

6歳未満の症候性側弯症に対する 装具治療と矯正にかかわる因子の検討

森 本 時 光¹⁾・森 口 悠¹⁾・松 井 吉 裕²⁾・大 川 敦 子²⁾
藤 田 良²⁾・松 山 元 昭²⁾・美 延 幸 保²⁾・岩 崎 幹 季¹⁾
鈴 木 恒 彦²⁾・梶 浦 一 郎²⁾

1) 大阪大学大学院医学系研究科 器官制御外科学(整形外科)

2) 大阪発達総合医療センター 南大阪小児リハビリテーション病院

要 旨 進行性の早期発症側弯症(Early Onset Scoliosis : 以下, EOS)は日常生活に著しい障害を生じ得るが, 有効な治療法は確立されていない. 今回我々は, 独自に開発した動的脊柱装具(Dynamic Spinal Brace : 以下, DSB)を用い, 6歳未満の症候性側弯症患者に対する装具治療の有効性と矯正にかかわる因子について検討した. 12か月以上DSBを装着した35例(男15, 女20)を対象とした. 初診時平均年齢は 3.5 ± 1.2 歳, 平均観察期間は 28.3 ± 10.8 か月であり, 疾患内訳は脳性運動障害18例, 染色体異常13例, 脊髄疾患1例, その他3例であった. 経過中, 治療中止例は認めず, 17人(48.6%)が側弯の増悪を認めなかった. 本研究の結果, 症候性のEOSに対するDSB療法はコンプライアンスが良好で側弯の予防および改善が期待できる有用な治療法であり, 保存治療の選択肢となり得ると考えられた.

はじめに

早期発症側弯症(Early Onset Scoliosis : 以下, EOS)による脊柱変形は高度に進行すると日常生活に著しい障害を生じるのみならず, 重篤な呼吸障害生じ生命予後にも影響するため, 早期からの治療が必要である. 著者らは神経筋原性側弯症に対して動的脊柱装具(Dynamic Spinal Brace : 以下, DSB)を開発してきた(図1). ポリカーボネイト製の支柱と肋骨隆起支持部による3点支持とし, 支柱の弾性が矯正力と遊びを生じ, 体幹との接触が少なく装着の負担が軽い装具であることが特徴である. 本研究では6歳未満の症候性EOS患者に対するDSBを用いた装具療法の有効性と, DSBによる側弯の装具内矯正率(以下, 矯正

率)にかかわる因子を検討した.

新しい体幹装具の概要

1958年に側弯症手術後の外固定としてMilwaukee Braceが報告されて以来, 多くの側弯症装具が開発されてきた. 近年使用されているUnderarm Braceと呼ばれる胸・腰・仙椎装具(Thoraco-Lumbo-Sacral-Orthosis : TLSO)においては, 骨盤帯の形状はMilwaukee Braceを基本とし, 多くのものは硬性の材料を使用している. その骨盤帯を固定する形状が装着感の悪さとなり, 長期の継続が難しい場合も多い. 当施設では骨盤帯を固定することなく, 最小の支持点のみを弾性の材料で結ぶことにより, 固定ではなくて動的な矯正力と遊びを作り, 体幹における自律的な立ち直り反射の促通を期待する装具を作成した.

Key words : early onset scoliosis(早期発症側弯症), congenital scoliosis(先天性側弯症), conservative treatment(保存治療), bracing treatment(装具治療), spinal orthosis(脊椎装具)

連絡先 : 〒 565-0871 大阪府吹田市山田丘 2-2 大阪大学大学院医学系研究科器官制御外科学(整形外科) 森本時光
電話 (06)6879-3552

受付日 : 2013 年 4 月 30 日

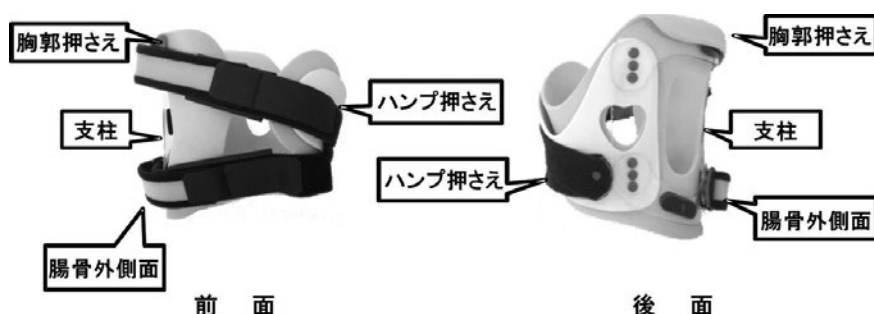


図1. DSB 前面および後面の写真

基本理念から、これを動的脊柱装具 Dynamic Spinal Brace、愛称として「プレーリーくん」と名付けた。

DSBの構造と特徴 製作・装着過程

支柱はポリカーボネイト製で側弯凹側の上部胸郭部と腸骨外側面(腸骨稜ではない)と側弯凸側の肋骨隆起部の押さえを三点支持の原理で結合する。皮膚との接触面は、柔らかい素材で、しかも、すべて凹面で体幹に沿っているので、矯正力が効果的に加わり痛みが生じないように配慮されている。

対象と方法

当院にて2007年10月から2012年11月までに症候性EOSに対してDSB治療を施行した65例中、①6歳未満から治療を開始した症例、②メインカーブCobb角(以下、Cobb角)が 10° 以上の症例、③12か月以上DSBを装着した症例、であることを満たす35例(男15例、女20例)を対象とした。疾患別内訳は脳性運動障害18例、染色体異常13例、脊髄疾患1例、その他3例であった。日本広範小児リハ評価セット(Japanese Assessment Set of Paediatric Extensive Rehabilitation: JASPER)を用いた運動機能分類では、走行1人(2.9%)、独歩5人(14.3%)、つかまり立ち2人(5.7%)、四つばい1人(2.9%)、座位3人(8.6%)、腹ばい2人(5.7%)、寝返り4人(11.4%)、背臥位17人(48.6%)であり、23人(65.7%)が初診時に坐位保持装置を使用していた。

調査項目として、カーブを構成する椎体数(以下、罹患椎体数)、初診時・最終診察時のDSB装

着時・非装着時Cobb角、矯正角度(非装着時Cobb角－装着時Cobb角)、DSBによる矯正率 $\{100 \times (\text{非装着時} - \text{装着時})\text{Cobb角} / \text{非装着時Cobb角}\}$ 、Harrington factor(Cobb角 / 罹患椎体数)を単純X線にて評価した。レントゲン撮影(X線管球-フィルム間距離 = 150 cm, 70 kV, 400 mA, 0.05 秒)は、当院で作成した検査用の椅子上座位での撮影であり、頭部および体幹部が傾倒する場合は側弯変形を矯正しない程度に技師が両手で頭部を支えた。Cobb角の計測は盲検化された3人の検者により行われ、検者間誤差は2乗平均平方根誤差(RMSE)により算出した。Cobb角は5度以上悪化した例を進行例、 ± 5 度未満の変化であったものを不変例、5度以上改善した例を改善例とし側弯の進行を評価した。

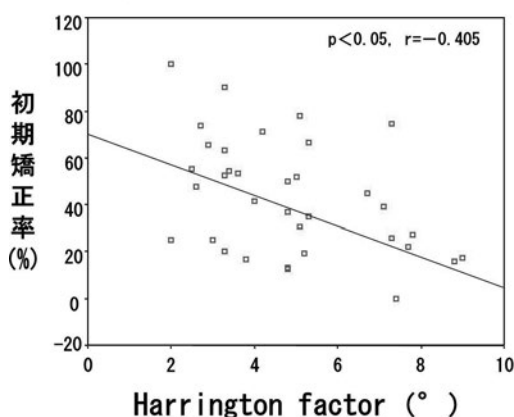
2群間の比較はWilcoxon signed-rank testを用いて、初期矯正率と初診時非装着時Cobb角、罹患椎体数、Harrington factor、および側弯の進行との相関はピアソンの順位相関係数を用いて分析し、 $p < 0.05$ を有意差ありとした。

なお、DSBに関するすべての研究活動はヘルシンキ宣言に基づいた当センター倫理委員会の臨床研究規程に則り、また個人情報および写真の使用に関してはすべて対象者の同意を得ている。

結果

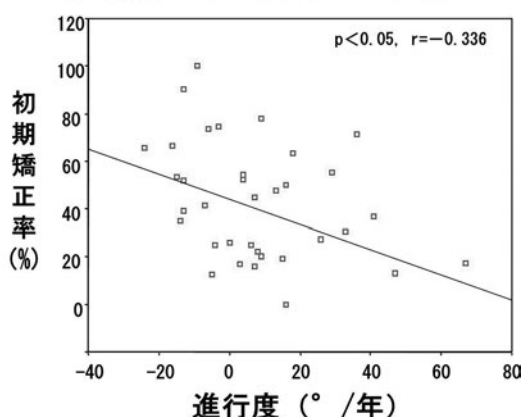
調査した全35症例の観察期間は 28.3 ± 10.8 か月(12～50か月)であったが、この期間に治療を中止した症例は認めなかった。初診時の平均年齢は 3.5 ± 1.2 歳(1歳7か月～5歳9か月)、平均非装着時Cobb角は $36.9 \pm 17.5^\circ$ ($12 \sim 88^\circ$)、平均装

Harrington factorと初期矯正率



(a)

初期矯正率と側弯の進行度



(b)

図2. 装具による変形矯正とそれに関わる因子の散布図

a: 初期矯正率と Harrington factor

b: 初期矯正率と側弯の進行度

着時 Cobb 角は $22.6 \pm 16.9^\circ$ ($0 \sim 74^\circ$) であり, DSB 装着により優位 ($p < 0.000001$) に Cobb 角の矯正が得られていた. また, 平均罹患椎体数は 8.7 ± 2.1 椎体 ($5 \sim 12$ 椎体), 平均矯正率は $43.3 \pm 24.4\%$ ($0 \sim 100\%$), 平均矯正角度は $14.3 \pm 7.9^\circ$ ($0 \sim 38^\circ$) であった. 最終診察時の平均非装着時 Cobb 角は $44.7 \pm 30.0^\circ$ ($5 \sim 130^\circ$), 平均装着時 Cobb 角は $30.4 \pm 24.7^\circ$ ($0 \sim 96^\circ$) であり, DSB 装着により優位 ($p < 0.000001$) に Cobb 角の矯正が得られていた. また, 平均矯正率は $38.7 \pm 28.6\%$ ($-14.3 \sim 100\%$), 平均矯正角度は $15.1 \pm 11.5^\circ$ ($-2 \sim 43^\circ$) であり, 装具内矯正率は維持されていた. 平均観察期間は 28.3 ± 10.8 か月であり, 1日の平均装着時間は 8.4 時間 ($2 \sim 22$ 時間) であった. 検者間誤差は 2.92° であった. 側弯の進行度に関しては, 進行例が 18 人 (51.4%), 不変例が 6 人 (17.1%), 改善例が 11 人 (31.4%) であった.

初期矯正率に関わる因子の検討では, 罹患椎体数とは有意な相関を認めなかったが, Harrington factor との間に負の相関 ($r = -0.405$, $p < 0.05$) を認め (図 2-a), 側弯の進行度との間には弱い負の相関を認めた ($r = -0.336$, $p < 0.05$) (図 2-b).

以下に症例を提示する.

症例 1: 2 歳 8 か月, 脳性麻痺. 右に凸の側弯

を有し, 左への体幹側方移動のため DSB を使用しない車椅子上の座位では頭部が左に傾倒する (図 3-a). 従来は大きかりな座位保持装置を使用して安定を得ていた (図 3-b). DSB を用いた場合, 側弯変形が矯正され, 頭部が骨盤中央直上に位置し, 車椅子での座位が著明に安定化した (図 3-c). 2 年 4 か月後の X 線写真では側弯は進行していたが (図 4-a,b,c,d), 依然として DSB 着用時の矯正は明らかであり, 装着により座位での安定を得ていた.

症例 2: 2 歳 11 か月, 染色体異常. 右に凸の側弯変形のため (図 5-a), 座位の保持には両手の支持が必要である (図 6-a). DSB 着用により側弯は改善され (図 5-b), 座位が安定化した (図 6-b). 3 年 3 か月後の X 線写真では, DSB 非着用時の Cobb 角がやや改善し (図 5-c), DSB が側弯の進行を予防している可能性が示された. また着用時の矯正も依然として良好であった (図 5-d).

考 察

EOS では, 進行に伴い体幹の変形やバランス不良, 疼痛をきたして日常生活に著しい障害を生じるばかりではなく, 無治療で高度に進行した場合, 体躯短縮や胸郭変形による胸郭不全症候群

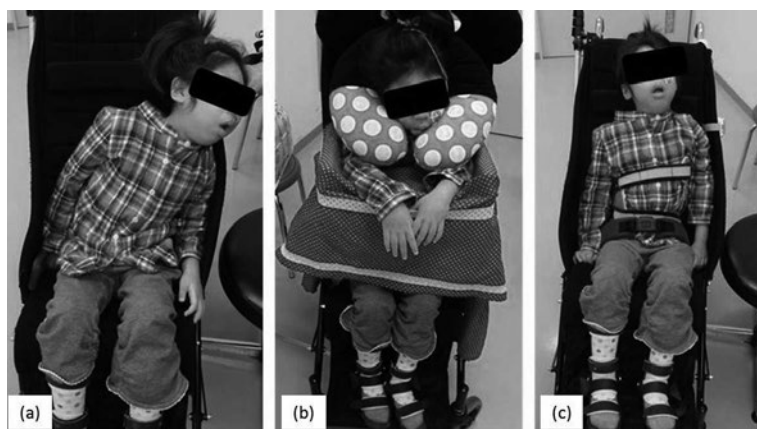


図 3. 症例 1：脳性麻痺

a：DSB 非装着時の車椅子座位

b：車椅子座位保持装置を用いた座位

c：DSB 着用時の車椅子座位

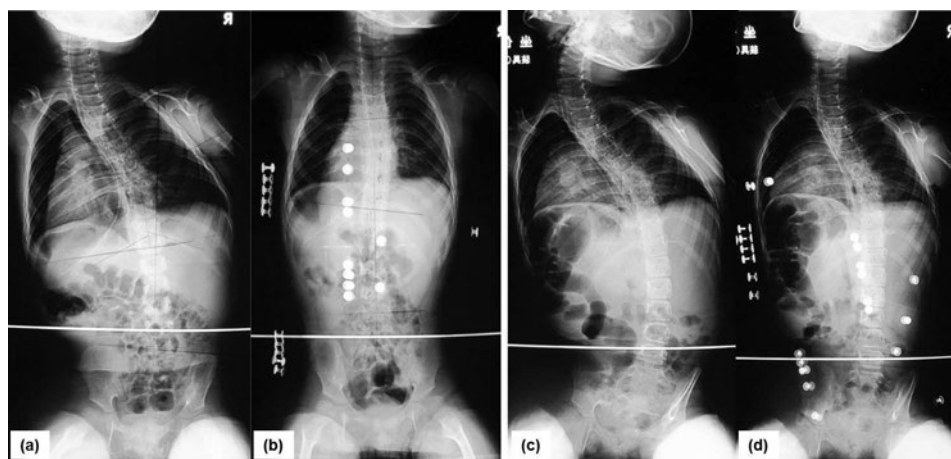


図 4. 症例 1：脳性麻痺. 全脊椎座位正面撮影の単純 X 線写真

a：DSB 非装着時(2歳8か月)Cobb 角 33°

b：DSB 装着時(2歳8か月)Cobb 角 11°

c：DSB 非装着時(5歳)Cobb 角 54°

d：DSB 装着時(5歳)Cobb 角 29°

(Thoracic Insufficiency Syndrome：TIS)などの重篤な呼吸障害の原因となり、生命予後にも影響する⁸⁾。その病因はさまざまで特発性側弯症のみならず、先天性や神経原性などの非特発性側弯と多岐にわたるが、明確な治療戦略が確立されていないため、脊柱変形治療において最も難渋する領域の一つである。手術療法では、Growing rod 法や VEPTR (Vertical Expandable Prosthetic Titanium Rib implant) など脊椎成長能を温存する手術が必要となるが、多数回手術の侵襲性と高い合

併症率など問題点も多い⁹⁾。

一方で保存治療は、側弯の進行予防や手術を遅らせるために装具や Cast 治療が開発されてきた。渡邊らは 5 例の EOS (特発性 3 例，症候性 2 例) に対して Cast 治療を行い、悪化を遅らせる time saving として有効であると報告している¹⁰⁾。また、Bauleshn らの研究では Cast 治療における合併症発生率は 19% であり、特発性 EOS に対して非特発性 EOS は治療効果が低い傾向があることを報告した²⁾。また、装具や Cast による保存治

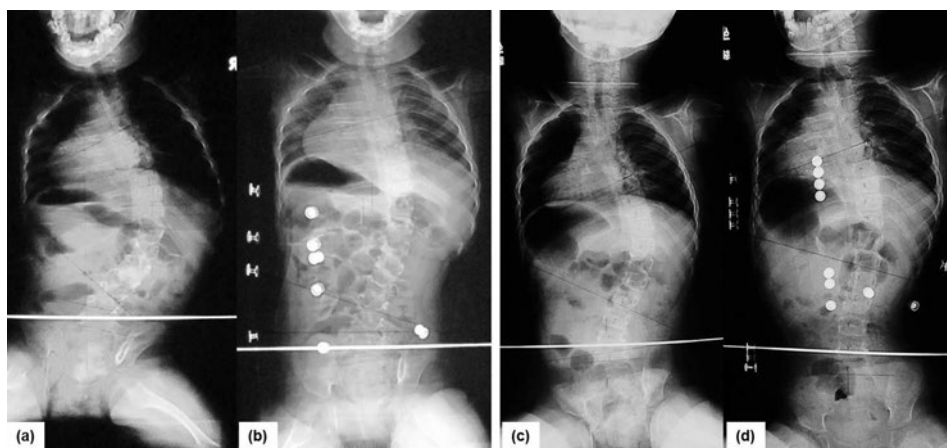


図 5. 症例 2: 染色体異常. 全脊椎座位正面撮影の単純 X 線写真

- a: DSB 非装着時(2 歳 11 か月)Cobb 角 68°
- b: DSB 装着時(3 歳 1 か月)Cobb 角 33°
- c: DSB 非装着時(6 歳 2 か月)Cobb 角 51°
- d: DSB 装着時(6 歳 2 か月)Cobb 角 31°



図 6. 症例 2: 染色体異常. 座位時の背部写真

- a: 右に凸の側弯変形のため, 座位の保持には両手の支持が必要である.
- b: DSB 着用により座位が安定化した.

a|b

療ではコンプライアンスが問題となるが^{6,7)}, とりわけ症候性 EOS では併存疾患や奇形を伴うことも多く, 特発性側弯症患者と異なる全身状態か

ら保存治療の継続が難しい⁵⁾.

本研究では, 症候性 EOS35 例に対して神経筋原性側弯症の治療目的に開発した脊椎装具 DSB

を用いて保存治療を行った。DSBは軽量で骨盤部を圧迫しない形状のためコンプライアンスが高く⁴⁾、今回の観察期間中においても治療中止例を認めなかった。短期間の観察であり、またEOSにおいては自然寛解する症例の存在を念頭に置く必要があるが、約半数の症例で側弯の進行を認めず、さらにDSBによる装具内矯正率が高い一部症例では装具を外した状態で側弯変形の改善を認めた。加えて、本研究においてはDSB装着後に座位バランスの改善を認め、座位保持装置から離脱可能であった症例も散見された。DSBにより脊椎アライメントが改善したこと、自律的な立ち直り反射の促進によって体幹バランスが改善したことなどが座位バランス改善の一因であると考えられるが、その他の因子の関与も考えられるため今後詳細な検討が必要であると考えられる。また、現在我々はDSB装着前後における座圧分布を計測しており、DSB装着後に座圧の左右差が改善傾向を示すことも確認している。座位バランス改善を証明する根拠にもなり得ると考えているが、今後とも症例を増やして因果関係を解析予定である。このような良好なコンプライアンスと臨床経過から、DSBは症候性EOSに対する保存治療の選択肢となり得ると考えられる。

DSBによる初期矯正率に関する検討では、Harrington factorが低い程、初期矯正率は高く、また初期矯正率が高い症例ほど短期の観察期間内での側弯の進行が抑えられる傾向があった。初期矯正率との関連は思春期特発性側弯症では、20%以上であれば治療終了時での進行予防の可能性³⁾、30~40%以上では改善の可能性¹⁾が報告されているが、症候性EOSにおけるDSB療法では平均初期矯正率が43.3%と高く、なかでもHarrington factorが低い症例は長期観察でも進行予防の効果が期待できる。今後は、症例数と観察年数を増加させて、DSBによる側弯の予防および改善が期待できる側弯変形のパターンを明らかにしていく予定である。

結 語

EOSに対するDSB療法はコンプライアンスが良好で側弯の予防および改善が期待できる有用な治療法であり、保存治療の選択肢となり得ると考えられた。

文献

- 1) Appelgren G, Wilner S: End vertebra angle - a roentgenographic method to describe a scoliosis. A follow-up study of idiopathic scoliosis treated with the Boston brace. *Spine* **15** : 71-74, 1990.
- 2) Baulesh DM, Huh J, Judkins T et al: The role of serial casting in early-onset scoliosis (EOS). *J Petiatr Orthop* **32**(7) : 658-663, 2012.
- 3) Castro FP Jr: Adolescent idiopathic scoliosis, bracing, and the Hueter-Volkman principle. *Spine J* **3** : 180-185, 2003.
- 4) 梶浦一郎, 森口 悠, 岩崎幹季ら: 脳性麻痺にみられる側弯に対する新しい装具(Dynamic Spinal Brace)による治療報告(第一報). *脊柱変形* **24**(1) : 65-69, 2009.
- 5) Kotwicki T, Jozwiak M: Conservative management of neuromuscular scoliosis: Personal experience and review of literature. *Disability and Rehabilitation* **30**(10) : 792-798, 2008.
- 6) Nicholson GP, Ferguson-Pell MW, Smith K et al: The objective measurement of spinal orthosis use for the treatment of adolescent idiopathic scoliosis. *Spine* **28** : 2243-2250, discussion 50-1.
- 7) Noonan KJ: Adolescent idiopathic scoliosis : nonsurgical techniques. In *The Pediatric Spine: Principles and Practice* (Weinstein SL ed). 2nd ed., Lippincott Williams & Wilkins, Philadelphia, 371-383, 2001.
- 8) Pehrsson K, Larsson S, Oden A et al: Long-term follow-up of patients with untreated scoliosis. *Spine* **17**(9) : 1091-1096, 1992.
- 9) Sharma S, Wu C, Andersen T et al: Prevalence of complications in neuromuscular scoliosis surgery: a literature meta-analysis from the past 15 years. *Eur Spine J* **22**(6) : 1230-1249, 2013.
- 10) 渡邊英明, 吉川一郎, 雨宮昌栄ら: 乳幼児期発症側弯症に対するRisser-Cotrel cast日小整会誌 **20**(1) : 36-39, 2011.

Abstract

Bracing Treatment for Syndromic Scoliosis in the Patients under 6 years of Age and Analysis of Correlation between Correction and Curve Pattern.

Tokimitsu Morimoto, M. D., et al.

Department of Orthopedic Surgery, Graduate School of Medicine, Osaka University Osaka

Early Onset Scoliosis(EOS)including infantile and juvenile scoliosis subtypes is typically progressive and is associated with poor pulmonary function and increased mortality. Although early treatment should be needed to prevent curve progression and support adequate lung growth and function, EOS encounters a great challenge in both surgical and conservative treatment. We have newly developed a spinal brace named Dynamic Spinal Brace(DSB; Prairie-kun), which is a custom-molded, polycarbonate orthosis characterized by lightness and flexibility. Unlike the other underarm orthoses, DSB does not fix the pelvic girdle rigidly and so it potentially contributes to good compliance with bracing. We have performed DSB treatment in 35 syndromic EOS patients. No patient withdrew DSB treatment, and about half of the patients did not exacerbate scoliosis during the period of observation. We conclude that a DSB treatment could be one of the options for syndromic EOS treatment, because it may inhibit the scoliosis progression and retard the time to proceed to surgical treatment.