

## 乳児期の敗血症性壊疽に由来する多発性成長軟骨板障害に対して 繰り返し脚延長を行った一症例

佐賀整肢学園こども発達医療センター整形外科

窪田 秀明・桶谷 寛・劉 斯允

浦野 典子・武田 真幸・藤井 敏男

九州大学整形外科

佐賀県立病院好生館整形外科

中島 康晴

野口 康男

**要旨** 乳児期に敗血症性壊疽に罹患し、多発性成長軟骨板障害のため脚長不等と低身長を呈した男児に対して、7, 13, 20歳と3回にかけて単支柱型創外固定器を用いて仮骨延長法による治療を行った。左側は3回の延長で219 mm、右側は20歳時に1回の治療で95 mm延長し、脚長差は補正され身長は160 cmとなった。左脛骨3回目の延長では、骨癒合遅延と前方凸変形が生じ、固定器装着期間が長期となり、22歳時に骨切り術での矯正を必要とした。

### はじめに

乳児期に敗血症性壊疽に罹患し、多発性成長軟骨板障害のため脚長不等と低身長を呈した男児に対し、単支柱型創外固定器を用いた仮骨延長法にて複数回の脛骨延長を実施し22年間に渡り経過観察を行った症例を経験したので報告する。

### 症例

症例は現在26歳の男性である。出生発育は特に問題なかったが、1歳2か月時、誘因なく敗血症に罹患し、末梢循環不全に陥り多発性壊疽が発生した。その結果、複数指・趾の切断を余儀なくされ手・足に変形を残した(図1)。4歳時に、脚長不等(右>左、3 cm差)出現し、X線所見にて上下肢の長管骨に多発性に成長軟骨板障害が存在した(図2)。

脚長差が57 mm(右>左)となった7歳時に初回の左脛骨延長を単支柱型創外固定器(Orthofix)にて行い、72 mmの延長量を獲得した(図3)。

13歳時、再び50 mmの脚長差(右>左)となったため、2回目の延長を初回と同様に行い75 mmの延長量を獲得した。

20歳時、身長152 cm、大腿長は15 mm、下腿長は9 mmそれぞれ左側が長い脚長差が存在した。低身長と脚長差を改善するため、右脛骨は初回延長を、左脛骨は3回目の延長を仮骨延長法で実施した(図4)。右脛骨は95 mmの延長、左脛骨は72 mmの延長で、身長は160 cmとなり、脚長差はなくなり左右同長となった(図5)。初回手術の右脛骨は95 mm(33%)の延長であったが骨形成も順調であった。

しかし、3回目の手術である左脛骨では、骨癒合が遅延し(表1)、形成骨が脛骨近位で前方凸30°

**Key words** : lower limb lengthening(脚延長), multiple-stage(多数回), epiphyseal line(骨端線), epiphyseal(growth) plate disturbance(成長軟骨板障害), septic gangrene(敗血症性壊疽)

連絡先: 〒849-0906 佐賀市金立町金立2215-27 佐賀整肢学園こども発達医療センター整形外科 窪田秀明

電話(0952)98-2211

受付日:平成22年12月17日

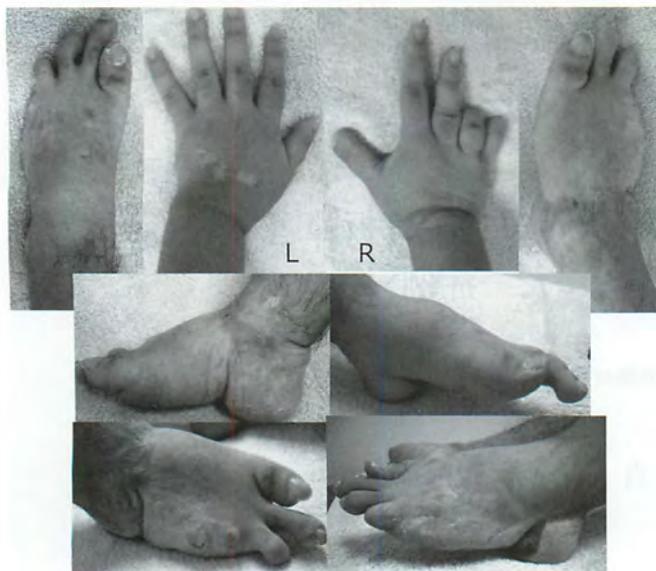


図 1. 20 歳時, 両手および両足の変形

上肢は, 橈骨遠位成長軟骨板障害による両手関節変形, 右環指・小指切断,

下肢は, 足根骨成長障害による両足凹足変形, 両足第 4・5 趾切断.



図 2. 7 歳時, 初回延長前の下肢 X 線像

左脛骨近位および遠位成長軟骨板(右向き矢印), 右脛骨遠位成長軟骨板(左向き矢印)のほぼ完全な閉鎖, 両大腿骨遠位成長軟骨板(左右の矢頭)の軽度障害の所見.



図 3. 7 歳時, 延長前後の X 線像

a : 延長前は 57 mm 右側が長い,

b : 72 mm 延長後は 15 mm 左側が長い.

変形を生じたため(図 6), 22 歳時に凸部で矯正骨切り術を行った. 骨癒合は再び遅延したが, 術後 9 か月で骨癒合が得られた. 最終診察時に, 左膝関節伸展  $-5^\circ$  と左足関節背屈  $0^\circ$  の可動域制限を認めるが, 独歩可能となった. 変形は矯正減少のため前方凸  $16^\circ$  が再発した(図 6).

### 考 察

さまざまな理由で成長軟骨板障害が発生し, そ

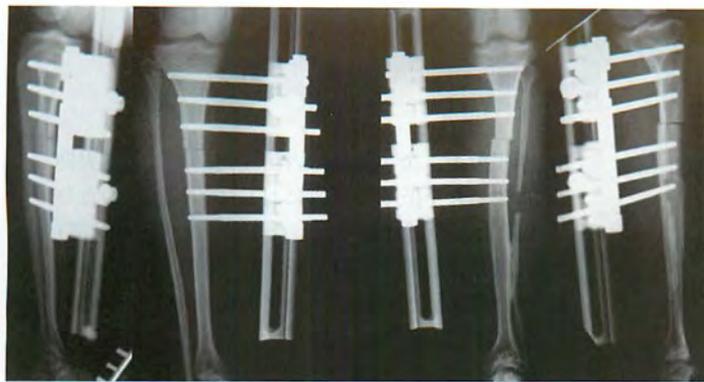
の結果として脚長不等や低身長となる. この治療法として, かつては一次的に移植骨を挿入する方法が行われ, 中には複数回手術を行い 233 mm 延長が出来たとの症例報告もあるが, 全体としての治療成績は思わしくなかった<sup>7)</sup>. 最近では, 創外固定器を用いた仮骨延長法を成長に合わせて複数回実施して補正する治療法が確立され, その成績は概ね良好と報告されている<sup>3)4)</sup>.

われわれも, 多発性成長軟骨板障害のため脚長不等と低身長を呈した男児を治療して, 左脛骨は同一部位で 3 回の手術を行って合計 219 mm 延長することができた.

問題点は, 3 回目の脛骨延長では, 前回までに比べて著しく骨形成が遅延, 特に Maturation index が遅延したこと, 更に, 形成骨が前方凸変形を生じ, 骨切り術で矯正したことであった(表 1, 図 6).

Maturation index が遅延した原因として, 延長器を除去できるまでの日数は延長量にかかわらず年齢に相関するという報告<sup>1)</sup>のように, 年齢要素が大きかったと考察する.

前方凸変形に関しては, 単支柱型創外固定器を用いての下肢延長では, 延長距離が長くなるとこ



a  
b

図 4. 20 歳時、左 3 回目および右初回延長前後の X 線像  
a : 創外固定器装着時  
b : 左側 72 mm, 右側 95 mm 延長後、左胫骨骨形成が遅延。

表 1.

	延長量	EFI (day/cm)	LI (day/cm)	MI (day/cm)
1 回目(7 歳)	72 mm	32.4	9.4	21.3
2 回目(13 歳)	75 mm	32.1	9.7	29.6
3 回目左(20 歳)	72 mm	95.0	17.8	76.5
1 回目右(20 歳)	95 mm	72.0	13.5	58.0

EFI = external fixation index (創外固定装着期間/骨延長量),  
LI = lengthening index (延長に要した期間/骨延長量),  
MI = Maturation index (固定器装着して骨成熟を待った期間/骨延長量)

の変形が発生しやすいことが報告されている<sup>5)6)</sup>。単支柱型でもリング型でも骨形成に有意差はなかったが、延長途中に生じた変形に対して単支柱型は対応困難であるが、リング型、特に Taylor Spatial Frame は、柔軟に対応可能であったとの報告<sup>2)</sup>がある。

年齢因子は不変であるので、3 回目の延長では固定器の選択を考慮する余地があった。

3 回目の治療では両側の胫骨を延長した、これ



図 5. 最終診察時(22 歳)の所見  
左下腿の外反あるが脚長差は 0 mm.



図 6. 左胫骨近位部前方凸変形  
3 回目の延長後に 30° 前方凸変形存在(左図).  
矯正骨切り術後、一端は 0° としたが、最終的に  
16° 前方凸変形が再発(右図).

は、脚長差(2 cm 左>右)に加えて、大腿骨は軽度の遠位成長軟骨板障害によりわずかの短縮はあるがほぼ正常な長さであるのに対して、胫骨は右遠位部・左遠位近位両部の著しい成長軟骨板障害にて短縮も著しく大腿骨長と胫骨長のバランスが不良であった(大腿骨長/胫骨長比が 1.5, 正常平均は 1.2)ためである。両側の胫骨は 23 mm 差(右>左)をつけて延長することで脚長差を解消し、同時に大腿長/胫骨長比を 1.5 から 1.2 に改善するように延長量を決定した。

## まとめ

1) 乳児期敗血症性壊疽に由来する多発性成長軟骨板障害のため脚長不等と低身長を呈した男児を治療し 22 年間経過観察した。

2) 左胫骨は 3 回の仮骨延長法にて 219 mm, 右側は 1 回の治療で 95 mm, それぞれ延長できた。

3) 3 回目の左胫骨延長は, 骨癒合遅延と前方凸変形を生じ矯正骨切り術を必要とした。

## 文献

- 1) 浜西千秋, 田中清介: DEXA と超音波を用いた臨床的および実験的延長仮骨の評価法. OS NOW 25 : 152-156, 1997.
- 2) 松原秀憲, 土屋弘行, 櫻吉啓介ほか: 骨延長術における各創外固定器の比較. 日本創外固定・骨延長学会雑誌 18 : 77-80, 2007.
- 3) 西田敦士, 金 郁喆, 吉田隆司ほか: 新生児期に生じた下肢成長障害に対して多数回にわたり 257 mm の脚延長を行った 1 例. 日本創外固定・骨延長学会雑誌 21 : 41-51, 2010.
- 4) 落合達宏, 高橋祐子, 須田英明ほか: 小児に対する下肢変形矯正・延長術の同一部位複数回手術例の検討. 日本創外固定・骨延長学会雑誌 20 : 21-24, 2009.
- 5) 桶谷 寛, 窪田秀明: 軟骨無形成症児に対する下腿延長術の治療経験. 日本創外固定・骨延長学会雑誌 21 : 93-96, 2010.
- 6) 西須 孝, 亀ヶ谷真琴, 高澤 誠ほか: 単支柱型創外固定器を用いた下腿骨延長術における屈曲変形の要因. 日本創外固定・骨延長学会雑誌 20 : 25-29, 2009.
- 7) Urist MR : A 37-year follow-up evaluation of multiple-stage femur and tibia lengthening in dyschondroplasia (enchondromatosis) with a net gain of 23.3 centimeters. Clin Orthop Relat Res 242 : 137-157, 1989.

## Abstract

### Multiple-Stage Lower Limb Lengthening for Epiphyseal Plate Disturbance with Infantile Septic Gangrene : A Case Report

Hideaki Kubota, M. D., et al.

Department of Orthopaedic Surgery, Saga Handicapped Children Hospital

We report a case of lower limb growth disturbance in a boy who had infantile septic gangrene at 1 year 2 months of age. We performed lengthening in the left tibia using a unilateral external fixator at 7 years of age, and again at 13 years of age, and in the bilateral tibia at 20 years of age. Lengthening of 219 mm was achieved in the left tibia, and of 95 mm in the right tibia, achieving a total height of 160 cm. However the third lengthening in the left tibia showed delayed bony union with anterior flexion deformity in the new bone growth, and he underwent corrective osteotomy on the left tibia at 22 years of age.