

脚延長中に苦慮の多かった軟骨無形成症の一例

愛知県心身障害者コロニー中央病院整形外科

伊藤 弘紀・古橋 範雄・門野 泉

中部大学生命健康科学部

沖 高司

要旨 延べ10肢の脚延長を行い、延長中に数々のトラブルを生じ、治療に苦慮した軟骨無形成症患者を経験した。症例は21歳の男性で、9歳時に脚延長を目的に当院を紹介された。初診時の身長は93.4cmであった。11歳時に両下腿延長(延長量11cm)を実施した。external fixation index(以下、EFI)は、26日/cmであった。12歳時に両大腿延長(10cm)を行うが、dynamization中に骨折を生じてEFIは48日/cmと遅延し、さらに抜釘5日後に再度骨折を生じてギプス固定を要した。13歳時には上腕延長も実施した。19歳時に2度目の下肢延長を希望したため、両大腿および下腿の延長(各3cm)を行ったが、EFIは右下腿が77日/cm、両大腿が107日/cmと骨形成は著明に遅延した。左下腿は仮骨形成がなく、骨移植とlocking plateによる内固定を行った。1年後に抜釘した後、歩行中に骨折を生じたため再度plate固定を行った。最終身長は160cmまで獲得できた。

はじめに

創外固定器の普及により仮骨延長法による脚延長術は、広く行われるようになってきているが、計画通りに治療が進まないことも少なくない。当院にて延べ10回の骨延長を行い、延長中に多くのトラブルを生じて治療に苦慮の多かった、軟骨無形成症患者について報告する。

症例

症例は軟骨無形成症の21歳、男性である。他の医療機関にて3歳時より6年間の成長ホルモン療法を受けた後、9歳時に脚延長術の施行を目的に、当院を紹介され受診した。初診時の身長は112.6cm(-3.4SD)、体重27.8kgであった。

まず下腿より延長することとし、11歳0か月時

(1999年)に(図1)Ilizarov創外固定器を用いて、内反膝の矯正と同時に下腿延長を実施した。術後7~10日の待機期間の後、原則として1日1mmの延長とし、実際には1日2~3回に分けて創外固定器の延長操作を行っている。最終延長量は11cmであった。延長率が60%を超えていたが、external fixation index(以下、EFI)は25.7日/cmと良好であった。延長により尖足変形を生じたが、創外固定除去後に徐々に改善した。

12歳11か月時、今度はOrthofix創外固定器を用いて両大腿骨の延長を実施した。延長量は10cm、延長率40%であった。骨形成がやや遅れ、EFIは右44.5、左47.6日/cmであった。左大腿はdynamization中に骨折を生じたため右より抜釘が遅れた。

13歳2か月時に、大腿延長部位の抜釘と前後し

Key words : limb lengthening(脚延長), achondroplasia(軟骨無形成症), case report(症例報告)

連絡先 : 〒480-0392 愛知県春日井市神屋町713-8 愛知県心身障害者コロニー中央病院整形外科 伊藤弘紀

電話(0568)88-0811

受付日 : 平成22年3月31日



◀ 図 1.
11 歳時, 延長前



図 2. ▶
2 回目の大腿延長
術後 8 か月時

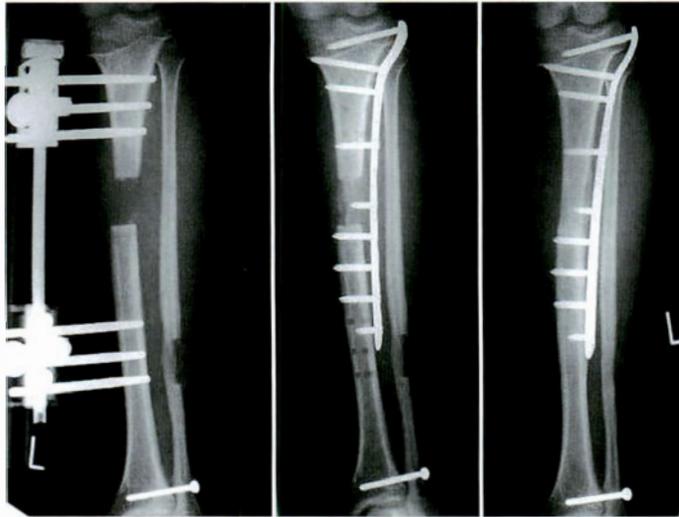


図 3.
左下腿
右: 2 回目の延長術後 6 か月
中央: 骨移植術直後
左: 骨移植術後 1 年

て上腕の延長を行った。延長量は 6.0 cm, EFI は 32.7 EI/cm であった。上腕の延長は, 排泄時に臀部に手が届かないことによる ADL の制限を改善することを目的に実施したが, 延長後は ADL だけでなく, プロポーションの改善も著明であった。

19 歳 2 か月時に, 下肢に対し 2 回目の延長を実施した。治療期間をできるだけ短縮する目的で, 大腿, 下腿のそれぞれを延長することとし, 同時に 4 骨の手術を行った。右下腿は, 内反変形の矯正も行うことを計画したため Ilizarov 創外固定器を利用し, これ以外は Dynafix 創外固定器を使用した。今回の延長量は各々 3 cm のみであったが, 下腿, 大腿ともに骨形成が不良であった。特に大腿骨では抜釘までに 10 か月以上を要した(図

2)。EFI は右下腿が 63.0, 両大腿は 107.3 日/cm であった。右大腿骨は抜釘より約 2 か月後に友人に踏まれた際に骨折を生じ, 保存的に加療した。左下腿は, 術後 6 か月の時点で仮骨形成が認められなかったため, 19 歳 8 か月時に骨移植を併用して locking plate による内固定を行った。その後, 左下腿の骨形成は良好であり 20 歳 10 か月時に抜釘を行った(図 3)。しかし半月後, 杖歩行中に突然骨折を生じてしまい, 再度 locking plate による内固定を行った。

21 歳の現在, 身長は 160 cm であり, 下肢アライメントも良好である。股関節外転(右 30°/左 30°)と, 足関節背屈(右 10°/左 20°)に軽度の可動域制限を認める他は, 上肢, 下肢の関節可動域や機能に問題はなく, 患者の満足度は高い。左下腿

の骨癒合も完成しており、抜釘が可能な状態である(図4)。

考 察

脚延長による合併症は、ピン刺入部の感染に関するものが最多である。この他の比較的頻度の高い合併症としては、神経麻痺、関節拘縮、早期癒合、ピンの破損、高血圧などがある。また Antociら¹⁾は骨折や遷延癒合に関し、その発生率は10%未満であったと報告している。

今回の症例で特に問題となったのは2回目の延長での遷延癒合である。各3cmの延長にもかかわらず、EFIは大腿骨で107日/cm、右下腿が77日/cmと著明に遷延し、左下腿では仮骨形成が著しく乏しかった。再延長による影響に関して Glorionら²⁾は初回延長と2回目の延長での healing index を比較して、これらの2者で有意差はなかったとし、Griffithら³⁾も初回の延長と2度目の延長を行った群との比較で合併症の発生率は高くならなかったと報告している。自験例については、患者側の要因として初回に比べ年齢が高くなっていったこと、手術手技に関して骨切り部位が骨幹中央に近くなっていたこと、4骨の同時手術を行ったことによる血流への影響などを遷延癒合の原因として推察するが、明確な結論は得られていない。

結 語

延べ10回の骨延長を施行した軟骨無形成症の症例を報告した。遷延癒合や、抜釘後の骨折など



図 4.
最終観察時
下肢全長(立位)

トラブルが多かったが、最終観察時は160cmの身長を獲得できており、関節機能も良好で、プロポーションとともに患者の満足が得られている。

文 献

- 1) Antoci V. Ono CM. Antoci V Jr et al : Bone lengthening in children : How to predict the complications rate and complexity? J Pediatr Orthop 26 : 634-640. 2006.
- 2) Glorion C. Pouliquen JC. Langlais J et al : Femoral lengthening using the callotasis method : study of the complications in a series of 70 cases in children and adolescents. J Pediatr Orthop 16 : 161-167. 1996.
- 3) Griffith SI. McCarthy JJ. Davidson RS : Comparison of the complication rate between first and second(repeated)lengthening in the same limb segment. J Pediatr Orthop 26 : 534-536. 2006.

Abstract

Limb Lengthening in Achondroplasia : A Case Report

Hironori Ito, M. D., et al.

Department of Orthopaedic Surgery, Central Hospital, Aichi Prefectural Colony

We report a case with difficulties of limb lengthening in achondroplasia.

The case is of a 9-year-old boy with a height of 93.4 cm who received ten sessions of lower limb lengthening over the following 12 years. At 11 years old, he received lengthening and correction of the genu varum in both tibia using an Ilizarov fixator. At a rate of 26 days/cm he achieved lengthening of 11 cm. At 12 years old, he received bilateral lengthening of the femur using an Orthofix fixator, and achieved lengthening 10 cm. In the dynamization period, a fracture occurred in the left femur. The EFI was 48 days/cm. After removal of the screws, a further re-fracture occurred. At 13 years old, he received lengthening of the humerus. At 19 years old, he received bilateral lengthening of the femur and tibia, and achieved lengthening of 3 cm. There was some delay in callus formation, and the EFI was 63 days/cm in the right tibia, and 107 days/cm in the femur. There was no callus formation in the left tibia, so we performed internal fixation using a locking plate with bone graft. At one year later, the plate was removed, but a further re-fracturing occurred and we performed a repeat plate fixation. At 21-year-old, he withdrew from further limb lengthening, at an overall height of 160 cm.