

## 胫骨列欠損の胫腓間癒合術後に下腿の外反変形をきたした1例

心身障害児総合医療療育センター整形外科

藤原清香・根本まりこ・田中弘志  
瀬下崇・伊藤順一・君塚葵

**要旨** 症例は先天性胫骨列部分欠損 Jones type II の12歳の男児である。1歳で右胫腓間癒合術・足関節離断術を行ったが、胫腓間の癒合が得られず偽関節となった。8歳時に偽関節手術・腓骨頭切除により骨癒合を得たが、のちに特に外傷の既往なく下腿の外反が進行し、12歳時には外側骨端線閉鎖による外反変形をきたし義足歩行ができなくなった。先天性胫骨列欠損において、手術操作や下腿の軽微な内外反変形を伴う義足歩行により、骨端線閉鎖が生ずる可能性を胫骨の低形成などを踏まえて考え、慎重に経過を見ていくことが大切と思われた。

### はじめに

先天性胫骨列欠損は100万人に1人の発生率の疾患で、欠損の程度は様々で治療上の問題が多い<sup>3)</sup>。先天性胫骨列欠損の Jones type II には胫腓間癒合術が行われ、装具を用いた実用歩行が得られる<sup>3)4)8)</sup>。

今回、右胫腓間癒合術・足関節離断術施行後に胫腓間の癒合が得られず偽関節となり、偽関節手術ののちに特に外傷なく胫骨外側骨端線閉鎖による外反変形をきたした症例を経験したので報告する。

### 症例

出生時に右先天性胫骨列欠損による Jones type II と診断され、さらに両手の指列誘導障害(左手指欠損, 右多合指症)を合併している。家族歴として兄が先天性胫骨列欠損で右下肢 Jones type I a, 左下肢 Jones type IV. にて右膝離断術を施行している。両親に特に異常はない。血族婚なし。

母親の糖尿病なし。

**当院初診時所見** : 1歳6か月の男児。2,800g 第二子で出生した。周産期異常はなし。出生時より右下腿変形、両手の指列誘導障害を認め X 線所見にて Jones type II の tibial partial defect と診断される(図1-a, b)。

### 経過

**1歳6か月** : 右胫腓間癒合術(K-wire 内固定)・足関節離断術施行した(図2)。

**2歳6か月** : 胫腓間の癒合が得られず偽関節と診断される。しかし下腿義足で独歩可能となり運動発達に影響がなかったため経過観察となった。

**8歳10か月** : X 線上胫腓骨間偽関節を認め、右片脚起立不安定になる(図3)。

**8歳11か月** : 胫骨腓骨間偽関節癒合手術(プレート固定)・腓骨頭切除を行った(図4)。

**9歳1か月(術後2か月)** : 胫骨腓骨間の癒合が得られた。右膝関節 ROM 伸展 $-20^{\circ}$ 、屈曲 $70^{\circ}$ であった。

**Key words** : congenital deficiency of the tibia(先天性胫骨列欠損), epiphyseal injury(骨端線損傷), valgus deformity of tibia(下腿外反変形)

**連絡先** : 〒173-0087 東京都板橋区小茂根 1-1-10 心身障害児総合医療療育センター整形外科 藤原清香  
電話(03)3974-2146

**受付日** : 平成24年3月7日



a |  
b

図 1.  
a : 初診時写真, X線写真 Jones type II  
b : 写真, 両手 X線写真 指列誘導障害(左手指欠損, 右多合指症)

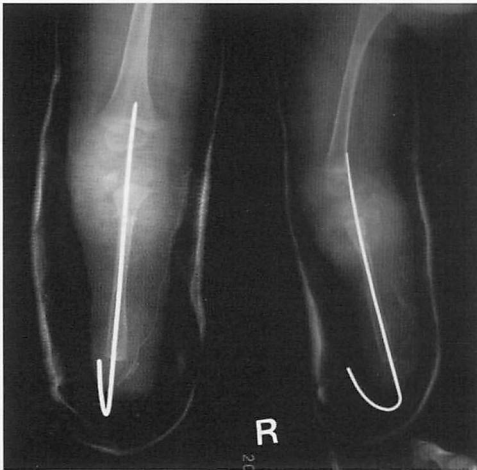
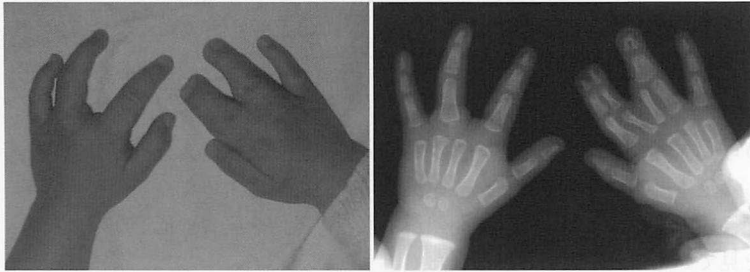


図 2. 1歳6か月  
右胫腓間癒合術・足関節離断術を行った。



図 3. 8歳10か月  
胫骨端の外側偏位をすることで  
Q angleが拡大, 膝蓋骨の外側脱臼  
が誘発されるようになった。X線上  
胫腓間偽関節を認める。

9歳10か月(術後11か月): 膝の外反変形が徐々に顕在化し, 義足調整が必要な状態であった。しかし X 線上骨端線の損傷は認めない。小学生時代から野球部に所属し下腿義足で他児と同様に練習していた。

11歳7か月: 下腿断端内側の発赤, 疼痛が出現した。下腿の外反30°, 屈曲拘縮15°認める。X 線上骨端線が閉鎖している所見はない(図5)。

12歳9か月: 普通中学1年在学。2か月ほど前から下腿の外反屈曲変形が進行してかライナーが

破損し, 下腿前面に瘻孔を形成した。受診時は下腿外反変形のため義足装着困難で, 歩行には義足を用いず両側松葉杖を使用していた。下腿前面に滲出創を認め感染疑い。瘻孔から胫腓間固定用金属プレートがゾンデで触れる。プレート周囲の感染, および骨髓炎が疑われた。

X 線上, 明らかに下腿の外側骨端線が閉鎖している。

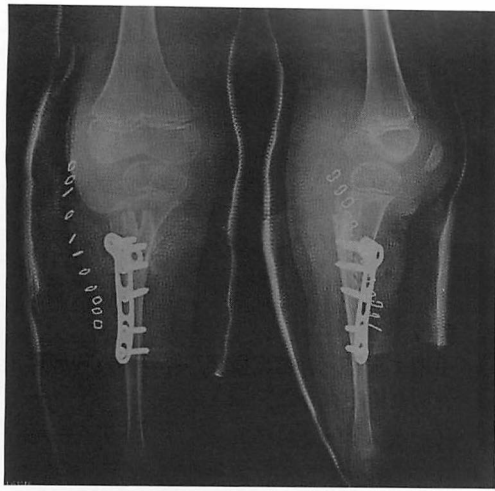


図 4. 8 歳 11 か月  
脛骨腓骨間偽関節癒合手術・腓骨頭切除を行った。



図 5. ▶  
11 歳 7 か月  
脛腓間癒合術後 2 年 7 か月  
骨端線は閉じていない。



図 6.  
12 歳 10 か月  
下腿が 40° 外反変形し、  
外側骨端線の閉鎖を認める。

診察所見として、容易に膝蓋骨が外側脱臼する。X 線上の膝蓋骨の低形成および脛骨の外反 40°、屈曲変形 27°。膝関節 ROM は伸展 -40°、屈曲 130°であった。

12 歳 10 か月：手術目的で入院(図 6)。

抜釘、骨髄炎掻爬、脛骨内反伸展矯正骨切り術を施行した(図 7)。

術後 6 週経過したところで、X 線上仮骨の形成を認めたためワイヤーを抜去した。そして仮義足で独歩可能となった。X 線上 FTA 178°。膝関節 ROM 伸展 -5°、屈曲 120°。

最終観察時年齢 13 歳 2 か月(術後 4 か月)：義足で野球部活動にも復帰し、問題なくプレーできている。

## 考 察

本症例は兄も Jones 右 I a 型/左 IV 型の脛骨列欠損で当センターより 1993 年に報告している。先天性脛骨列欠損の原因遺伝子として過去に報告のある HOXD-11, HOXD-12, Sonic Hedgehog (SHH) については本症例については異常を認めなかった<sup>6)</sup>。また、先天性脛骨列欠損における脛腓間癒合術後の外反変形についての報告は見あたらなかった。

本症例において外反変形を招いた外側の骨端線閉鎖をきたした理由について検討した。

第一に考えられたのは、脛骨腓骨間偽関節手術の腓骨頭切除の際に、脛骨外側部の操作が骨端線を架橋した可能性である。少なくとも脛骨外側軟

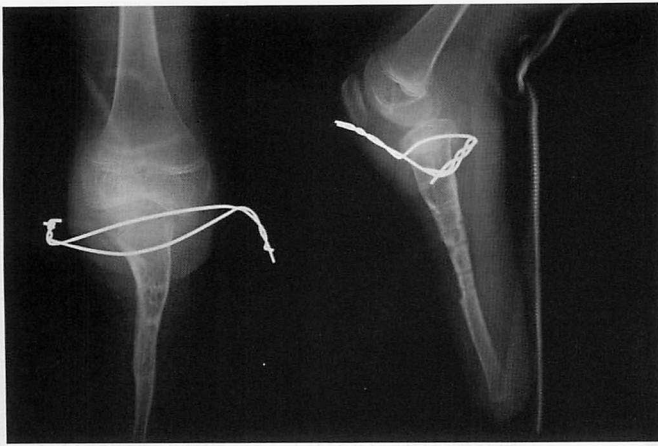


図 7.  
手術：抜釘，骨髓炎搔爬，胫骨内反伸展矯正骨切り術を行った。

部組織には相当な癒着瘢痕が生じたと思われる。しかし手術操作で生じる骨端線閉鎖が術後2年8か月経過してから生じるのかについて疑問が残る。術後の下腿の軽微な外反変形が，日常生活・スポーツ活動における胫骨の外側骨端線へ過剰な負荷をかけたことによる可能性について検討した。

Salter-Harris fracture type V はまれな骨端線損傷で足関節や膝で生じる。関節の内転や外転力が掛かることで骨端線が圧挫される事が原因で生じ，診断が難しいといわれる<sup>2)</sup>。Keret らは非対称性の胫骨の近位骨端線閉鎖を生じた例について報告している。特に外傷を思わせる既往なく，内反もしくは外反する力や剪断力によって Salter-Harris fracture type V の骨端線損傷を生じたことが主たる原因と考えられるとしている<sup>5)</sup>。また骨折などの明らかな外傷機転なしに Salter-Harris fracture type V の骨端線損傷がスポーツ活動などを通して生じる報告がされている<sup>1)</sup>。さらに成長期のラットにおける下肢の外反変形や軸圧により，近位胫骨の骨端線損傷を組織学的に認め，Salter-Harris fracture type V の骨端線損傷と同様の病理学的所見であったと報告されている<sup>6)</sup>。

以上から8歳11か月時に行った手術操作で，軟部組織の癒着瘢痕などから胫骨外側の成長障害を生じた可能性があるが，初期の外反変形により生じる繰り返し応力によることも否定できない。そのため8歳11か月での手術から11歳7か月までの32か月間は骨端線の閉鎖は認めず，ゆっくと外反が進行した。そして11歳7か月から12

歳9か月までの14か月の間で，骨端線が閉鎖して外反変形が急速に進行したと考えられる。

### まとめ

本症例は先天性胫骨列欠損 Jones type II で，8歳11か月時の胫腓間癒合手術後46か月で胫骨外側の早期骨端閉鎖が生じた。先天性胫骨列欠損において胫骨の低形成などを踏まえたうえで，手術操作による骨端線損傷や，下腿の軽微な内外反変形を伴う義足歩行で圧挫による骨端線閉鎖の可能性も考え，慎重に経過を見ていくことが大切と思われた。

### 文 献

- 1) Caine D, DiFiori J, Maffulli N : Physeal injuries in children's and youth sports : reasons for concern? Br J Sports Med 40(9) : 749-760, 2006.
- 2) Czitrom AA, Salter RB, Willis RB : Fractures Involving the Distal Epiphyseal plate of the femur. Int Orthop 4(4) : 269-277, 1981.
- 3) Jones D, Barnes J, Lloyd-Roberts GC : Congenital aplasia and dysplasia of the tibia with intact fibula. Classification and management. J Bone Joint Surg Br 60(1) : 31-39, 1978.
- 4) Kalamchi A, Dawe RV : Congenital deficiency of the tibia. J Bone Joint Surg Br 67(4) : 581-584, 1985.
- 5) Keret D, Mendez AA, Harcke HT et al : Type V physeal injury : a case report. J Pediatr Orthop 10(4) : 545-548, 1990.
- 6) Matsuyama J, Mabuchi A, Zhang J, et al : A pair of sibs with tibial hemimelia born to

phenotypically normal parents. *J Hum Genet* 48(4) : 173-176, 2003.

7) Mendez AA, Bartal E, Grillot MB, et al : Compression (Salter-Harris Type V) physeal fracture : an experimental model in the rat. *J*

*Pediatr Orthop* 12(1) : 29-37, 1992.

8) Schoenecker PL, Capelli AM, Millar EA et al : Congenital longitudinal deficiency of the tibia. *J Bone Joint Surg Am* 71(2) : 278-287, 1989.

### **Abstract**

## Valgus Deformity in the Lower Limb after Tibiofibular Synostosis in Congenital Deficiency of the Tibia

Sayaka Fujiwara, M. D., et al.

Department of Orthopaedic Surgery, National Rehabilitation Center for Children with Disabilities

We report a case of a 12-year-old boy with valgus deformity in the lower limb with osteomyelitis at 4 years after tibiofibular synostosis surgery for congenital deficiency of the tibia. The boy had presented congenital deficiency in the tibia, at Jones type 2, and underwent tibiofibular synostosis at 8 years of age. Postoperatively the lateral epiphysis of the tibia became closed, and valgus deformity in the tibia gradually developed without trauma. At 12 years of age the boy presented gait disturbance. These findings suggest that epiphyseal deformity should be suspected after tibiosynostosis in congenital deficiency of the tibia, especially when presenting even slight varus or valgus deformity in the lower limb.