

多発性軟骨性外骨腫症による前腕変形の再建について

国立病院機構埼玉病院整形外科

森澤 妥

国立成育医療研究センター外科系専門診療部整形外科

高山 真一郎・関 敦 仁・日下部 浩・細見 僚

要旨 【目的】多発性軟骨性外骨腫に対する外骨腫切除・尺骨延長症例の治療成績を検討した。
【対象・方法】11例13肢について検討した。男性8例，女性3例，手術時年齢は3~14歳(平均8.3歳)，術後経過観察期間は8~49か月(平均26か月)であった。検討項目は，単純X線像を用いて，(1)% radial bowing(% RB)，(2)radial articular angle(RAA)，(3)carpal slip(CS)を計測し，術前と最終診察時の変化を検討した。
【結果】% RBは術前8.9から最終診察時7.2，RAAは術前37.3から最終診察時28.4，CSは術前61.5から最終診察時46.7とすべてのX線像の指標で有意に改善を認めた。
【結論】尺骨延長は橈骨の変形も改善する有効な手術である。

序 文

多発性軟骨性外骨腫症では30~60%に前腕の変形を伴う¹⁾が，その治療方針については一定の見解が得られていない。筆者らは，外骨腫による尺骨短縮・手関節尺屈変形例に対して，外骨腫切除に加え尺骨延長を積極的に行っている。今回これらの症例の術前術後のX線像の評価を行い，多発性軟骨性外骨腫症に対する尺骨延長の意義を検討した。

対象・方法

2003年以降に尺骨の延長を行った多発性軟骨性外骨腫症は11例13肢，男性8例，女性3例，手術時年齢は3~14歳(平均8.3歳)，術後経過観察期間は8~49か月(平均26か月)であった。今回，Ishikawa分類²⁾(外骨腫の局在による分類，グ

ループIは尺骨遠位部のみ，IIは尺骨遠位部と橈骨に外骨腫が存在するもの)(図1)を参考にして検討した。なお，今回の症例の中に橈骨頭脱臼の症例は含まれていない。手術は尺骨遠位部の外骨腫を骨端軟骨を損傷しない範囲で切除し，尺骨遠位2/3から3/5程度の部位で骨切りを施行，創外固定器を用いた仮骨延長を施行した。橈骨については，グループ2の症例で外骨腫を切除したが，矯正骨切りを施行した症例はなかった。なお，使用した創外固定器は全例Orthofix M103であった。本手術は15mm以上の尺骨短縮例および外骨腫による著しい変形を伴っている尺骨マイナス変異症例を適応とし，術後の橈尺骨の成長の差を考慮して0~5mmの尺骨プラス変異を目標に延長を行った。

検討項目は，単純X線像を用いて，(1)% radial bowing(% RB)，(2)radial articular angle

Key words : multiple osteocartilaginous exostosis(多発性軟骨性外骨腫)，forearm deformity(前腕変形)，bone lengthening(骨延長)，external fixation(創外固定)

連絡先：〒351-0102 埼玉県和光市諏訪2-1 国立病院機構埼玉病院整形外科 森澤 妥 電話(048)462-1101
受付日：平成22年7月15日



Group 1
尺骨遠位部のみ



Group 2
尺骨遠位部と橈骨の遠位尺側
(Ishikawa J. et al, JBJS (Am) 2007)



RL (Radial length)
RB (Radial bowing) %RB=RB/RL × 100
RAA (Radial articular angle) US (Ulnar shortening)



(Ishikawa J. et al. JBJS (Am) 2007より)

図 1. 外骨腫の局在による分類¹⁾

図 2. X線像の指標 (Radial length, Radial bowing, Radial articular angle, Ulna shortening, Carpal slip)

表 1. 各症例の創外固定症着期間, 延長量, Healing index (HI)

症例	年齢	性別	Ishikawa 分類	創外固定装着期間(日)	延長量(mm)	HI(日/cm)
1	5	男	1	111	18.55	59.8
2	14	男	1	124	25.26	49
3	10	男	1	90	14.67	61.3
4	3	女	1	97	18.15	53.4
5	6	女	1	161	22.37	72
6	8	男	1	104	22.99	45.3
7	4	男	2	125	20.64	60.6
8	8	男	2	145	15.61	92.9
9	10	男	2	67	15.8	42.4
10	9	男	2	89	9.87	90.2
11	9	男	2	88	19.82	44.4
12	12	男	2	86	25.26	34
13	14	女	2	201	12.78	157.3

(RAA), (3) carpal slip (CS) (図 2) を計測し, 術前と最終診察時の変化を Wilcoxon signed ranked test ($p < 0.05$) を用いて有意差を検討した. 術前と最終診察時に患側と健側の radial length (RL) の測定が可能であった 7 肢については, Ishikawa 分類¹⁾ でグループ分けを行い, RL の健側と患側の差の術前と最終診察時の変化および術前の RL 差の割合, % radial length shortening (% RLS) ((健側長 - 患側長 / 健側長) × 100) を測定検討した (Mann-Whitney U test, $p < 0.05$).

結 果

創外固定装着期間は平均 114.5 日, 延長量は平均 18.6 mm, Healing index は平均 66.4 日/cm, 尺骨変異は術前平均 -11.4 mm, 創外固定除去時で平均 +3.2 mm, RL は術前平均 148.1 mm, 創外固定除去時で平均 155.0 mm であった (表 1). % RB は術前 8.9 から最終診察時 7.2, RAA は術前 37.3 から最終診察時 28.4, CS は術前 61.5 から最終診察時 46.7 と全ての X 線像の指標で有意に改善を認めた (表 2).

健側, 患側で RL が測定可能であった 7 肢を

表 2. 各症例の術前, 最終診察時のRB(%), RAA(°), CS(%)

症例	年齢	性別	術後経過 観察期間 (月)	Ishikawa 分類	RB pre (%)	RB post (%)	RAA pre(°)	RAA post(°)	CS pre (%)	CS post (%)
1	5	男	49	1	9.7	7.2	35	27.4	62	57
2	14	男	19	1	6.9	5.6	24	27	50	46
3	10	男	17	1	8.8	6.6	31	20.9	56	34
4	3	女	31	1	9.3	6.3	24	18.9	—	37
5	6	女	10	1	11	11	40	29	67	50
6	8	男	8	1	10	9	40.9	23.9	48	44
7	4	男	41	2	13	6	32	30.1	—	57
8	8	男	26	2	11	7.4	48	32	50	40
9	10	男	12	2	6.8	6.9	44	33	75	40
10	9	男	35	2	6	6	32	30.1	75	57
11	9	男	34	2	7.7	6.6	39	25.1	66	51
12	12	男	39	2	6.9	7.1	50	32	89	60
13	14	女	15	2	8.4	7.8	44.7	39.8	39	35

RB : Radial bowing, RAA : Radial articular angle, CS : Carpal slip

— : 低年齢のために X 線像上, 手根骨が確認できない

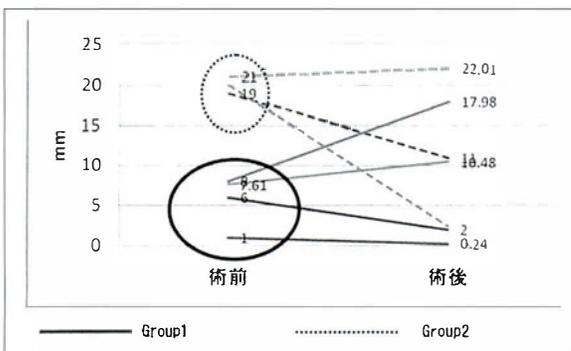


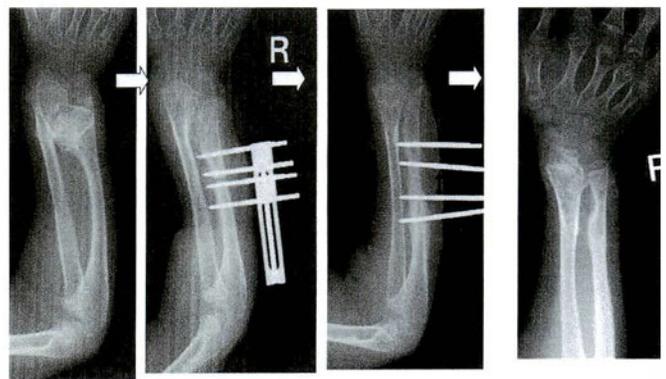
図 3. 健側との橈骨長差

術前 Group 2 では Group 1 より健側との橈骨長差が大きい傾向があった。Group 1 4 肢中 2 肢, Group 2 3 肢中 2 肢で術後に健側との橈骨長差が減少した。

Ishikawa 分類⁴⁾で検討すると術前にグループ 2 ではグループ 1 より健側との橈骨長差が大きい傾向があった(図 3)。術前の% RLS はグループ 2 は平均 13.0%, グループ 1 は平均 3.3% と有意差が認められた。

症 例

8 歳, 男児, グループ 2. 橈骨・尺骨の著しい変形, 尺骨の短縮を生じている。橈骨・尺骨の外骨腫切除と創外固定を用いた尺骨仮骨延長を施行し



%RB	11% → 7.4%
RAA	48° → 32°
US	-6mm → 3mm
CS	50% → 40%

2Y9M post. op.

図 4. 症例 8 : 8 歳, 男児, グループ 2

橈骨, 尺骨の外骨腫を切除し, 創外固定を装着した。創外固定装着期間 145 日, 骨延長量 15.61 mm, Healing index 92.9 日/cm であった。術後 2 年 9 か月の時点で各 X 線像の指標の改善がみられている。

た。術後経過は良好で術後 2 年 9 か月時点で% RB, RAA, CS の改善がみられた(図 4)。

考 察

Fogel ら³⁾は 98 前腕に生じた多発性軟骨性外骨腫症において, その 71% に橈骨遠位, 80% に尺骨遠位, 49% に橈骨近位, 42% に尺骨近位に腫瘍を

	%RB	RAA	CS
Group1	改善	不変	不変
Group2	悪化	悪化	不変

	%RB	RAA	CS
Group1	改善	改善	改善
Group2	不変	改善	改善

図 5. 外骨腫切除のみの症例と外骨腫切除と尺骨延長を施行した症例の成績の比較

認めたとしている。変形理由については以下の2つの説が有力である。橈骨関節面の変形は短縮した尺骨遠位の tethering によるとする Solomon⁵⁾らの ulnar tether theory と、外骨腫そのものにより橈骨関節面の変形は生じるとする Burgess と Cates²⁾らによる説である。主な変形としては前腕の弯曲、手関節の尺屈変形、橈骨を含めた前腕全体短縮、回旋運動障害、橈骨関節面の変形、橈骨頭脱臼などが起こりうる。放置すると著しい変形だけでなく、回内外運動障害や高度な手関節掌屈変形による手関節不安定性、握力低下などが起こりうる。

筆者らは原則として尺骨短縮が15 mm以上ある症例および外骨腫による著しい変形を伴っている尺骨マイナス変異症例に対し外骨腫切除と尺骨延長を施行している。延長は0~5 mm 尺骨プラス変異を目標としている。外骨腫切除と尺骨延長で% RB, RAA, CSは改善し、前腕の変形矯正に有効であった。興味深いのは今回、症例全体では% RB, RAA, CSは改善したのだが、尺骨遠位部にのみ外骨腫があり切除したグループ1と尺骨遠位部と橈骨の遠位尺側部に外骨腫があり切除したグループ2では% RBはグループ1で改善、グループ2で不変であった。グループ2では橈骨遠位尺側部の外骨腫を切除してはいるが外骨腫によって骨端軟骨にある程度の損傷が加わり、結果に差がでたものと推測された。外骨腫による前腕変形に対する手術として外骨腫切除のみと切除に加えて尺骨延長をするものがある。Ishikawaらの切除のみの結果と筆者らの結果を比較すると後

者のほうがより改善がみられた(図5)。尺骨遠位の外骨腫切除の際、外骨腫と骨端軟骨を分離して切除が行えず、腫瘍をとりきれないため尺骨の短縮がある症例では延長は不可欠と考えられる。

また、短期成績ではあるが外骨腫切除と尺骨延長で良好な成績が得られているため、橈骨の骨切りは施行していない。

Akitaら¹⁾は23例の多発性軟骨性外骨腫症手術例の長期成績を調べ、X線像の指標の術前と術後での変化において尺骨変異、RAA、CSでは有意差がないと報告している。この報告では施行した手術内容が多様であり、各手技が結果にどういう影響を与えているかわからないことと、非手術例との比較がないため、保存的に経過を見た場合、術前より悪化するものが不変でとどまっている可能性も考えられる。

外骨腫による前腕変形治療について議論されることとして、尺骨短縮の再発がある。今回の症例でも2肢で短縮の再発があった。筆者らは再短縮も考慮にいれて尺骨変異0~+5 mmまで延長している。また、延長の時期に関しても議論の多いところである。筆者らは外骨腫による著しい変形が生じる前で橈尺骨間の差が15 mmを超えた場合、比較的低年齢でも手術適応としている。数年後に再延長を行う可能性に関しても考慮している。

橈骨と前腕の短縮に関しては涉猟しえたかぎりでは過去に報告はないが、今回、尺骨にのみ外骨腫があるグループ1では術前健側との橈骨長の差は小さく、グループ2では差は大きかった。手関節変形は愁訴としてもっとも多いが、グループ2では前腕の短縮も認められる。すなわち、グループ2では手関節の変形だけでなく健側との前腕長差にも注意し、拡大するようなら低年齢でも外骨腫切除、尺骨延長を躊躇すべきでないとする。

結 論

- 1) 多発性軟骨性外骨腫症11例13肢に対して外骨腫切除と尺骨延長を施行し結果を検討した。
- 2) 尺骨延長は橈骨の変形も改善する有効な手

術であるが、尺骨短縮の再発は生じうる。

3) 前腕の変形・短縮が進行するようであれば、年齢にかかわらず手術を施行するべきである。

4) 尺骨遠位のみでなく橈骨の遠位尺側にも外骨腫がある場合、健側に対し橈骨長が短い傾向があった。

文 献

- 1) Akita S, Murase T, Yonenobu K et al : Long-term results of surgery for forearm deformities in patients with multiple cartilaginous exostosis. J Bone Joint Surg Am 89 : 1993-1999, 2007.
- 2) Burgess RC, Cates H : Deformities of the forearm in patients who have multiple cartilaginous exostosis. J Bone Joint Surg Am 75 : 13-18, 1993.
- 3) Fogel GR, McElfresh EC, Peterson HA et al : Management of deformities of the forearm in multiple hereditary osteochondromas. J Bone Joint Surg Am 66 : 670-680, 1984.
- 4) Ishikawa J, Kato H, Fujioka F et al : Tumor location affects the results of simple excision for multiple osteochondromas in the forearm. J Bone Joint Surg Am 89 : 1238-1247, 2007.
- 5) Solomon L : Hereditary multiple exostosis. J Bone Joint Surg Br 45 : 292-304, 1963.

Abstract

Surgical Reconstruction for a Forearm Deformity Caused by Multiple Osteochondilaginous Exostosis

Yasushi Morisawa, M. D., et al.

Department of Orthopaedic Surgery, National Hospital Organization Saitama National Hospital

We report the outcomes from surgical reconstruction in thirteen cases of a forearm deformity caused by multiple osteochondilaginous exostosis. Treatment included exostosis removal followed by ulna lengthening in 13 cases involving eleven patients. The patients included 8 boys and 3 girls with an average age at surgery of 8.3 years. The average follow-up duration was 26 months. The outcomes were assessed using percentage of radial bowing (% RB), radial articular angle (RAA), and carpal slip (CS) using plain X-ray. The % RB improved from 8.9 to 7.2, RAA improved from 37.3 to 28.4, and CS improved from 61.5 to 46.7, at most recent follow-up. These significant improvements suggested that ulna lengthening was effective for reducing deformation in the radius.