

難治性の両側先天性膝関節脱臼の治療経験

北海道大学大学院医学研究科人工関節・再生医学講座

高橋 大 介・眞 島 任 史

北海道大学大学院医学研究科整形外科

山 田 勝 久・渡 部 琢 哉・沢 口 直 弘・三 浪 明 男

三草会クラーク病院整形外科

門 司 順 一

要 旨 難治性の先天性膝関節脱臼に対して Ilizarov 創外固定器を併用して治療したので報告する。症例は女兒、出生時に grade III の両側先天性膝関節脱臼と診断。保存治療に抵抗性で、生後7か月で観血的脱臼整復術を施行したが、成長に伴い再発したため再入院。2歳2か月時、両膝関節は著明な外反・反張位を呈し、関節可動域は両膝ともに伸展40°～屈曲10°、全身麻酔下の関節造影では膝関節は脱臼位であった。再手術は腸脛靭帯を切離、大腿四頭筋腱をV-Y延長、関節包を解離して整復し、膝関節屈曲位で大腿骨と脛骨をK-wireで貫通固定後、ヒンジ付きのIlizarov創外固定器で固定した。術後2週でK-wireを抜去、術後3週から可動域訓練を開始、術後8週でIlizarov創外固定器を抜去した。術後8か月の現在、装具にてつたい歩き可能であり、膝関節の可動域は他動で伸展-10°～屈曲90°に改善している。難治性の先天性膝関節脱臼に対して観血的整復術を行い、Ilizarov創外固定器で固定、漸次矯正することで比較的良好な成績が得られた。整復位保持・早期関節可動域訓練にIlizarov創外固定器が有用であると考えられた。

序 文

先天性膝関節脱臼 (congenital dislocation of the knee; 以下、CDK) は比較的稀な疾患であり、自然治癒される程度の軽い症例から複数回の手術を要する難治症例まで多岐にわたる。今回、我々は grade III の CDK に対する観血的整復術後、骨成長と共に再発した難治症例に対して観血的整復術を行い、Ilizarov 創外固定器で固定、漸次矯正を行ったので報告する。

症 例

女兒。妊娠39週、出生時体重2,658g、正常分娩で出生した。出生時より両膝関節の反張位が認められ、生後2日で当科紹介され初診。視診、X線上、両膝関節は完全脱臼位であり、grade III の CDK と診断した (図1)。先天性多発関節拘縮症 (arthrogryposis multiplex congenita; 以下、AMC) はなかったが、後に小児科にて Larsen 症候群と診断された。外来にて徒手整復しギプス固定を継続するも完全な整復は得られなかった (図2)。生後7か月時に観血的脱臼整復術 (腸脛靭帯

Key words : congenital dislocation of the knee (先天性膝関節脱臼), Ilizarov external fixator (イリザロフ創外固定器)

連絡先 : 〒060-8638 北海道札幌市北区北15条西7丁目 北海道大学大学院医学研究科人工関節・再生医学講座
高橋大介 電話 (011) 706-5935

受付日 : 平成23年3月2日

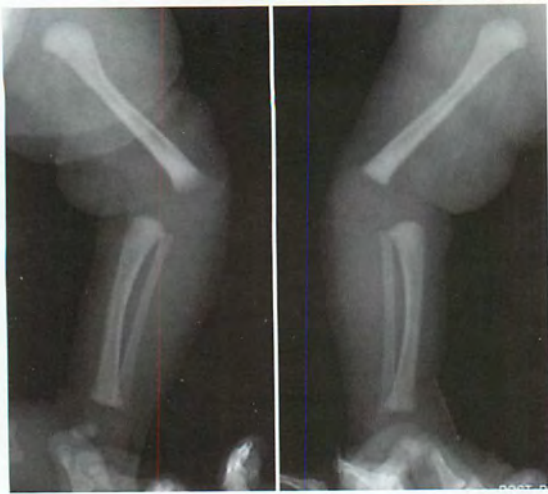


図 1. 初診時(生後2日)
両膝とも grade III の CDK であった。



図 2. 保存治療後(生後7か月)
徒手整復とギプス固定を継続するも整復位を保持できなかった。



図 3. 観血的整復術後(生後7か月)



図 4. 2歳2か月時
両膝関節の脱臼再発を認めた。

剥離、大腿四頭筋 Z 延長)を施行した(図3)。術中所見では ACL が延長していた。術後は8週間のギプス固定後に膝装具を装用したが、成長にともない反張膝が再発した。2歳2か月時、両膝関節は外反・反張位で、可動域は両側伸展 40° ～屈曲 10° であり(図4, 5)、膝屈筋群が前方へ偏位し、膝関節の過伸展に作用していると考えられた。全身麻酔下に関節造影を行ったところ、膝蓋上嚢は低形成、大腿骨顆部前面は扁平化し膝関節は脱臼位であった(図6)。全身麻酔下でも徒手整復は不能であり、観血的整復術を行うことにした。まず、癒着した大腿四頭筋腱をV字に切離・翻転し、次

に腸脛靭帯を切離し、関節包を解離すると、膝関節を屈曲することで整復された。膝関節 60° 屈曲位で脛骨から大腿骨に1.5 mm K-wire 1本で固定し、大腿四頭筋はV-Y延長を行った。最後に、大腿骨と脛骨をヒンジ付き Ilizarov 創外固定器で固定した(図7)。ヒンジの位置は大腿骨内側上顆と外側上顆を結ぶ直線状に一致させた。術後の単純X線写真で、膝関節の整復位が確認された(図8)。術後2週でK-wireを抜去し、ヒンジを用いて屈曲 80° まで徐々に増加した(図9)。術後3週より、伸展 -30° から屈曲 80° で他動的可動域訓練を開始し、術後6週よりヒンジを除去してより積



図 5. 2歳2か月時の立位時
両膝関節とも外反・反張位であった。

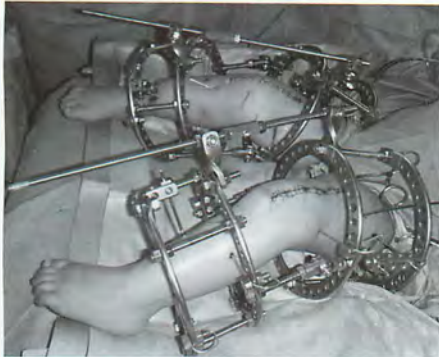


図 7. 再手術直後の外観
両膝屈曲位でヒンジ付きの Ilizarov 創
外固定器で固定した。

極的な他動的可動域訓練を開始した。膝関節は良好な整復位を保持したままの伸展・屈曲が可能であった。術後8週で Ilizarov 創外固定器を抜去後さらに、8週間リーメンビューゲル装具を装着した。術後16週より長下肢装具を使用し、歩行訓練を開始した。術後8か月の現在長下肢装具にてつたい歩きは可能で、膝関節可動域(他動)は伸展 -10° ~屈曲 90° である(図10)。

考 察

CDKは比較的稀な疾患であり、出生数10万に対して約1例の発生とされている⁹⁾。男女比1:2~8と女兒に多く²⁾⁹⁾、本症例も女兒であった。原因は不明な点が多いが、Larsen症候群やAMCなど基礎疾患を有する遺伝的要因によるものと、子宮内外の圧迫や異常胎位によるものなどが考えられている⁹⁾。

治療方法は大きく保存治療と観血的治療の2つ



図 6. 麻酔下関節造影検査
膝蓋上嚢の低形成、大腿骨顆部前面の扁平化を認める。

に分けられるが、CDKの程度にかかわらず最初は保存治療を行う。Grade II (subluxation)までの症例でAMCなどの基礎疾患や内反足の合併がない症例は両親への愛護的な膝関節屈曲指導のみで1か月間の経過観察で多くの症例が整復される³⁾。芳賀ら²⁾は基礎疾患、内反足合併がなく初診時grade IIの症例は全例保存治療で治癒したとしている。しかし、grade III (dislocation)の症例や基礎疾患、内反足の合併がある症例は生後すみやかに愛護的な徒手整復を試みて、シーネやギプス固定を行い、それでも整復が得られない場合には観血的整復術に移行するとしている。松浦ら⁵⁾は基礎疾患があり、罹患関節が両側例でgrade IIIのCDK症例の多くが観血的整復術を要するとしており、初診時の基礎疾患の合併を精査することを重要視している。

本症例は両側罹患例であり、後にLarsen症候群と診断された。さらに生後2日の初診時にgrade IIIであったため観血的整復術に移行する可

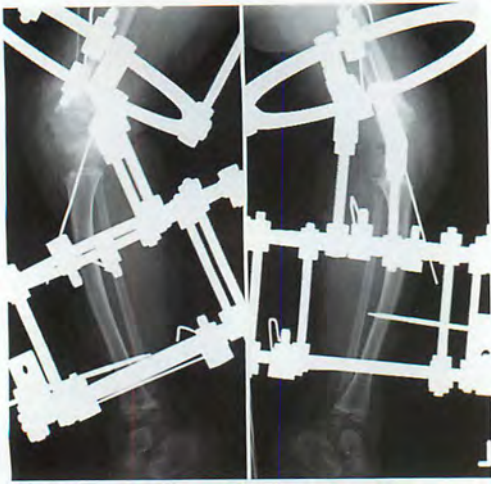


図 8. 再手術直後
 整復位を保持するために胫骨と大腿骨を
 K-wire で貫通固定している。

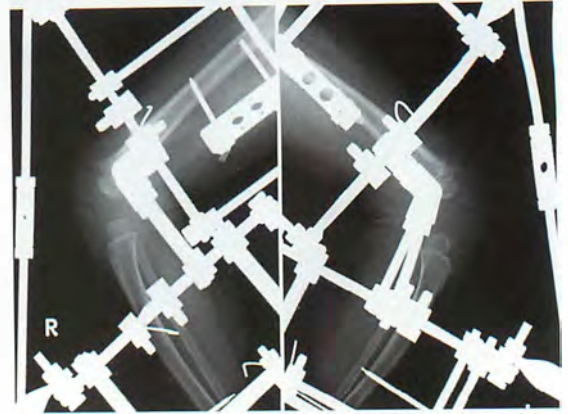


図 9. 術後3週
 術後2週でK-wireを除去し、ヒンジを調整し
 て1日約5°ずつ屈曲角度を増加させた。術後3
 週から可動域訓練を開始した。

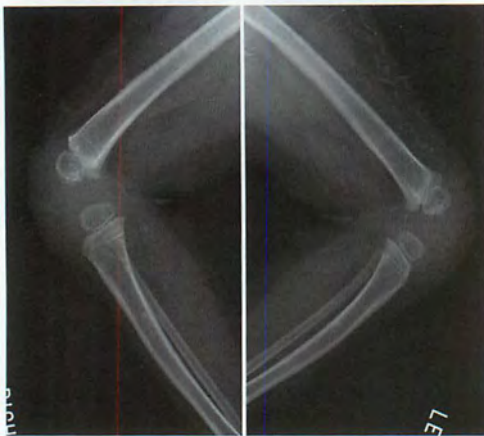


図 10. 術後8か月
 可動域は伸展-10°～屈曲90°で、アライメ
 ントも良好である。

能性が高いことが予想された。また生後7か月で施行した観血的整復術でも再脱臼したため非常に難治症例であると考えられた。杉本ら⁹⁾はこのような難治症例では、形態学的に膝蓋上囊の欠損や低形成、内側ハムストリングの前方偏位、大腿四頭筋の筋萎縮などが認められるとしている。大石ら⁷⁾は保存的治療に抵抗する症例には膝関節造影を行うべきとしている。関節造影の側面像から膝蓋上囊の形成不全の程度が観察され、さらに正面像における関節包像の外側偏位から内側ハムストリングおよび内側側副靭帯の胫骨付着部の前方偏位の程度も推測され、これらの所見は観血的治療の適応判断や予後判定に有効であると述べている。我々の症例でも術中に関節造影を施行し、膝

蓋上囊の低形成を認めていた。

手術時期に関しては、野村ら⁶⁾は大腿骨頸部の二次的変形が出現する前の2歳ごろまでに行った方がよいとしている。欧米ではより早い時期での手術をすることで良好な成績が得られるという報告が多く、例えば Bensahel ら¹⁾は生後3か月～6か月で手術をすべきであるとしている。しかし、適切な手術時期はいまだ一定の見解は得られていない。

手術方法としては、多くの報告者が大腿四頭筋をV-Y延長することに賛同している¹⁾。しかし、Shah ら⁸⁾は伸展機構に大きな侵襲を与えることで、癒着による可動域制限の残存、膝伸展力の低下の可能性があると指摘しており、保存治療で屈曲が90°以下の症例には早期に小皮切で大腿四頭筋腱切離術を施行し良好な成績を報告している。今回の症例は難治性であり、大腿四頭筋の延長は避けられなかったと予想されるが、今後は整復困難症例に対して早期の大腿四頭筋腱切離術も考慮してもよいかもしれない。

我々の症例では、観血的整復術後に再脱臼したことから、再手術では強い整復位保持力と早期の関節可動域訓練が可能な治療が必要であると考えた。松井ら⁴⁾は膝関節の軟部組織は処置せずに Iizarov 法単独で整復した。ただその後脱臼が再発しており、難治症例には観血的整復術も行うべ

きとしている。そのため本症例では観血的に整復した後にヒンジ付き Ilizarov 創外固定器で固定した。その結果、整復位を保持したままで術後3週の早期から関節可動域訓練を行うことが可能であった。経過観察期間は短い。術後8か月の現在、膝関節可動域(他動)は伸展 -10° ~屈曲 90° と術前の状態を考慮すると比較的良好な成績と考えられた。

結 語

Grade IIIのCDKに対する観血的整復術後に再発した難治症例を経験した。観血的整復術を行い、Ilizarov 創外固定器で固定、漸次矯正を行う方法は整復位を保持したままで早期に可動域訓練を開始可能であり、難治性CDKの治療に有用であると思われた。

文 献

1) Bensahel H, Dal Monte A, Hjelmstedt A et al : Congenital dislocation of the knee joint. J Pediatr Orthop 9 : 174-177, 1989.

2) 芳賀信彦, 中村 茂, 坂口 亮ほか : 先天性膝関節脱臼19例の治療成績. 整形外科 45 : 173-177, 1994.

3) Haga N, Nakamura S, Sakaguchi R et al : Congenital dislocation of the knee reduced spontaneously or with minimal treatment. J Pediatr Orthop 17 : 59-62, 1997.

4) 松井好人, 川端英彦, 柴田 徹ほか : イリザロフ治療が困難であった Larsen 症候群に伴う先天性膝関節脱臼の1例. 臨整外 34 : 1277-1280, 1999.

5) 松浦愛二, 藤井敏男, 高村和幸ほか : 先天性膝関節脱臼の治療成績. 整形外科 55 : 635-642, 2004.

6) 野村忠雄, 辻 成人, 本田敬宣ほか : 先天性膝関節脱臼の7例. 整形外科 35 : 537-544, 1984.

7) 大石年秀, 松元信輔, 藤井敏男ほか : 先天性膝関節脱臼の病態と治療. 整・災外 26 : 1055-1062, 1983.

8) Shah R, Limpaphayom N, Dobbs B : A minimally invasive treatment protocol for the congenital dislocation of the knee. J Pediatr Orthop 29 : 720-725, 2009.

9) 杉本 格, 北澤久也, 石井賢治ほか : 先天性膝関節脱臼の7例. 整形外科 52 : 523-527, 2001.

Abstract

Intractable Congenital Dislocation in the Bilateral Knee

Daisuke Takahashi, M. D., et al.

Department of Joint Replacement and Tissue Engineering, Hokkaido University,
Graduate School of Medicine

We report a case of intractable congenital dislocation in the bilateral knees treated using an Ilizarov external fixator. This case is of a baby girl presenting grade III congenital dislocation in the bilateral knees at birth. Conservative treatment was unsuccessful, and open reduction was performed at 7 months of age. However, dislocation recurred during skeletal growth. She presented significant valgus and recurvatum deformity in the bilateral knees at 2 years of age. There was limited range of motion bilaterally with 40° extension and 10° flexion. We then performed lengthening in the quadriceps tendon with V-Y advancement, and dissection of the joint capsule and iliotibial tract, to achieve reduction in the knee joint. The tibia and femur were fixed using temporary K-wire, and held using an Ilizarov external fixator with connected hinge. At 3 weeks later the K-wire was removed, and range of motion exercises were started. At 8 weeks after the operation, the Ilizarov fixator was removed. She then started walking exercises using a knee brace and hand rails. At 8 months after the operation, the passive range of motion was -10° extension and 90° flexion in the bilateral knees. These findings suggest that open reduction followed by treatment using an Ilizarov external fixator was effective for intractable congenital dislocation in the knee.