

# 骨形成不全症に発生した肘頭骨端線損傷を認めた1例

藤沢湘南台病院 整形外科

加藤卓也・大山晃二・福田潤・川口行雄  
小柳匡史・黒田元希

**要旨** 【目的】小児における肘頭骨端損傷は非常に稀である。今回我々は骨形成不全症患者における肘頭骨端損傷の1例を経験したので報告する。【対象・方法】症例は12歳の男性で3回の骨折歴があり、健康診断で青色強膜を指摘されていた。受傷機転は自転車から左手をつく形で転倒した。X線像より肘頭骨端損傷と診断された。骨折型はSalter-Harris II型で観血的整復固定術(Tension Band Wiring法)を施行した。【結果】肘頭骨端損傷に対して手術を施行し、術後経過は良好で術後6か月で抜釘術を施行した。可動域はわずかに伸展制限を認めた。対側肘頭骨端損傷は経過観察中認められなかった。【結論】肘頭骨端損傷は非常にまれであり、遭遇した場合は骨形成不全症の可能性を想定し、対側骨端損傷の注意を喚起する必要がある。

## はじめに

小児における肘頭骨端損傷は全骨端損傷の0.7%と非常にまれである。今回我々は骨形成不全症患者における肘頭骨端損傷の1例を経験したので報告する。

## 症例

症例は12歳男性で身長は150 cm、体重30kgであった。発達歴に特記すべき事項はなかった。既往症は3回の骨折歴があり、左膝2回、右膝1回でいずれも他院で保存療法を受け治癒していた。8歳のとき、学校の健康診断で青色強膜を指摘された。家族歴で骨折歴はなかった。

現病歴は2010年3月、自転車から左手をつく形で転倒し近医を受診した。肘頭骨端損傷の診断で受傷後5日目に当院紹介受診となった。受傷時のX線像でSalter-Harris II型であった(図1)。受傷後12日目にK-Wire 1.2 mm、Soft wire 0.9



図1. 受傷時 X線像 Salter-Harris II型

mmを使用し tension band wiring法で手術を施行した(図2)。後療法は術後2週で自動可動域訓練を開始し、術後4週で外固定を除去し他動可動域訓練を開始した。術後6か月で骨癒合良好と判断し、抜釘術を施行した(図3)。術後7か月で伸展 $-10^{\circ}$ 、屈曲 $140^{\circ}$ であった。

## 考察

小児における肘頭骨折は非常にまれであり、骨

**Key words** : olecranon epiphysiolysis(肘頭骨端線損傷), osteogenesis imperfecta(骨形成不全症), type of Salter-Harris(Salter-Harris分類), triceps expansion

連絡先 : 〒252-0802 神奈川県藤沢市高倉2345 藤沢湘南台病院 整形外科 電話(0466)44-1451

受付日 : 2013年8月22日

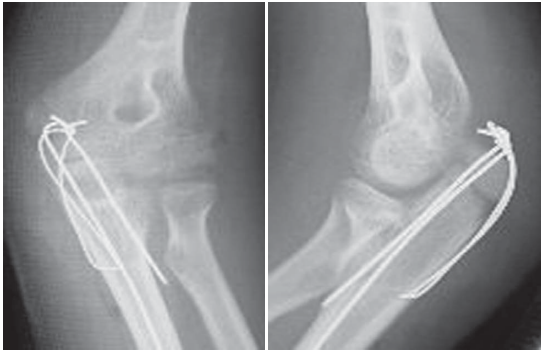


図2. 術後 X線像

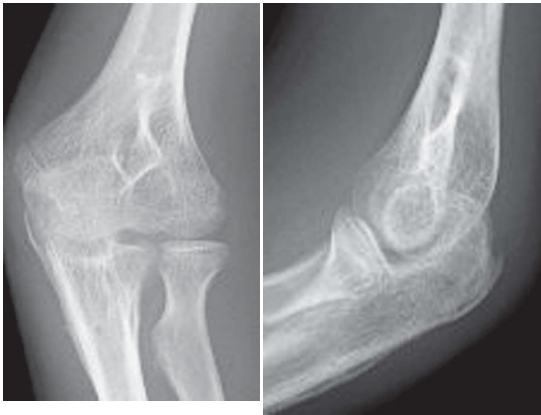


図3. 抜釘後 X線像

幹端骨折は全骨折の4~8%, 骨端損傷は0.7%である。骨端損傷に対しては基礎疾患を伴っていることが多く、骨形成不全症がその代表的疾患である。骨形成不全症は遺伝性疾患ではあるが、遺伝

子サイズが大きいため遺伝子診断での確定診断はほとんど行われていないのが現状である。頻度は1万人当たり0.193人であり、青色強膜、歯牙損傷、家族歴で臨床的に診断されている。重症度に応じてSilence分類によりI A~IV Bの6つに分類される。本症例では青色強膜を認め、歯牙損傷・聴力障害を認めなかったことからSilence type I Aと判断した。今回の研究のようにSalter-Harris II型の骨端損傷がまれである理由は、年齢による肘頭の骨化、受傷機転、骨形成不全症の病態を理解することにある。

年齢による肘頭の骨化に関して、骨端線の閉鎖には個人差があるが、8~9歳で肘頭骨化核が出現する。この頃、上腕三頭筋は軟骨に局限して付着している。10~13歳で上腕三頭筋は骨幹端にも付着する。13~14歳で骨端核の癒合が開始する。14~15歳で癒合は完成する。

受傷機転は諸家の報告にあるように、肘関節屈曲位での介達外力による上腕三頭筋の強い牽引力で発生することが多いとされている<sup>2)5)6)</sup>。

骨形成不全症の病態としては、主に2つが大きく関与している。一つはType1 Collagen異常であり関節軟骨の力学的強度が低下すること、もう一つは腱靭帯成分の脆弱性があることである<sup>3)5)9)</sup>。肘頭付近は上腕三頭筋腱膜の延長であるTriceps Expansionが存在しており、今回の症例

表1. 骨形成不全症に伴う肘頭骨端線損傷の報告

	症例数	両側例	他部位の骨折	受傷年齢
Stott	5	2	脛骨, 大腿骨等	9歳7ヵ月
Zionts	10	7	脛骨, 上腕骨等	10歳
Gwyrnne	3	3	脛骨, 中足骨等	12歳1ヵ月
Mudgal	1	1	あり(詳細不明)	13歳
Gicquel	2	1	不明	—
Evans	6	2	不明	—
Gamou	4	1	—	11歳7ヵ月
Gose	1	0	尺骨, 脛腓骨	8歳
Nii	2	1	大腿骨, 前腕骨	10歳10ヵ月
Suzuki	1	1	踵骨	—
Onda	1	1	—	9歳
Inui	1	1	—	12歳
Nasu	1	1	踵骨	—
Usui	3	2	—	10歳8ヶ月~13歳
Furukawa	3	0	あり(詳細不明)	10歳7ヶ月
自験例	1	0	脛骨	12歳

の年齢では骨端線を越えて骨幹端にも付着している。一般的な小児にこの年齢で骨折が起こるとすると、骨幹端よりも遠位での骨折が発生するが、骨形成不全症患者はこの Triceps Expansion の脆弱性により破綻をきたし、かつ関節軟骨に異常をきたしているため、通常では起こりにくい Salter-Harris II 型の骨端損傷が起こる。同様の報告は我々の報告を除くと15件でみられた(表1)。報告の中では両側の骨端損傷が多くみられる。特に Zions<sup>9)</sup>は10例中7例に平均15.1か月で対側の肘頭骨端損傷が起こったと報告している。我々の渉猟しうる範囲では、38例中22例で対側肘頭骨端損傷が起こり、57.9%の受傷率であった。また、白井<sup>7)</sup>の報告によると、40例59骨折のうち両側肘頭骨端損傷は45%としている。今回の我々の研究では、Follow Up できた術後3年半の経過で対側の肘頭骨端損傷は認めなかった。報告による頻度を見る限りでは、Salter-Harris II 型の肘頭骨端損傷を経験した場合は、骨形成不全症の可能性を想定する必要がある。また、患者およびその家族に対側肘頭骨端損傷の可能性を説明し、注意を喚起する必要がある。

#### 参考文献

- 1) Gwynne-Jones DP: Displaced olecranon apophyseal fractures in children with

osteogenesis imperfecta. J Pediatr Orthop. 25 (2) : 154-157, 2005.

- 2) 蒲生和重, 村瀬 剛, 廣島和夫ほか: 骨形成不全症における小児肘頭骨骨折. 日肘会誌 10 : 153-154, 2003.
- 3) 御勢真一, 川端秀彦, 三木健司ほか: 小児骨形成不全症に発生した肘頭骨端線損傷. 整形外科 53 (2) : 198-199, 2002.
- 4) Mudgal CS: Olecranon fractures in osteogenesis imperfecta: A case report. Acta Orthop Belgica 58 (4) : 453-456, 1992.
- 5) 二井英二, 浦和真佐夫, 西村淑子ほか: 小児骨形成不全症にみられた肘頭骨骨折. 臨整外 42 : 477-481, 2007.
- 6) Scott NS, Zions LE: Displaced fractures of the apophysis of the olecranon in children who have osteogenesis imperfecta. J Bone Joint Surg Am 75 : 1026-1033, 1993.
- 7) 白井 岳, 鈴木義司, 土井 俊ほか: 骨形成不全症にみられた肘頭骨端線損傷の5症例. 中部日本整形外科災害外科学会雑誌 52 (6) : 1481-1482, 2009.
- 8) Wilkins KE: Fractures involving the proximal apophysis of the olecranon: In Rockwood and Wilkins' Fractures in children, Lippincott, Philadelphia, 751-757, 1991.
- 9) Zions LE, Moon CN: Olecranon apophysis fractures in children with osteogenesis imperfecta revisited: J Pediatr Orthop 22 : 745-750, 2002.

### Abstract

## Olecranon Epiphysiolysis in Osteogenesis Imperfecta

Takuya Kato, M. D., et al.

Department of Orthopaedic Surgery, Fujisawashounandai Hospital

There are very few reports of a fracture in the olecranon apophysis occurring in childhood. Here we report a rare case of olecranon epiphysiolysis in osteogenesis imperfecta in a 12-year-old boy. The patient fell while riding his bicycle and landed on his left hand. Radiographs showed a Salter-Harris type-II fracture in the olecranon apophysis. He presented blue sclera and a history of three fractures. Treatment involved tension band wiring for six months, and was uneventful. After removal of the wires, there was slight limitation in the range of motion. In cases of a fracture in the olecranon apophysis, we should consider osteogenesis imperfecta, as well as the risk to any contralateral fracture..