 (2.8~18.2 年間) の時点で、修正 Stulberg 分類 I 群 3 股、II 群 6 股、Ⅲ a 群 13 股、Ⅲ b 群 12 股、Ⅳ 群 2 股、Ⅴ 群 0 股であり、good 9 股 (25%), fair 13 股 (36%), poor 14 股 (39%) であった。Lateral Pillar 分類と修正 Stulberg 分類の関係(表 1)は Lateral Pillar 分類 A 群は 3 股全例 good であったが、C 群では 22 股中 12 股 (55%) が poor であった。Lateral Pillar 分類の A 群と B 群、および B/

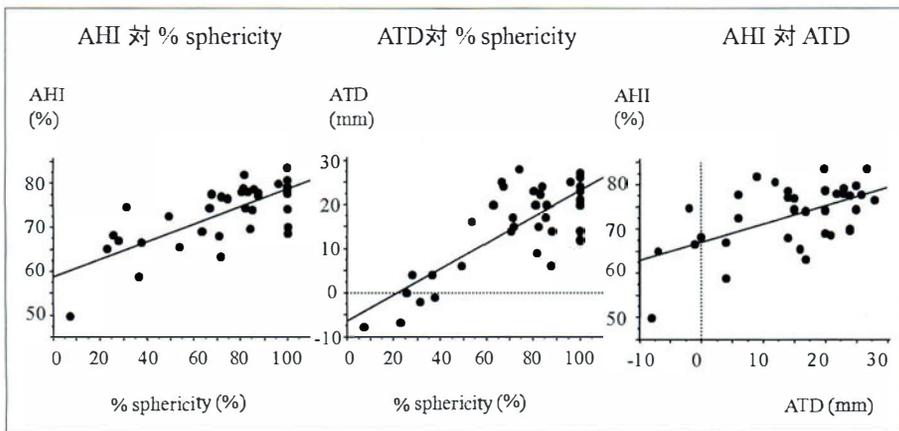


図 2. % sphericity, AHI, ATD の相関関係

3 者間に相関を認める. $AHI = 58.8 + 0.20 \times [\% \text{ sphericity}] ; R^2 = 0.53$, $ATD = -6.5 + 0.30 \times [\% \text{ sphericity}] ; R^2 = 0.63$, $AHI = 67.1 + 0.41 \times ATD ; R^2 = 0.32$, (それぞれ $p = 0.0001$).

C border 群と C 群をまとめると, 前者は good 7 股, fair 1 股, poor 1 股であり, 後者は good 2 股, fair 12 股, poor 13 股であった. Lateral Pillar 分類が重症であるほど, 予後不良であった ($p = 0.0001$).

亀ヶ谷の予測式について, 予測スコアは平均 2.064 (0.581 - 2.549) であり, good と予測されたものが 8 股, fair と予測されたものが 28 股であった. 予後良好と予測された 8 股は Lateral Pillar 分類 A 群 3 股, B 群 5 股であり, 全例保存治療を行い, 全例 good (修正 Stulberg 分類 I 群 3 股, II 群 5 股) であった.

手術症例は全例が Lateral Pillar 分類 C 群であり, 予測スコアも最重症 (2.549) であった. 発症年齢は 3.7 歳, 手術時年齢は 4.3 歳, 最終診察時年齢 10.9 歳の時点で, 修正 Stulberg 分類は III a 2 股, III b 3 股であった.

% sphericity は平均 72.6% (7.4~100%) であり, AHI は平均 73.2% (49.7~83.6%) であり, ATD は平均 14.9 mm (-8~28 mm) であった. 3 者間に相関を認め (図 2), 骨頭が球形であるほど白蓋被覆は良好で, 大転子高位も軽度であった.

症例供覧

症例 1 (図 3): 右ペルテス病, 3.9 歳発症, 男児. Lateral Pillar 分類 C 群, 亀ヶ谷の予測値は 2.549 であり, 予後不良と予測した. 1 か月間の入院牽

引治療後, 外来で 6 か月間 Atlanta 装具治療を行った. 21 歳時の修正 Stulberg 分類は IV 群で評価は poor であった.

症例 2 (図 4): 右ペルテス病, 3.9 歳発症, 男児. 初診時病期は滑膜炎期であり, まず運動制限のみ指示した. 7 か月後に分節期となり, Lateral Pillar 分類 C 群に分類した. 亜脱臼を伴っており, 亀ヶ谷の予測値は 2.549 であり, 予後不良と予測した. 2 週間の入院牽引治療の後, 全身麻酔下に関節造影を行ったところ, 最大外転位で内側関節裂隙が開大し, 骨頭が白蓋縁より外側を支点として外転しており, hinge abduction⁶⁾¹⁰⁾ を認めた.

考 察

4 歳未満に発症したペルテス病の報告数は少なく, 各報告における症例数も少ない. Kelly ら⁷⁾ は 12 股に吊下げ型の装具と松葉杖による免荷療法を行い, 全例 good であったと報告した. Ippolito ら⁴⁾ も 6 股に短期間の介達牽引後, 1~2 か月間 Hip spica cast を行い, さらに外転免荷ギプスを平均 23 か月装着したところ, 全例 good であったと述べている. このように一般に低年齢で発症したペルテス病の予後は良好とされるが, Catterall²⁾ は 35 股中 18 股に無治療, 17 股に外転免荷ギプス治療を行ったところ, good は 20 例 (57%) と必ずしも良好な結果ではなかったと報告している.

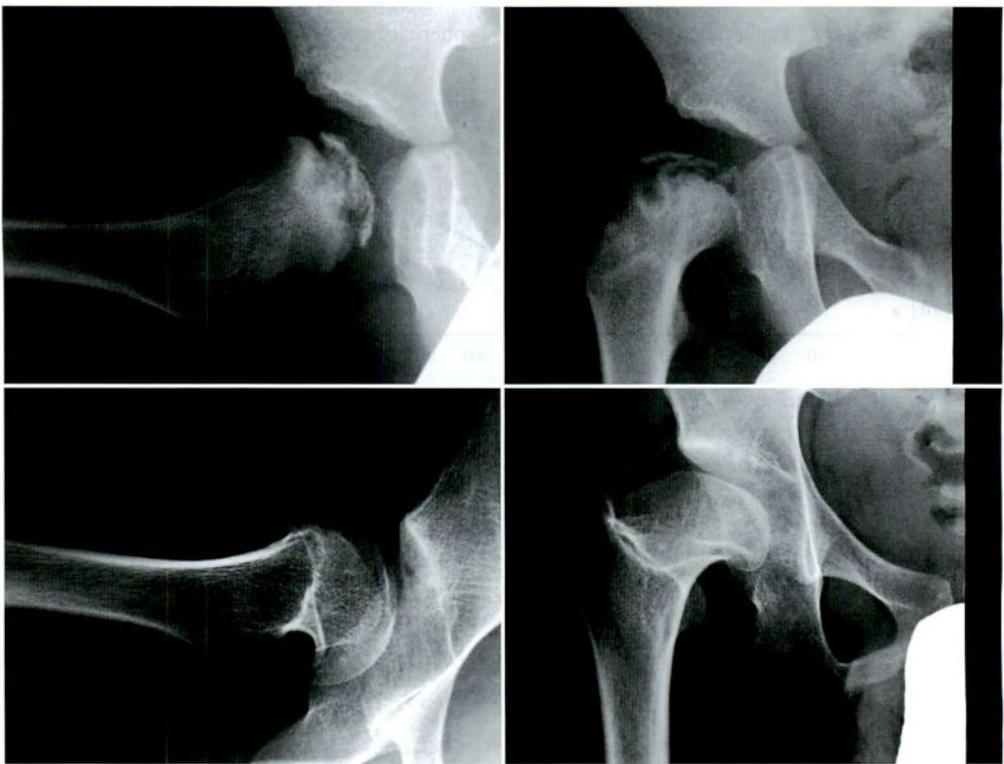


図 3. 症例 1 : 右ペルテス病
 3.9 歳時単純 X 線像 a : 右股関節側面像 b : 右股関節正面像
 21 歳時単純 X 線像 c : 右股関節側面像 d : 右股関節正面像

$\frac{a}{c} \mid \frac{b}{d}$



図 4. 症例 2 : 右ペルテス病, 4.5 歳時(発症から 7 か月後)単純 X 線像
 a : 右股関節側面像 b : 右股関節正面像
 c : 右股関節造影正面像最大外転位 d : 中間位

$\frac{a}{c} \mid \frac{b}{d}$

近年、3施設から相次いで6歳未満のペルテス病のまとまった報告がなされた。RosenfeldとHerringら¹²⁾は188股中114股(66%)に無治療、44股(31%)は何らかの装具もしくはギプス治療を行ったところ、81%がgoodであったと報告した。GentとClarkeら³⁾は69股に無治療またはAtlanta装具治療を行い、65%がgoodであったと報告した。CanaveseとDimeglioら¹⁾は166股中64%に介達牽引・車椅子での完全免荷・外転免荷装具による保存治療と36%にSalter骨盤骨切り術による手術治療を行い、77%がGoodであったと報告した。いずれの報告も発症年齢が6歳未満であっても、成績不良例が存在することを示していた。

年少児ペルテス病の予後因子について、RosenfeldとHerringら¹²⁾は4歳未満でLateral Pillar分類A群とB群は99%が良好、B/C border群とC群は84%が良好としている。また4歳以上6歳未満でLateral Pillar分類A群とB群は93%が良好、B/C border群とC群は43%が良好としており、年齢が上がるほど、Lateral Pillar分類が進行するほど予後不良と予測される。CanaveseとDimeglioら¹⁾も壊死範囲が広いほど予後不良と述べている。本研究では全体の75%がB/C border群またはC群であり、壊死範囲の広い重症例が多かった。我々は亜脱臼の有無も予後予測に重要と考えている。また、年少児では無治療群と装具治療群で成績に差がなく²⁾¹²⁾、保存治療群と手術治療群でも成績に差がない¹⁾と報告されている。本研究では骨成熟前の症例が含まれていることや各治療群の症例数が少ないことから、治療と成績の関係は明らかにできなかった。

発症年齢の定義についてはペルテス病と診断された時点の年齢とする報告²⁾⁴⁾⁷⁾¹²⁾が多く、我々もこれに従った。4歳未満のペルテス病では骨端核の骨化障害であるMayer病(dysplasia epiphysealis capitis femoris)と鑑別を要する⁸⁾。

球形度の指標として本研究で提唱した、%sphericityはAHIやATDとも相関があり、骨頭

形態の指標の1つになりうると思われた。

結 語

年少児ペルテス病は予後良好とされてきたが、成績不良例も少なからず存在するため注意が必要である。

文 献

- 1) Canavese F, Dimeglio A : Perthes'disease : prognosis in children under six years of age. J Bone Joint Surg **90-B** : 940-945. 2008.
- 2) Catterall A : The natural history of Perthes'disease. J Bone Joint Surg **53-B** : 37-53, 1971.
- 3) Gent E, Antapur P, Clarke NM, et al : Predicting the outcome of Legg-Calvé-Perthes'disease in children under 6 years old. J Child Orthop **1** : 27-32, 2007.
- 4) Ippolito E, Tudisco C, Farsetti P : The long-term prognosis of unilateral Perthes'disease. J Bone Joint Surg **69-B** : 243-50, 1987.
- 5) Kamegaya M, Saisu T, Miura Y, et al : A proposed prognostic formula for Perthes'disease. Clin Orthop Relat Res **440** : 205-208, 2005.
- 6) Kamegaya M, Saisu T, Nakamura J, et al : Arthrographic indicators for decision making about femoral varus osteotomy in Legg-Calvé-Perthes disease. J Child Orthop **2** : 261-267, 2008.
- 7) Kelly FB Jr, Canale ST, Jones RR : Legg-Calvé-Perthes disease. Long-term evaluation of non-containment treatment. J Bone Joint Surg **62-A** : 400-407, 1980.
- 8) Meyer J : Dysplasia Epiphysealis Capitis Femoris : a clinical-radiological syndrome and its relationship to Legg-Calvé-Perthes disease. Acta Orthop Scand **34** : 183-197, 1964.
- 9) Mose K : Legg-Calvé-Perthes disease. A comparison between three methods of conservative treatment. Århus Universitetsforlaget, 69-74, 1964.
- 10) Nakamura J, Kamegaya M, Saisu T, et al : Hip arthrography under general anesthesia to refine the definition of hinge abduction in

Legg-Calvé-Perthes disease. J Pediatr Orthop
28 : 614-618, 2008.

- 11) 中村順一, 亀ヶ谷真琴, 原田義忠ほか : 下肢荷
重関節の最新画像診断—Perthes 病における画
像診断—. 関節外科 27 : 715-722, 2008.

- 12) Rosenfeld SB, Herring JA, Chao JC : Legg-
calve-perthes disease : a review of cases with
onset before six years of age. J Bone Joint Surg
89-A : 2712-2722, 2007.

Abstract

Legg-Calvé-Perthes Disease with Onset in Infants Younger than 4 Years Old : Long-Term Outcome from Treatment

Junichi Nakamura, M. D., et al.

Division of Orthopaedic Surgery, Chiba Children's Hospital

We report the long-term outcomes from treating Legg-Calvé-Perthes disease in infants younger than 4 years old at onset. We have treated 36 hips involving 30 patients with a mean age at onset of 3.3 years. The pretreatment classification of these 36 hips according to Waldenström was initial stage in 24 hips, fragmentation stage in 11 hips, and healing stage in the other one hip. The lateral pillar classification was Group A in 3 hips, Group B in 6 hips, Group B/C in 5 hips, and Group C in the other 22 hips. Treatment consisted of restriction of activities in 18 hips, a few weeks of traction in hospital in 11 hips, an A-cast in 3 hips, brace in 8 hips, and surgery in the other 5 hips. The outcome was assessed according to modified Stulberg's classification as Class I in 3 hips, Class II in 6 hips, Class III a in 13 hips, Class III b in 12 hips, and Class IV in 2 hips, at most recent follow-up at mean age of 13.0 years. The prognostic formula of Kamegaya predicted 8 hips would be good, and these 8 hips were good. We found good correlation in % sphericity (mean 72.6%), AHI (mean 73.2%) and ATD (mean 14.9 mm). Overall we found poor results in these with onset at younger than 4 years old.