

日本小児整形外科学会雑誌

Journal of Japanese
Pediatric Orthopaedic
Association

第23巻第2号

Vol. 23 No. 2 2014



日本小児整形外科学会雑誌

Journal of Japanese Pediatric Orthopaedic Association

Vol. 23 No. 2



第 23 回学術集会 発表論文

先天性股関節脱臼治療後のペルテス様変形の検討… 今嶋由香理	ほか…265
島根県江津市における乳児先天股脱超音波検診の現状	
…………… 星野弘太郎	ほか…271
大腿骨頭すべり症の転子間骨切り後に FAI に対して	
鏡視下 bumpectomy を施行した 1 例 …………… 遠藤裕介	ほか…276

第 24 回学術集会 発表論文

重度脳性麻痺児の股関節脱臼に対する大腰筋腱移行術を併用した	
両股関節周囲筋解離術の脱臼整復効果と限界…………… 松村崇史	ほか…281
小児手部マムシ咬傷に対して抗毒素血清投与と減張切開を行った 1 例	
…………… 畑中 渉	…285
發育性股関節形成不全初期治療後の臼蓋形成不全に対する	
ソルター骨盤骨切り術の長期成績不良因子…………… 金子浩史	ほか…289
無痛症 2 症例における骨折後仮骨過形成についての検討	
…………… 清水勇人	ほか…295
当院の若年性特発性関節炎(JIA)の主訴と特徴 …… 矢吹さゆみ	ほか…299
内反凹足変形に対するギブス矯正療法の新たな試み… 金城 健	ほか…304
大腿骨に発生した単骨性線維性骨異形成に対する手術治療の成績	
…………… 大庭真俊	ほか…308
重度脳性麻痺児の股関節亜脱臼, 脱臼に対する軟部組織解離術と	
大腿骨減捻内反骨切り術の併用手術の中期成績…………… 則竹耕治	ほか…314
大腿骨前捻角症候群における大腿骨減捻骨切り術に対する	
髄内釘の使用経験…………… 松田蓉子	ほか…322
小児の痙性尖足に対する腓腹筋への A 型ボツリヌス毒素の	
初回時効果の検討…………… 中西芳広	ほか…328
痙性尖足歩行例に対するボツリヌス治療の短期成績… 水野稚香	ほか…333
先天性内反足における Ponseti 法の短期治療成績—再発予測因子の検討—	
…………… 平良勝章	ほか…339
愁訴のない手指にも MRI 輝度変化のあった	
足趾発症 microgeodic disease の一例 …………… 萩原佳代	ほか…343
浜松市乳児股関節健診の現状と検討…………… 古橋弘基	ほか…348
基礎疾患を有する先天性内反足に対する Ponseti 法の初期治療成績	
…………… 根本菜穂	ほか…352
小児の肝性骨栄養症に伴う骨折…………… 大矢昭仁	ほか…356
Ponseti 法による先天性内反足治療後 4 歳以降で再発した症例についての	
検討…………… 名倉温雄	ほか…362
多発外傷あるいは多発骨折を合併した小児大腿骨骨折の治療経験	
…………… 対比地加奈子	ほか…367
脳性麻痺股関節亜脱臼, 脱臼に対する	
整形外科的選択的痙性コントロール手術の中期成績	
…………… 松尾 篤	ほか…372
小児橈骨頭単独脱臼骨折の 1 例…………… 鶴崎翠子	ほか…379
大腿骨に発生した Focal Fibrocartilaginous Dysplasia の一例	
…………… 村山 瑛	ほか…384
Gorham 病による大腿骨病的骨折の 1 例…………… 松村宣政	ほか…389
第 2 趾多趾症の治療経験…………… 神谷庸成	ほか…395
自由投稿論文	
当センターにおけるボツリヌス治療の現状…………… 平島淑子	ほか…398
58 歳で人工股関節置換術を施行されたペルテス病の 1 例	
…………… 志賀康浩	ほか…402

< JPOA Asian Fellows >

Atlanto-Axial Rotatory Fixation in Children : Comparison of

Clinical Findings and Outcomes by Etiology	Kiyotaka Ohtani ほか	407
Is There Any Benefit to Using Botulinum Toxin Type A in the Treatment of Lower Limb Spasticity in Younger Age Children with Cerebral Palsy ?	Ashok N Johari ほか	416
Limb Lengthening in Achondroplasia	Maurizio Catagni ほか	427
Efficacy of Antibiotic Impregnated Allogenic Bone Graft as Local Antibiotic Delivery System in Controlled Osteoarticular Infection	Lakhwani OP ほか	433
Old Monteggia Treatment with Open Reduction and Z-Lenthening Technique with Annular Ligament Reconstruction	Perajit Eamsobhana ほか	441
2012 年度後期 Murakami-Sano-Sakamaki Asia Visiting Fellowship 報告	星野弘太郎	450
KPOS-TPOS-JPOA Exchange Fellowship 訪問記 ...	河野裕介	454
理事長挨拶(齋藤知行).....		457
議事録(理事会・臨時理事会).....		458
第 26 回日本小児整形外科学会会告(会長：清水克時)		476

複写をご希望の方へ

日本小児整形外科学会は、本誌掲載著作物の複写に関する権利を一般社団法人学術著作権協会に委託しております。

本誌に掲載された著作物の複写をご希望の方は、(社)学術著作権協会より許諾を受けて下さい。但し、企業等法人による社内利用目的の複写については、当該企業等法人が社団法人日本複写権センター((社)学術著作権協会が社内利用目的複写に関する権利を再委託している団体)と包括複写許諾契約を締結している場合にあっては、その必要はございません(社外頒布目的の複写については、許諾が必要です)。

権利委託先 一般社団法人学術著作権協会
〒107-0052 東京都港区赤坂 9-6-41 乃木坂ビル 3F
FAX : 03-3475-5619 E-mail : info@jaacc.jp

複写以外の許諾(著作物の引用、転載、翻訳等)に関しては、(社)学術著作権協会に委託致していません。直接、日本小児整形外科学会 電話(03)5803-7071, FAX(03)5803-7072, E-mail : jpoa@jpoa.org へお問い合わせください

Reprographic Reproduction outside Japan

Making a copy of this publication

Please obtain permission from the following Reproduction Rights Organizations(RROs)to which the copyright holder has consigned the management of the copyright regarding reprographic reproduction.

Obtaining permission to quote, reproduce ; translate, etc.

Please contact the copyright holder directly.

→Users in countries and regions where there is a local RRO under bilateral contract with Japan Academic Association for Copyright Clearance(JAACC)
Users in countries and regions of which RROs are listed on the following website are requested to contact the respective RROs directly to obtain permission.

Japan Academic Association for Copyright Clearance(JAACC)

Address 9-6-41 Akasaka, Minato-ku, Tokyo 107-0052 Japan

Website <http://www.jaacc.jp/>

E-mail info@jaacc.jp Fax : +81-33475-5619

先天性股関節脱臼治療後のペルテス様変形の検討

国立病院機構大阪医療センター

今 嶋 由香理・北 野 元 裕・上 田 孝 文

要 旨 【目的】当科で施行した先天性股関節脱臼治療後にペルテス様変形(ペ変)を生じた症例を検討すること。【対象】1991～2002年に当科で行った先天性股関節脱臼治療後にペ変を生じた症例のうち、Y軟骨閉鎖まで経過観察し得た17例19股。【方法】最終整復法別に最終調査時のX線学的評価を行い、骨頭変形はKalamchi&MacEwen分類、最終成績はSeverin分類で評価した。【結果】最終整復法がリーメンビューゲル症例(Rb群)は6股、観血的整復術(Open Reduction: 以下、OR)を要した症例(OR群)は13股だった。X線学的評価および骨頭変形の程度は、両群間で有意差を認めなかった。整復方法と最終成績のSeverin分類に関しては、OR群で成績不良(Severin分類Ⅲ、Ⅳ)を多く認めた。【まとめ】OR以前の治療のみならず、ORそのものがペ変に影響を及ぼしている可能性が考察された。

はじめに

先天性股関節脱臼(Congenital Dislocation of the Hip: 以下、CDH)治療においてペルテス様変形(以下、ペ変)を予防することは重要な課題である。リーメンビューゲル(Riemenbügel: 以下、Rb)治療マニュアルでは、Rbを用いた整復法のペ変発生率は5～15%³⁾⁵⁾⁶⁾とされている。しかし、前外方進入法による観血的整復術(Open Reduction: 以下、OR)がペ変発生に与える影響は不明な点が多い。今回我々は、当科におけるOR後のペ変症例を検討したので報告する。

対 象

1996年から2001年の間に当科で治療を行ったCDHのうち、整復後1年時の単純X線像でSalterの基準によりペ変と診断され、Y軟骨閉鎖まで調査できた17例19股、男性3例3股、女性14例16股を対象とした。これらのうち、最終整

表1. OR群: OR以前に施行された治療法

Rb	9股
Over Head Traction (OHT)	1股
Rb+OHT	1股
未治療	2股

復法がRbだった6股をRb群、ORだった13股をOR群とした。OR群のペ変発生率は56.4%(23股中13股)であったが、Rb群では母数の全例把握が困難で、ペ変発生率は不明である。ORに至る以前に行われた治療法は、表1のとおりである。また、ORは全例で前外方進入法を施行し、関節包は全周性に切開した。内反した関節唇は用手的に外反させたが、外反できない場合には放射状切開を加え外反させた。内転筋切離は行ってい

Key words : avascular necrosis(ペルテス様変形), open reduction(観血的整復術), congenital dislocation of the hip(先天性股関節脱臼)

連絡先 : 〒540-0006 大阪府大阪市中央区法円坂2-1-14 大阪医療センター 今嶋由香理 電話(06)6942-1331

受付日 : 2014年3月15日

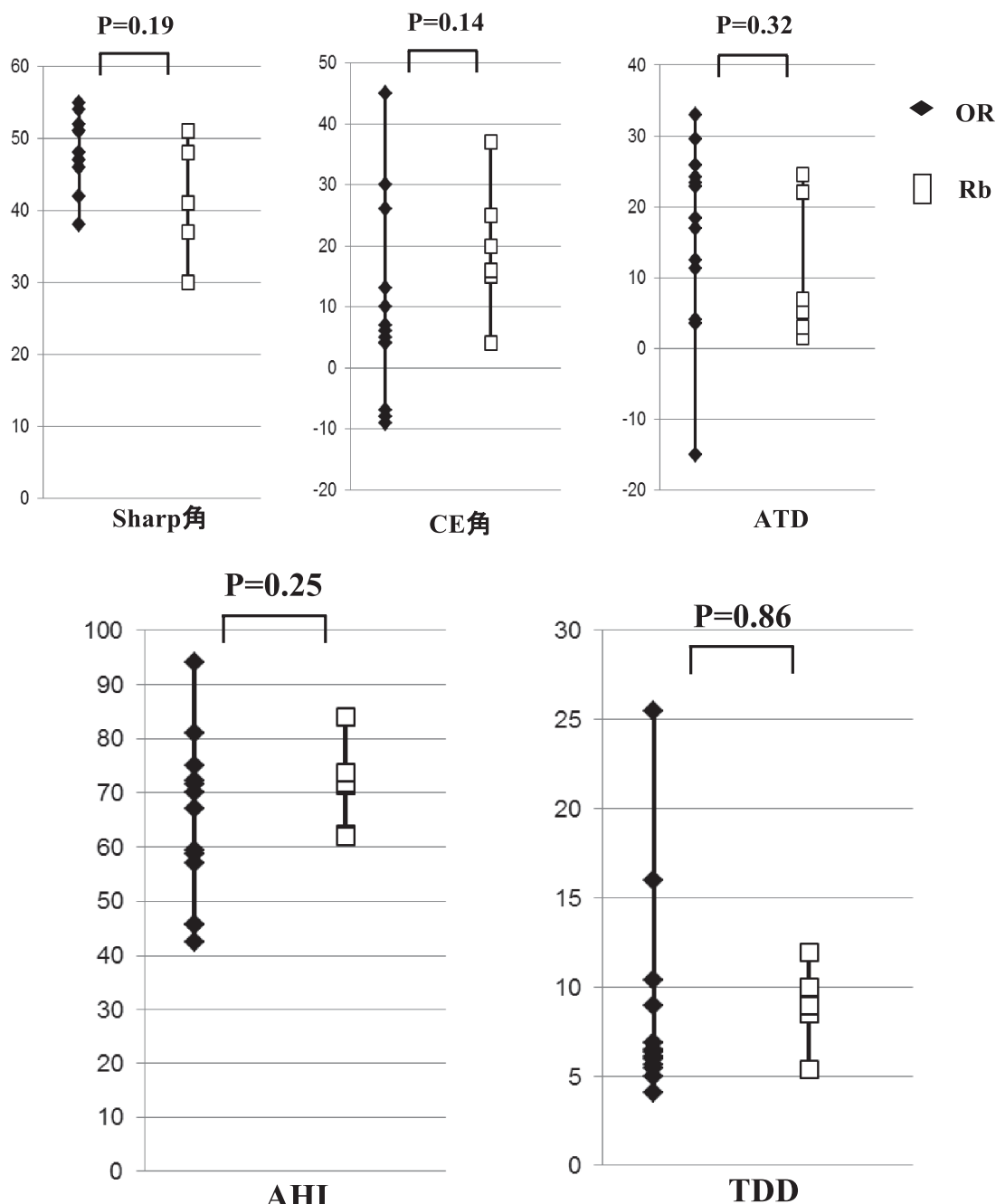


図1. 最終調査時 X 線学的評価
いずれの項目も両群間に有意差は認めなかった。

ない。術後は Lange 肢位で hip spica cast 固定を 6 週間行った。

Rb 群の整復時平均月齢は 5.5 か月 (4~6 か月)、最終調査時平均年齢は 13.0 歳 (11~16 歳)、OR 群の整復時平均月齢は 9.5 か月 (7~16 か月)、最

終調査時平均年齢は 13.7 歳 (10~21 歳) であった。

方 法

これらの症例に対し、最終調査時 X 線学的評価として、Sharp 角、Center-Edge (CE) 角、Ar-

表 2. Kalamchi & MacEwen 分類

	I	II	III	IV
Rb群	1	4	0	1
OR群	2	6	1	4

表 3. Severin 分類

	I a	I b	II a	II b	III a	III b	IV a	IV b
Rb群			3 (2)	1	1	1 (1)		
OR群	1		2		3 (1)	4 (1)	1 (1)	2 (1)

() 補正手術を受けた症例

ticulo-Trochanteric Distance(ATD), Acetabular Head Index(AHI), Teardrop Distance(TDD)を調査し, 骨頭変形はKalamchi & MacEwen(K & M)分類, 最終成績は全例最終調査時をend pointとしSeverin分類で評価した.

結 果

最終調査時のX線学的評価は各項目ともRb群, OR群で有意差は認めなかった(図1). 骨頭変形はOR群でK & M分類グループIVを多く認めたが, 両群間に有意差はなかった(表2). またRbとORの整復方法の違いと最終成績のSeverin分類に関しては, OR群で成績不良(Severin分類Ⅲ, Ⅳ)を多く認めた(表3). 補正手術は19股中7股に施行され, その7股中5股は最終Severin分類も不良であった.

症例提示

症例1: 9か月, 女児. 4か月検診で開排制限を指摘され前医を受診. 左CDHと診断され, 前医で牽引治療を受けたが整復されず当科紹介となった. 生後10か月時にORを施行し整復した

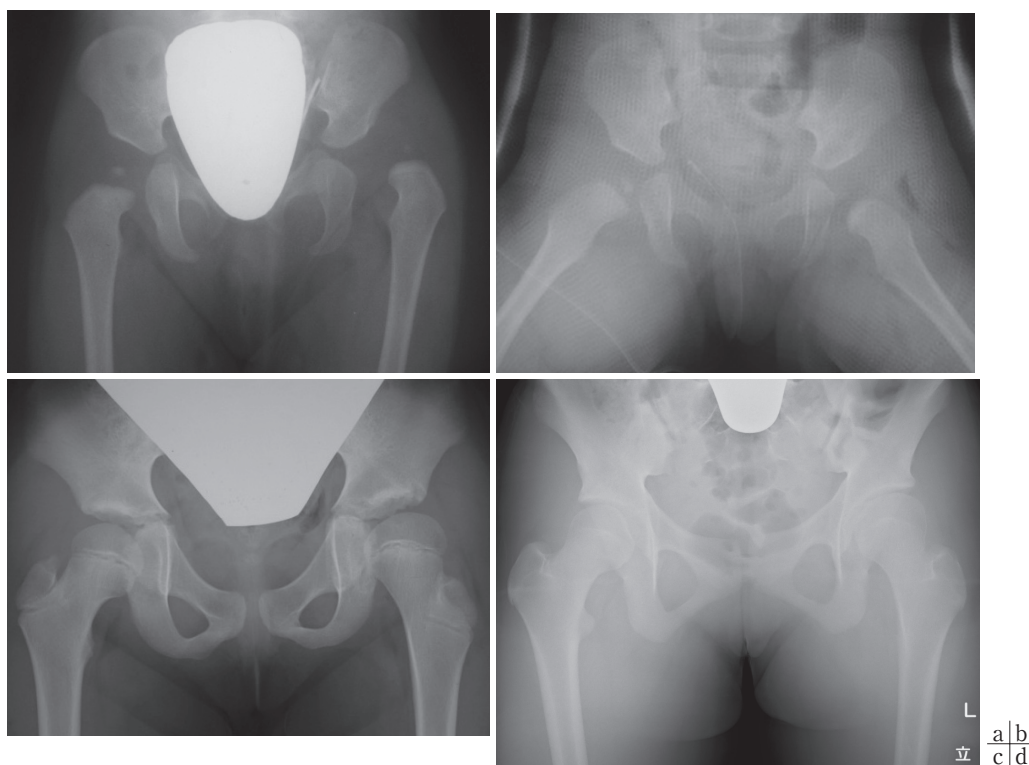


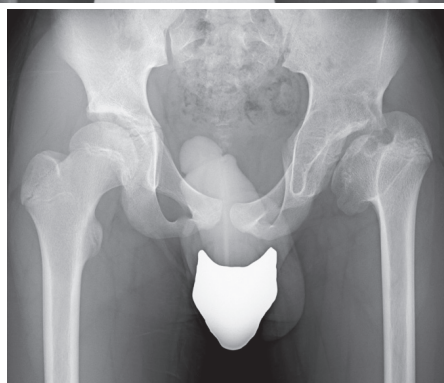
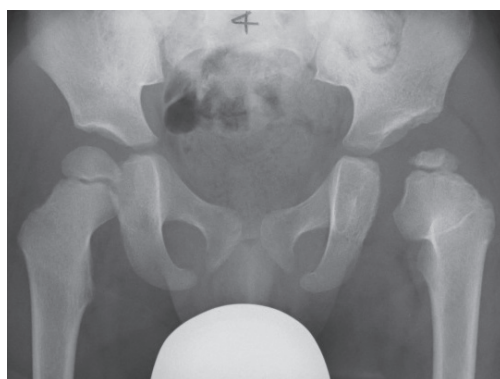
図 2. 症例1 前医で牽引治療を受けたが整復されず当科紹介となった.

a: 初診時

b: OR 後

c: 6 歳時

d: 最終調査時(12 歳時)Kalamchi&MacEwen 分類Ⅱ, Severin 分類Ⅱ a



a : 2 歳時
b : 4 歳時
c : 最終調査時(11 歳時)Kalamchi & MacEwen 分類
II Severin 分類IV a

図 3. 症例 2 前医で Rb 治療を受けたが整復されず, 生後 7 か月時に OR 施行.

(図 2-a,b). 6 歳時, 骨頭および頸部の外反, 臼蓋の被覆不良を認め K&M 分類 II 型だったが, 徐々に改善し最終成績は Severin 分類 II a となった(図 2-c,d).

症例 2 : 6 か月, 男児. 4 か月検診で開排制限を指摘され前医を受診し, 左 CDH と診断された. Rb 治療を受けたが整復されず, 当科紹介となった. 生後 7 か月時に OR を施行し整復を得た. 経時的に求心性の不良, 骨幹端の変形が強くなり(図 3-a,b), 5 歳で Salter 骨盤骨切りを施行した. 11 歳の現在, Severin 分類 IV a, 2.7 cm の脚短縮を認める(図 3-c). 今後, 脚延長, 大転子下降術が必要と考えている.

考 察

OR 後のぺ変については, 手術時期に関して骨端核が描出されない幼弱な時期の手術でぺ変が増加したという報告¹⁾¹⁰⁾がある一方, 近年では骨端核の有無との相関はないとする報告⁸⁾⁹⁾¹²⁾が多い. 本症例では, OR 施行時に骨端核を認めた症例は

4 股, 認めなかった症例は 9 股でぺ変発生との関連は見られなかった.

また, 手術方法に関して, 岡野ら⁷⁾は内側アプローチではぺ変の発生と手術時年齢に相関を認め, 特に 17 か月以上では容認できない結果であったとしている. 前外側進入法では, ペ変の発生と手術時年齢に相関はないものの closed reduction で整復した症例よりも有意にぺ変が多かったとの報告²⁾がある. Pospischill ら⁸⁾は, ペ変の発生と Rb 治療の既往は相関がなかったとしている. Kaneko ら⁴⁾による Overhead Traction の長期成績の報告では, 56%が Rb や開排装具などの前治療を受けていたが, ペ変は 2.7%しか生じていない. OR に至る前に施行された治療が OR 後のぺ変に及ぼす影響に関しては, いまだ統一された意見はないが, これらの報告は OR そのものがぺ変に少なからず影響を与えていることを示唆していると思われる.

本研究では, OR 群は 13 股中 11 股(84.6%)が前医で Rb 治療を受けていたが, 最終結果への影

響は不明である。

ペ変の重症度は、Rb 群で K&M 分類Ⅲ／Ⅳが 6 股中 1 股、OR 群では 13 股中 5 股であった。諸家の報告に比べ Rb 群の K&M 分類Ⅲ／Ⅳが少ないが、これは症例数が少ないことに加え、当科では高位脱臼には Rb を採用していないことがその理由と推測している。

最終成績は全体で 58% (19 股中 12 股) が成績不良 (Severin 分類Ⅲ／Ⅳ) であった。治療法 (Rb, OR) と最終成績 Severin 分類に関しては OR 群で成績不良が多い傾向にあった。

Rb 治療では、脱臼の程度と治療成績の関係は以前から報告されており、Suzuki ら¹³⁾は distance a が小さいほどペ変の発生が増えたとしている。Kitoh ら⁵⁾は、内転拘縮とペ変の発生に相関があったと述べている。前外側進入法による OR では、このような報告はなく今後の研究課題と考える。

本研究では OR 群の distance a は術前平均 2.7 ± 3.4 mm で OR の際に内転筋切離は施行していない。当科での OR 後の高いペ変率の原因の一つと考えられる。

現在当科では、Rb 治療不成功および生後 6 か月以上の CDH に対しては開排位持続牽引法を採用している。諸家の持続牽引を用いた緩徐な整復法の報告⁴⁾⁹⁾¹⁴⁾では、整復率は 84% から 96%、ペ変率は 0% から 7.5% と成績は良好である。整復障害因子が関節内にあり、保存的治療に抵抗する場合にのみ OR が適応になると考えている。

文献

- 1) Clarke NM, Jowett AJ, Parker L: The surgical treatment of established congenital dislocation of the hip: results of surgery after planned delayed intervention following the appearance of the capital femoral ossific nucleus. *J Pediatr Orthop* **25**(4): 434-439, 2005.
- 2) Firth GB, Robertson AJF, Schepers A: Developmental dysplasia of the hip. *Clin Orthop Relat Res* **468**: 2485-2494, 2010.
- 3) Iwasaki K: Treatment of congenital dislocation of the hip by the Pavlik harness. Mechanism of

reduction and usage. *J Bone Joint Surg* **65-A**: 760-767, 1983.

- 4) Kaneko H, Kitoh H, Mishima K et al: Long-term outcome of gradual reduction using overhead traction for developmental dysplasia of the hip over 6 months of age. *J Pediatr Orthop* **33**(6): 628-634, 2013.
- 5) Kitoh H, Kawasumi M, Ishiguro N. Predictive factors for unsuccessful treatment of developmental dysplasia of the hip by the Pavlik harness. *J Pediatr Orthop* **29**(6): 552-557, 2009.
- 6) Nakamura J, Kamegaya M, Saisu T et al: Treatment of developmental dysplasia of the hip using the Pavlik harness. *J Bone Joint Surg* **89-B**: 230-235, 2007.
- 7) Okano K, Yamada K, Takahashi K et al: Long-term outcome of Ludloff's medial approach for open reduction of developmental dislocation of the hip in relation to the age at operation. *International Orthopaedics* **33**: 1391-1396, 2009.
- 8) Pospischill R, Weninger J, Ganger R et al: Does open reduction of the developmental dislocated hip increase the risk of osteonecrosis? *Clin Orthop Relat Res* **470**: 250-260, 2012.
- 9) Rampal V, Sabourin M, Erdeneshoo E et al: Closed reduction with traction for developmental dysplasia of the hip in children aged between one and five years. *J Bone Joint Surg [Br]* **90-B**: 858-863, 2008.
- 10) Roposch A, Odeh O, Doria AS et al: The presence of an ossific nucleus does not protect against osteonecrosis after treatment of developmental dysplasia of the Hip. *Clin Orthop Relat Res* **469**: 2838-2845, 2011.
- 11) Segal LS, Boal DK, Borthwick L et al: Avascular necrosis after treatment of DDH: the protective influence of the ossific nucleus. *J Pediatr Orthop* **19**(2): 177-184, 1999.
- 12) Sibinski M, Synder M, Domzalski M: Risk factors for avascular necrosis after closed hip reduction in developmental dysplasia of the hip. *Orthop Traumatol Rehabil* **6**(1): 60-66, 2004.
- 13) Suzuki S, Yamamuro T.: Avascular necrosis in patients treated with the Pavlik harness for congenital dislocation of the hip. *J Bone Joint Surg Am.* **72**: 1048-1055, 1990.
- 14) Yamada N, Maeda G, Fujii G et al: Closed

reduction of developmental dislocation of the
hip by prolonged traction. J Bone Joint Surg

[Br] 85-B : 1173-1177, 2003.

Abstract

Avascular Necrosis after Treatment for Developmental Dysplasia of the Hip

Yukari Imajima, M. D., et al.

Osaka National Hospital

We report the results of avascular necrosis after treatment for congenital dysplasia of the hip (CDH) in 19 hips, involving 17 patients. We retrospectively reviewed each case based on the reduction method, radiographic findings, Kalamchi & MacEwen's classification, and Severin classification. Over all 19 cases, 58% showed avascular necrosis and were determined to be unsatisfactory. Treatment was Pavlik harness alone in 6 cases (Rb Group), and open reduction in the other 13 cases (OR Group). There was no significant difference in radiographic findings between the two groups. However, Severin's classification was poorer in the OR Group than in the Rb Group. There was no specific factor for the poorer results after open reduction. In order to improve results, open reduction in our institution is now replaced by flexion abduction continuous traction, and further follow-up investigation is recommended.

島根県江津市における乳児先天股脱超音波検診の現状

西部島根医療福祉センター

星 野 弘太郎・中 寺 尚 志

要 旨 先天股脱は患者数の減少に伴い、検診体制の弱体化も指摘され、近年は診断遅延例の増加が報告されている。島根県江津市では、2010年1月より生後3~4か月時の乳児健診にて希望者全例に股関節超音波検査を導入した。2012年7月までの対象児数は454例、うち希望者448例(受診率98.7%)896関節に超音波検査を実施した。Graf法type I以外、もしくはリスク因子が複数あれば要精査とした。要精査例は50例54関節(11.0%)で、エコーtype I以外が43例であった。要精査例のうち40例が当院へ受診していた。亜脱臼3例(0.66%、全例Rb治療)、白蓋形成不全14例、異常なし24例(偽陽性例5.3%)であった。リーメンビューゲル法治療例のうち1例は開排制限、大腿皮膚溝非対称のない症例であり、超音波検査がなければ見逃された可能性が高かった。2012年度から市より整形外科検診に小児科とは別個の予算が認められている。

はじめに

先天性股関節脱臼(以下、先天股脱)は、予防法の普及と少子化により減少しており、一般の乳児健康診断を担当する産婦人科医や小児科医のみならず、整形外科でも診察をする機会が乏しくなっている。それに伴い、近年は診断遅延例の増加が報告されている⁸⁾。そこで下諏訪町¹⁾、新潟市⁹⁾の先天股脱超音波検診をモデルとして、島根県江津市にて2010年1月より生後3~4か月時の乳児健診において、希望者全例に股関節超音波検査を導入した。

対象と方法

江津市の出生数は、年間約180人である。江津市乳児健診は保健センターにて隔月(年6回)で行われており、小児科医が担当していた。我々は乳児股関節エコーセミナーへの参加を契機に、乳児健診に参加できないか市役所健康福祉課へ相談したところ、従来の小児科医の健診の隣室での参加

を許諾された。2009年5月より、超音波機器を持ち込んでの整形外科検診をボランティアで開始した。当初は、健診医が異常とした症例に超音波検査を施行していたが、2010年1月以降は希望者全例に施行した。

使用した超音波診断装置機器は、TiTAN(Sono Site社)である。ポータブル型で大きさは27.6×30.2×7.6 cm、モニター8.4 inch、重さ約3.5 kgで、携帯性に優れた機種である。プローブはリニアプローブ(5~10 MHz)を使用した(図1)。結果はプリントアウトして健診結果として保存する以外に、母子手帳にも保存した。冬期には、検査用ゼリーのウォーマーも持参するようにしている。

股関節検診の実際として、まず問診にて、家族歴、分娩時胎位などをチェックする。頭の形に触れ、後頭部扁平化の有無を確認し、これにより向き癖のチェックを行う。そして、大腿・単径部の皮皺の対称性、殿部輪郭、Allis徴候、開排制限を確認した。開排に硬さがあれば、クリックサイン(Ortolani徴候、Barlow徴候)を確認した。

Key words : hip dysplasia(先天性股関節脱臼), screening(検診), ultrasonographic diagnosis(超音波診断)

連絡先 : 〒695-0001 島根県江津市渡津町1926 西部島根医療福祉センター 星野弘太郎 電話(0855)52-2442

受付日 : 2014年9月8日



図 1. 乳児股関節超音波検診の実際

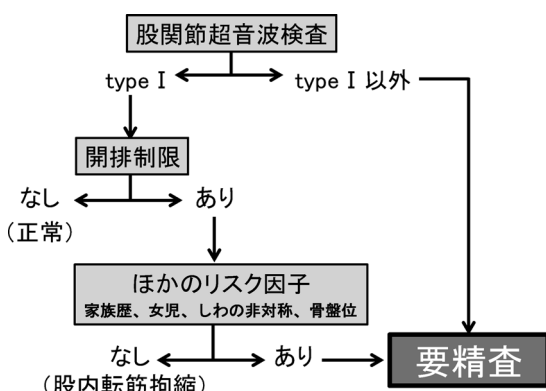


図 2. 股関節超音波検診のフローチャート

超音波検査手技は Graf 法に従い、乳児股関節エコーセミナーで指導された方法に忠実に行った⁶⁾。すなわち、Graf 台に側臥位にセットして、プローブを大転子表面に垂直に当て、腸骨下端、腸骨外壁および関節唇の描出をポイントに基準断層像を撮像した。Graf 分類に基づいて、健診現場では α 角のみをチェックして 60° 以上であれば type I として正常と判断した。股関節超音波検診でのフローチャートを図 2 に示した。Graf 分類 type I 以外であれば精査としたが、type I でも開排制限が明らかな場合、松戸方式に準じた他のリスクファクター(女兒、家族歴、皮膚溝の非対称、骨盤位)⁷⁾があれば精査とし、家族の心配も考え、開排制限が解消されるまで外来フォローを行った。リスク因子と超音波検査の希望を正確に把握するため、2011 年 5 月からアンケート用

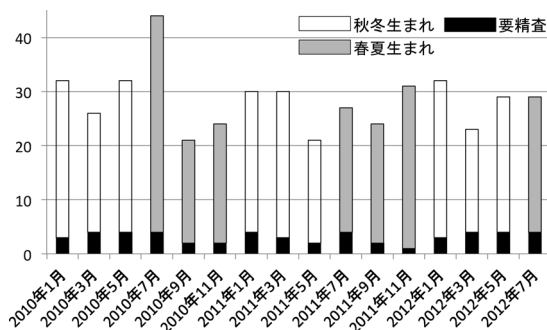


図 3. 受検者数と要精査数

受検者数は 16 回で 448 例(平均 28.4 例)、うち要精査数は 50 例 54 関節(平均 3.1 例)。

紙を事前に配布している。

結 果

2010 年 1 月から 2012 年 7 月までの受検者数は 454 例で、受検率は全対象児の 97.5%であった。そのうち、希望のなかった 6 例を除いた 448 例(98.7%)に超音波検査が施行された。受検者数は、1 回の検診につき平均 28.4 例であった。要精査としたのは、50 例 54 関節(11.2%)で一回平均 3.1 例であった。季節による有意差は認めなかった(図 3)。

要精査とした 50 例の内訳は、Graf 分類 type I 以外 43 例、ほかに type I ではあるが、開排制限が明らかな他のリスク因子があるもの 7 例であった。開排制限があっても Graf 分類 type I、かつリスク因子がなければ内転筋拘縮と診断し、日常生活指導を行った。日常生活指導は、石田によるリーフレット「あかちゃんの股関節脱臼の予防」⁴⁾に従って行った。抱き方とおむつの当て方を指導するが、覚えやすい呼称として抱き方は「コアア抱っこ」が普及している一方、おむつに関して我々は高めに当てることで開排を妨げない「ハイレグおむつ」と呼称して、母親に説明している。さらに、横抱きとスリング使用は禁止としている。

要精査とした 50 例のうち、40 例 44 関節が当院へ受診した。うち完全脱臼はなく、亜脱臼が 3

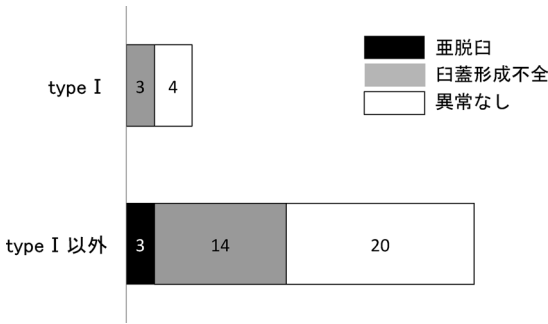


図 4. 要精査 40 例 44 関節の診断結果



図 5. 症例 初診時普通写真

左股関節亜脱臼であるが開排制限なく、大腿皮膚溝はかえって左で少ない。

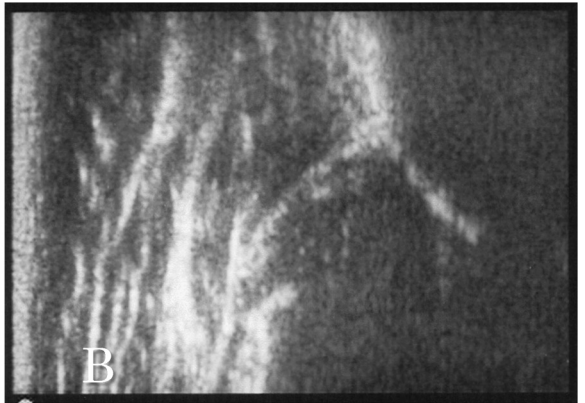
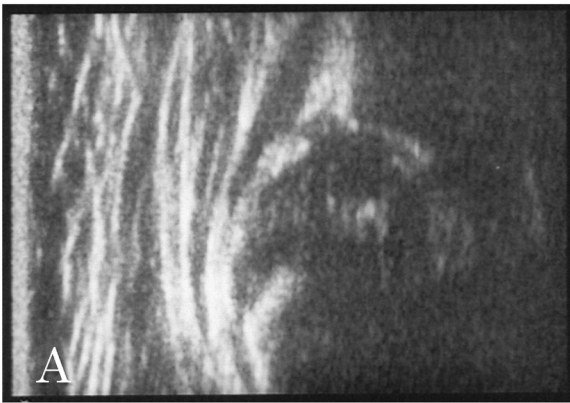


図 6. 症例 検診時超音波検査 (Graf 法)

A : 右 type I (α 角 67°), B : 左 type D (α 角 43° , β 角 78°)

例 3 股, 臼蓋形成不全 14 例 17 股, 異常なし 24 例 24 股 (偽陽性率 5.3%) であった (図 4)。1 例で左亜脱臼と右臼蓋形成不全の合併があった。異常例のうち、超音波検診で type I であったものは 3 股のみで、全例臼蓋形成不全であった。亜脱臼 3 例 3 股の超音波検査による Graf 分類は、type II c2 例 2 股, type D1 例 1 股であった。全例リーメンビューゲル法による治療を行った。

症例提示

症例：生後 3 か月、女児。股関節開排制限のない左亜脱臼例 (図 5)。

父方に 3 人 (父、祖母、伯母) の家族歴があり。母親はときにクリックを感じていた。開排制限はまったく認めず、大腿皮膚溝は左でかえって少なく、クリックはほとんどわからなかったが、診断後注意して診るとほんのわずかに触れる程度で

あった。

検診時、超音波検査にて α 角は左 43° で β 角 78° とタイプ D であった (図 6)。

X 線にて左股関節の亜脱臼を認め、臼蓋角は右 33° 、左 39° と両側臼蓋の形成不全を認めた (図 7)。リーメンビューゲル法治療を行い、生後 11 か月 (最終追跡時) の X 線で外方化が残存しているが、臼蓋角は 30° 未満と正常化している。本例には濃厚な家族歴があり、松戸式スクリーニングでも精査に該当するが、開排制限がまったくないため、一般の健診では指摘が難しいと思われた症例であった。

考 察

全乳児を対象とした股関節超音波検診への取り組みは、新潟市と下諏訪町から報告されている。年間の受検者数は、新潟約 5000 例、下諏訪町

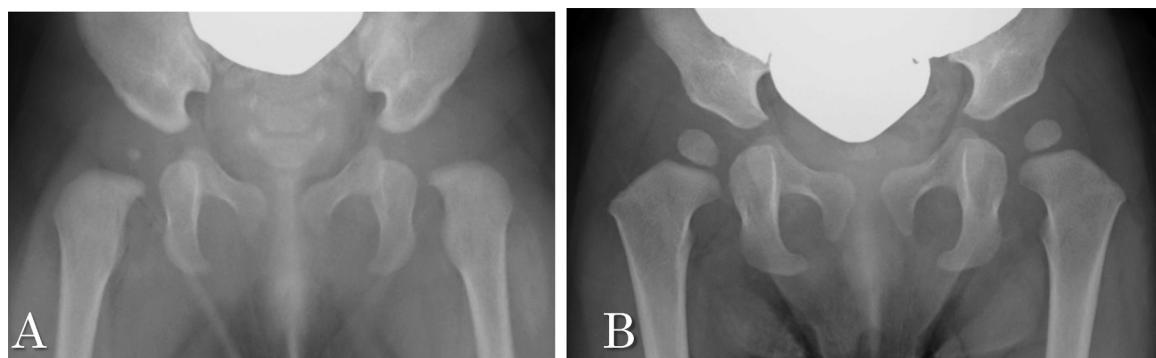


図 7. 症例 X 線

A：初診時臼蓋角右 33° 左 39°，B：生後 11 か月時臼蓋角右 28° 左 29°

表 1. 乳児股関節超音波検診の実績

	新潟市 2012年	下諏訪町 2005年	江津市 2012年
対象	52744人/9年	2260人/12年	448人/2.5年
平均年間受診数	5860人	188人	179人
要精査率	3.5%	6.7%	11.0%
RB装着率	0.43%	0.97%	0.66%
偽陽性率	1.5%	2.7%	5.3%
個人負担費用	2800円	無料 (検査費用3780円／ 人を町が負担)	無料 (医師派遣費27000 円／回を市が負担)
受診率	89.1%	91.2%	98.7%

※ RB：リーメンビューゲル

200 例弱である。新潟市は検診費用の 2800 円は個人負担であるが、受診率は 89%と高率であり、その関心の高さに驚かされた⁹⁾。表 1 に示したように、要精査率は新潟市 3.5%、下諏訪町 6.7%と比べ、江津市は 11.0%と高めであるが、これは前述したように type I 以外でも開排制限のある症例のフォローを含めていることが原因と考えられた。また、偽陽性率が若干高いということは、超音波診断の技術的な問題があるかもしれない。今後、精度を上げるよう努力したい。受診率は江津市が 98.7%と最も高く、新潟市・下諏訪町が一般の乳児検診とは別の日程で別の場所で行うのに比べ、江津市では同時に同じ場所で行うことから、受検しやすかったものと考えた。すなわち、股関節検診を新たに行う場合、現在行われている乳児検診に組み込む形の方がより円滑に行えると思われる。

当初、ボランティアでの参加であったが 3 年後

の 2012 年より、整形外科検診にも別個の予算が認められた。その理由として、先に提示したような、一見脱臼とは思えない難しい症例の診断が健診現場で超音波により可能となり、保健師さんたちに大きな反響があったこと、また、アンケートを行うことで母親たちが強く希望され本取り組みを評価してくれることが明らかとなったことが挙げられる。

過去には、乳児の整形外科健診は、全国的にも広く行われていたが、少子化と先天股脱の減少により、小児科医のみの健診体制に縮小された経緯がある。小児整形外科疾患が一般外来で経験できない時代となり、さらに先天股脱を経験したことのない小児科医による健診も余儀なくされている。それにともない、先天股脱診断遅延例の増加も指摘されており、健診体制の検討が必要に迫られている。

日本小児股関節研究会を中心として、先天股脱の予防、診断遅延例の原因、検診のあり方について討論されてきている。スクリーニングの向上のため、松戸方式⁷⁾、宮城方式³⁾などのリスク因子のチェックと、超音波検診の科を超えた普及と啓発を図ることの重要性が報告されている⁵⁾。また、同研究会により「健診あり方委員会」が立ち上げられ、今後各方面への啓発、拠点施設の公表などの動きが予定されている²⁾。

まとめ

1) 江津市における乳児股関節超音波検診の取り

組みを報告した。3年間のボランティア後、自治体からの助成を得た。

2)3年間での受検者は454児であり、超音波受診は448例(受検率98.7%)、要精査例は50例(11.0%)であった。

3)当院へ精査受診した40例中、亜脱臼3例(0.66%)、臼蓋形成不全14例(3.1%)が診断され、偽陽性率は5.3%であった。

文献

- 1) 朝貝芳美, 渡辺泰央, 今給黎篤弘: 長野県下諏訪町における乳児先天股脱超音波検診の現状. 日小整会誌 14: 40-43, 2005.
- 2) 朝貝芳美: 先天性股関節脱臼健診のあり方アンケート結果のまとめ. 日小整会誌 21: 431, 2012.
- 3) 後藤昌子, 落合達宏, 佐藤一望ほか: 宮城県における先天性股関節脱臼検診(第2次宮城方式)に

ついて. 日小整会誌 21: 430, 2012.

- 4) 石田勝正: 先天股脱・温故知新一脱臼屋と呼ばれた時代一. 第44回日本小児股関節研究会特別企画「先天股脱 温故知新一脱臼屋と呼ばれた時代一: 65-70, 2005.
- 5) 目時規公也: 宮城県における小児科医による先天性股関節脱臼スクリーニングの現況. 日小整会誌 21: 431, 2012.
- 6) 日本整形外科超音波研究会編: Graf法による乳児先天性股関節脱臼検査法. 整形外科超音波診断アトラス(改訂第2版): 67-91, 2004.
- 7) 品田良之, 飯田 哲, 安宅洋美ほか: 松戸市の乳児先天性股関節脱臼検診の変遷. 第49回日本小児股関節研究会抄録集: 66, 2010.
- 8) 鈴木茂夫: 乳児股関節検診のコツ. 小児科 51: 465-470, 2010.
- 9) 高橋 牧, 畠山征也: 新潟市保健所の超音波による乳児股関節検診の現状. 日小整会誌 21: 430-431, 2012.

Abstract

Neonatal Universal Screening Using Ultrasound for Developmental Dysplasia of the Hip, in Gotsu City

Kotaro Hoshino, M. D., et al.

West-Shimane Rehabilitation Center for the Disabled Children

We report the findings from screening using ultrasound for developmental dysplasia of the hip in 448 neonates at 3-4 months old, in Gotsu City, between January 2010 and July 2012. Among these 896 hips, abnormal findings were suggested in 54 hips, and 44 of these were referred for radiographic examination in our hospital. Of these 44, radiographic findings showed 24 hips(55%) were normal, 17 hips(39%) had acetabular dysplasia, 3 hips(6%) had subluxation, and no hip(0%) had dislocation. These findings suggested that ultrasound was generally effective in routine screening for developmental dysplasia of the hip in neonates.

大腿骨頭すべり症の転子間骨切り後に FAI に対して 鏡視下 bumpectomy を施行した 1 例

遠 藤 裕 介¹⁾・岡 田 芳 樹²⁾・香 川 洋 平²⁾・尾 崎 敏 文²⁾

1) 岡山大学 医歯薬学総合研究科 運動器医療材料開発講座

2) 岡山大学 整形外科

要 旨 大腿骨頭すべり症に対して大腿骨矯正骨切り後に関節鏡視下 bumpectomy を行った 1 例を報告する。症例は最終観察時が 15 歳の男児で、13 歳時に右股関節痛が出現し 9 か月が経過して大腿骨頭すべり症と診断された。初診時の X 線像で右股の後方傾斜角は、40° であり、1 週間内に in situ pinning 手術を行った。半年後に大腿骨矯正骨切り術を施行し、術後の後方傾斜角は 5° まで改善した。しかし、Femoroacetabular Impingement の症状が残存したため関節鏡視下 bumpectomy を施行した。X 線上 α 角は 72° から 48° に改善し、スポーツ活動にも復帰できた。矯正骨切り術を施行しても残存する Femoroacetabular Impingement 症状に対して鏡視下 bumpectomy は有用であった。

症 例

最終観察時 15 歳の男児で、身長 167 cm、体重 68kg、BMI は 24.4 であった。13 歳時にサッカー部に所属し、部活の練習中に右股関節痛が出現した。前医を受診し経過観察を指示されていた。3 か月後に右股関節痛は再発したが、経過観察されていた。9 か月後に疼痛が増悪し、前医で MRI を撮影し大腿骨頭すべり症を指摘され当科へ紹介された。既往歴は喘息のみであった。

当科受診時には単純 X 線上頸体角は右 123° 左 128°、後方傾斜角(Posterior Tilt Angle : 以下、PTA)は右 40° 左 5° であった(図 1)。患側の股関節可動域は屈曲 40°、外転 15° と著明な制限があり、Drehmann 徴候を認めた。歩行は可能であったが、早期手術の必要性を説明し、当日 in situ pinning を施行した。術後 6 か月の時点で、X 線上患側の骨端線は閉鎖し矯正骨切り術を計画した

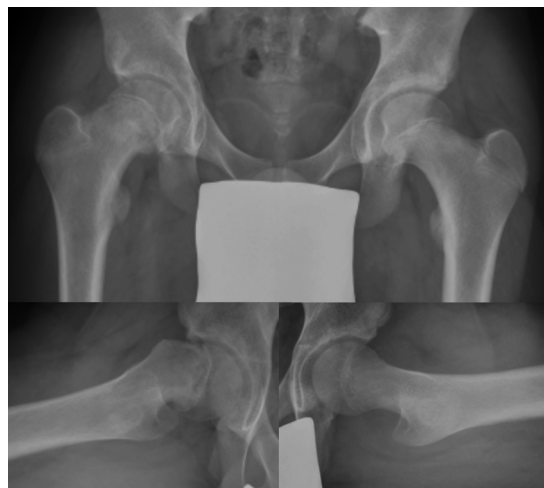


図 1. 当院初診時 X-p 右大腿骨頭すべり症, PTA 40°

(図 2)。手術は大腿骨転子部を屈曲 30°、外反 20° で骨切りし、15° 増捻して 90° angle blade plate(Synthes®)で固定した(図 3)。術後に頸体角は 145° に改善したが、 α 角は右 72° 左 45° で

Key words : slipped capital femoral epiphysis(大腿骨頭すべり症), femoroacetabular impingement(FAI), arthroscopic bumpectomy(鏡視下骨隆起切除)

連絡先 : 〒700-8558 岡山県岡山市北区鹿田町 2-5-1 岡山大学整形外科 遠藤裕介 電話(086)235-7273

受付日 : 2014 年 1 月 14 日

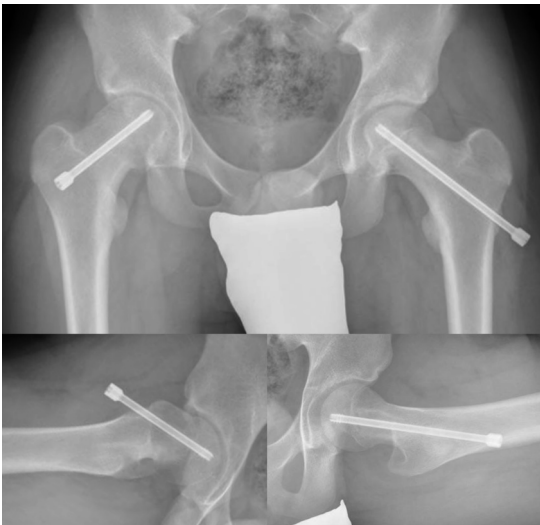


図 2. In situ pinning 術後 6 か月の X-p 患側の骨端線は閉鎖している。

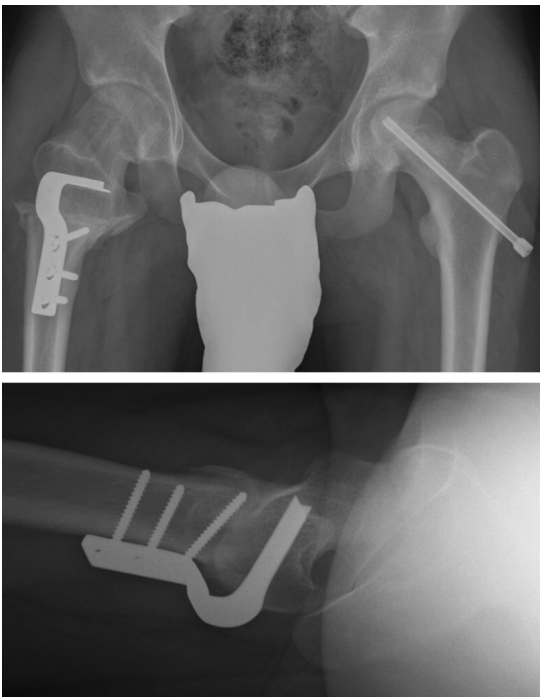


図 3. 矯正骨切り術後 3 か月 X-p 骨癒合は得られている。

あった。術後 3 か月で骨癒合が得られ、杖なし歩行で日常生活を送っていたが、屈曲 40° 以上での Drehmann 徴候と疼痛が残存した。術後の石膏モデルを作成し検証すると、大腿骨頸部前面の骨隆起(以下、bump)により、中間位からの内旋でも

impingement を生じていた(図 4)。FAI 症状の残存に対して、可動域と疼痛の改善を目的として鏡視下手術を施行した。関節鏡所見では寛骨臼・骨頭とも荷重部軟骨は保たれていたが、Femoroacetabular Impingement(以下、FAI)により前方関節唇は充血し大腿頸部前面の bump 部は容易に出血する状態であり、5.5 mm アブレーダーで骨隆起切除術(以下、bumpectomy)を施行した(図 5)。術後 α 角は 72° から 48° に改善しており、石膏モデルでも内旋と屈曲の関節クリアランスが改善していた(図 6)。術後 7 か月の最終観察時では、X 線上は bump の再発は認めず関節症変化は認めていない(図 7)。臨床所見では屈曲 80° 以上で Drehmann 徴候は残存するものの、疼痛は消失しサッカー部に復帰していた。

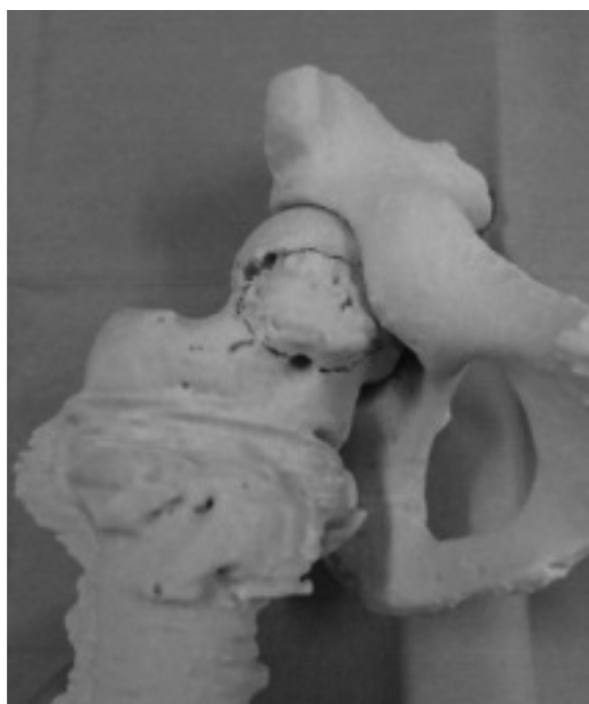
考 察

大腿骨頭すべり症によって引き起こされる股関節インピンジメントは、Ganz らによって FAI の概念が提唱される以前から Rab らによって報告されている⁵⁾。高度インピンジメントの残存は早期に股関節症が生じる原因となるため、解剖学的異常を補正する治療が必要である。

安定型大腿骨頭すべり症の治療法として、安定化を目的とした in situ pinning とすべり部で骨切りする観血的整復術、変形部以外で矯正する各種の骨切り術がある。In situ pinning の適応について、飯田らは 60° までの症例を加療し、短期的な成績は良好であったと報告している²⁾。当科で、PTA が 40° 未満の in situ pinning で加療した症例で骨端線閉鎖まで追跡した 20 例 20 股を検討した結果、すべり部での remodeling により 15 股が Jones 分類 type A であったが、骨頭は骨幹部の後方に位置し realignment は生じておらず、FAI の画像所見を 6 股に認めた³⁾。近年では FAI の概念から in situ pinning のみの適応は PTA 30° 以下とされ、それ以上では一期的もしくは二期的にすべり部での矯正骨切りや転子間骨切り術などともに bumpectomy を行うことが推奨されている¹⁾⁴⁾。



(a)

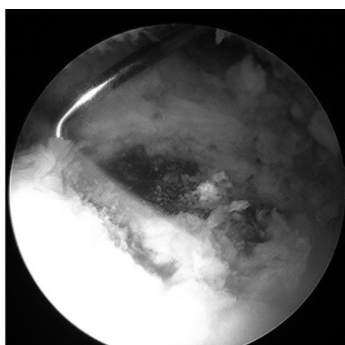


(b)

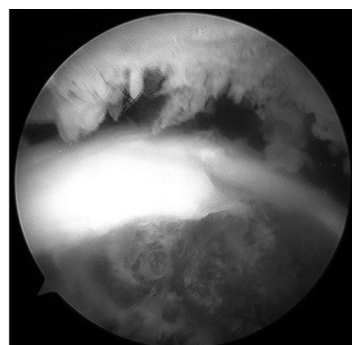
図 4. 石膏骨モデルによる術前 impingement の検討
a: 中間位 b: 内旋位



(a)



(b)

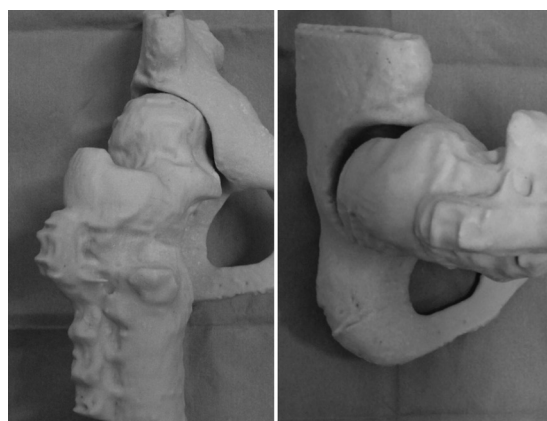


(c)

図 5. 股関節鏡における術中の鏡視所見
a: 前方関節唇の充血像 b: 大腿骨頸部前面の損傷部分 c: bumpectomy 後

本症例では、PTA は 40° の安定型であったため可及的早期に in situ pinning を行い、夏休みまで待機し二期的に矯正骨切り術を施行した。転子間骨切り術での矯正は、直接的なすべり部での矯正に比して血流障害による骨頭壊死のリスクは低い、本症例では術後も bump により疼痛と可

動域制限が残存し、転子間での矯正の限界と考えられた。さらに関節鏡下での bumpectomy を施行し、症状の改善を認めたが、remodeling を生じにくい年齢であったことも要因と考えられた。関節鏡下での bumpectomy は低侵襲で有用な治療と考えるが、remodeling を生じ無症状となる



(a)

(b)

図 6. 石膏骨モデルによる術後 impingement の検討.
A : 内旋位 b : 屈曲位

症例も多くあることから、適応については今後も検討を行う必要がある。

まとめ

1) 安定型のすべり症の 1 例に対して, in situ pinning と二期的に大腿骨転子部での矯正骨切り術を施行した. しかし, FAI の症状が残存したため関節鏡視下 bumpectomy を行い改善した.

2) 大腿骨頭すべり症で, remodeling 能に乏しい年齢での中等以上の症例では, 転子間骨切りによる矯正にも限界があり, 術後の FAI に対しては鏡視下 bumpectomy は有用であった.

文献

- 1) Azegami S, Kosuge D, Ramachandran M : Surgical treatment of femoroacetabular impingement in patients with slipped capital femoral epiphysis.

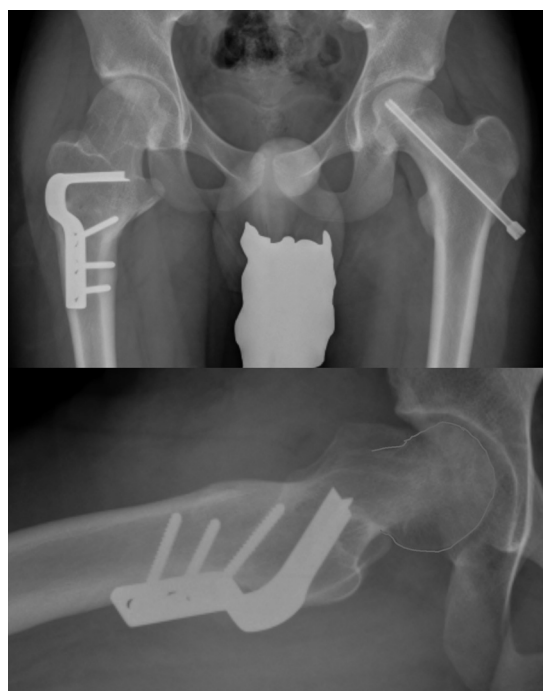


図 7. 術後 7 か月最終観察時 X-p Bump の再発は認めていない。

J Bone J Surg Br 95 : 445-451.

- 2) 飯田 哲, 品田良之 : 大腿骨頭すべり症に対する in situ pinning の治療成績. Hip Joint 32 : 272-274, 2006.
- 3) 三谷 茂, 遠藤裕介 : 大腿骨頭すべり症における FAI—in situ pinning 後の症例の検討—. MB Orthop 24(4) : 25-32, 2011.
- 4) Morakis E, Sink E : Advances in hip preservation after slipped capital femoral epiphysis. AAOS Int Course Lec 62 : 415-428, 2013.
- 5) Rab GT : The geometry of slipped capital femoral epiphysis : implications for movement, impingement, and corrective osteotomy. J Pediatr Orthop 19 : 419-424, 1999.

Abstract

Arthroscopic Bumpectomy for Femoro-Acetabular Impingement due to Slipped Capital Femoral Epiphysis after Intertrochanteric Osteotomy

Hirosuke Endo, M. D., et al.

Department of Medical Materials for Musculoskeletal Reconstruction, Okayama University
Graduate School of Medicine, Dentistry and Pharmaceutical Sciences

We report a case of a 15-year-old boy with femoro-acetabular impingement (FAI) caused by severe slipped capital femoral epiphysis (SCFE). The patient had been complaining of right hip pain since two years earlier, and SCFE was diagnosed at 9 months after onset. At that time, plain radiograph showed the posterior tilt angle was 40° on the affected side, and in situ pinning was done. At 6 months postoperatively, intertrochanteric corrective osteotomy was done, and the posterior tilt angle was improved to 5° immediately after surgery. However FAI remained, and arthroscopic bumpectomy was performed. Radiographs at most recent follow-up showed the α angle was improved from 72° to 48° , and the patient could rejoin sports activities. This case suggests that arthroscopic bumpectomy was effective for residual FAI after corrective osteotomy.

重度脳性麻痺児の股関節脱臼に対する大腰筋腱移行術を併用した 両股関節周囲筋解離術の脱臼整復効果と限界

北海道立子ども総合医療・療育センター

松村 崇史・藤田 裕樹・松山 敏勝

要 旨 5歳以下の重度脳性麻痺児の股関節脱臼に対し、股関節周囲筋解離術に加えて大腰筋腱の外側移行術を行った12例14股の平均6年6か月の術後成績の評価を行った。影響因子として、年齢、体重、合併症(てんかん、摂食障害)を検討した。術前 Migration Percentage は、平均94.3%が最終観察時では平均60.9%と脱臼位の改善を認めた。14股中9股(65%)が最終観察時に整復位を維持していた。脱臼位となった5股中2股では、てんかんコントロールが不良であった。重度脳性麻痺児で、全身状態が不良なために、観血的整復や骨切り術等が行い得ない場合、本術式は、脱臼整復・維持の一つの選択肢となる。

はじめに

脳性麻痺(Cerebral Palsy: 以下, CP)児は、持続する筋緊張亢進のため、下肢では交叉肢位から股関節脱臼を生じて、さらなる姿勢の悪化を招くことがしばしばある。しかし、年少の重度CP児では、全身状態不良や合併症のために、観血的脱臼整復や骨切り術などの根治的な治療を行い得ない症例も少なくない。当センターでは、5歳以下の重度CP児に股関節周囲筋解離術(以下、筋解離)に加えて大腰筋腱移行術を行い、脱臼の整復と求心位の維持を目指している。そして、股関節脱臼・亜脱臼21例、24股の術後平均約3年間の成績では、早期からの股関節求心効果を示し、再発を認めなかったと報告した⁴⁾。今回我々は、Migration Percentage(以下, MP)が80%以上の股関節脱臼例を対象に、同法での術後3年以上の経過観察を行った。

対象・方法

2000年から2009年にMP80%以上の麻痺性股関節脱臼に対して、当科で筋解離+大腰筋腱移行術を施行した重度CP児12例(男児7例、女児5例)14股を対象とした。手術時平均年齢は3歳7か月(2~5歳)であった。

術式は、恥骨側で薄筋の近位切離、長内転筋の近位部分延長を行った。同時に膝窩部で半腱様筋、半膜様筋、薄筋遠位部分延長を行った。大腰筋腱は小転子で切離した後に、大腿骨前面を外側に通し、部分延長した大腿直筋腱様成分の遠位側に移行して縫合した。後療法は、術後4週間ギプス固定を行い、その後5か月間外転装具を装着した。

術後成績に影響する因子として、手術時年齢、体重、合併症(てんかんの重症度や摂食不良)を検討した。てんかん重症度は、てんかんがないものを0、内服で発作コントロール良好なものを1、コントロール不良なものを2とした。摂食不良は

Key words : cerebral palsy(脳性麻痺), hip dislocation(股関節脱臼), muscle-tendon release(筋解離術), psoas tendon transfer(大腰筋腱移行術)

連絡先 : 〒006-0041 札幌市手稲区金山1条1丁目240番6 北海道立子ども総合医療・療育センター 松村崇史
電話(011)691-5696

受付日 : 2014年3月12日

表 1. 症例の詳細検討

てんかん 0: なし, 1: コントロール良好, 2: コントロール不良

胃瘻 0: なし, 1: あり

	症例	年齢	体重 (kg) (SD)	影響因子			X線評価			
				FU期間	てんかん	胃瘻	MP		α 角	
							術前	最終	術前	最終
整復群	1 左	4.3	14.0 (-1.0)	3.3	1	0	93	22	30	31
	2 左	4.4	10.5 (-2.7)	11.8	0	0	92	24	37	22
	3 右	3.3	12.0 (-1.0)	6.1	1	0	94	38	42	36
	4 左	5.4	11.0 (-2.6)	6.8	1	1	95	38	42	34
	5 左	3.8	14.0 (-0.5)	3.8	0	0	98	40	37	35
	4 右	5.4	11.0 (-2.6)	6.8	1	1	100	44	39	33
	6 左	3.3	9.5 (-2.8)	3.7	1	0	93	46	34	39
	7 左	3.0	9.5 (-2.3)	12.0	2	1	86	53	44	42
脱臼群	8 右	2.8	12.0 (-0.3)	3.3	1	1	85	56	44	47
	平均	4.0	11.5 (-1.8)	6.4	0.9	0.4	93	40	39	35
	再脱臼 8 左	2.8	12.0 (-0.3)	3.3	1	1	100	92	50	53
	9 右	3.3	14.0 (-0.1)	7.4	1	0	90	100	43	46
	脱臼遺残 10 左	2.8	10.4 (-1.5)	11.4	2	1	100	100	45	47
	11 右	3.9	14.0 (-0.4)	6.8	2	0	97	100	35	42
	12 右	3.8	10.3 (-2.6)	4.3	1	0	100	100	37	34
	平均	3.3	12.1 (-1.0)	6.7	1.4	0.4	97	98	42	44

胃瘻がないものを0, 胃瘻があるものを1として評価を行った. X線評価として, α 角, MP を術前, 術後, 1年ごとに計測した.

術後 MP から, 整復位を保った群(MP \leq 80%, 整復群), 脱臼位であった群(MP > 80%, 脱臼群)に分けた. さらに, 整復群を術後脱臼が整復され, 最終観察時まで求心位を保った群(MP \leq 40%, 求心位群), 術後脱臼が整復されたが, 骨頭の外方位が遺残した群(MP > 40%, 外方位群)に, 脱臼群を術後一時は脱臼が整復されたが, 経過中に再脱臼を来した群(再脱臼群), 術後脱臼位のまま遺残した群(脱臼遺残群)の4群に分類した.

結 果

術後平均経過観察期間は6年6か月(3~12年)であった. 術前の平均 α 角は39.7° (29~50°), MP は94.3% (85~100%)で, 最終観察時の平均 α 角は38.5° (22~53°), 平均 MP は60.9% (24~100%)であった. α 角はほぼ変化を認めなかったが, MP 値は有意に改善を認めた. 求心位群が5股, 外方位群が4股, 再脱臼群が2股, 脱臼遺残

群が3股であった(表1).

求心位群では, 術前 MP94%が最終観察時32%へ改善した(図1). 加えて, α 角も37°から31°に改善を認めた. 外方位群では, 術前 MP90%が最終観察時 MP49%と改善したが, α 角は改善しなかった. 再脱臼群, 脱臼遺残群では MP と α 角ともに改善を認めなかった(図2).

整復群と脱臼群において, 影響因子の比較を行った. 両群の年齢, 体重, てんかんコントロール, 摂食障害のいずれにも有意差は見られなかった. しかし, 整復群では内服薬でもてんかんコントロール不良であったのは, 8股中1股のみであったのに対し, 脱臼群では5股中2股が内服薬でもてんかんコントロールが不良であった(表1).

考 察

重度 CP 児の股関節脱臼に対しては, 筋解離術とともに, 観血的整復, 大腰筋腱移行術などの軟部手術や, 大腿骨, 骨盤骨切り術などの骨手術が病態に応じて組み合わせられて行われる. 軟部手術のみの報告では, Presedo ら²⁾が65例129股の股

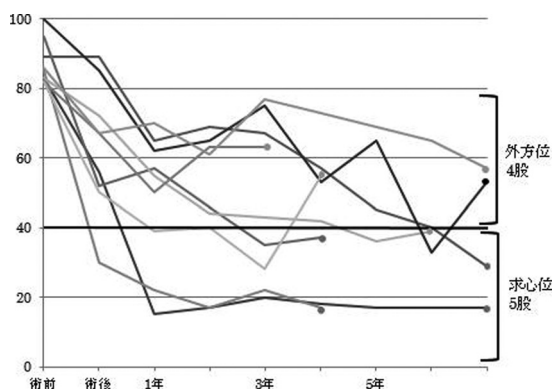


図1. 整復群(9股)のMP推移

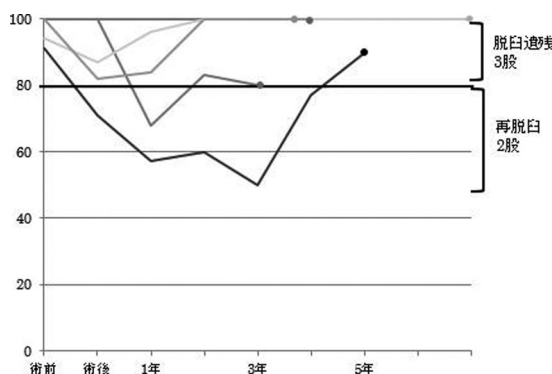


図2. 脱臼群(5股)のMP推移

関節脱臼・亜脱臼に対し、大腰筋腱を含めた股関節筋解離術を行い、69%が求心位を保持可能であったと報告している。一方、Turkerら⁵⁾は、重度CP児45例90股の股関節亜脱臼に筋解離単独では、58%に再発を認めたと報告している。我々の渉猟し得たかぎり、麻痺性股関節脱臼に対する筋解離と大腰筋腱移行のみによる整復効果を検討した報告はなかった。

それに対して、軟部手術に骨手術を組み合わせた報告では、Erkenら¹⁾が、重度亜脱臼、脱臼39股に対し、筋解離と大腰筋腱移行に加え、必要に応じて観血的整復、大腿骨骨切り、Chiari骨盤骨切り術を組み合わせ、37例(95%)が整復位を保ったと報告している。しかし、骨手術を組み合わせた報告では、Staskikelisら³⁾が79例の股関節脱臼、亜脱臼に対する骨手術において、66例が歩行不能な重度CP児であり、そのうち3例の死亡を含んだ81%が骨折や褥瘡といった術後合併症

を発症したと報告した。また、特に胃瘻を有する重度CP児では、合併症リスクが高いと報告している。

今回の結果では、重度CP児でMP80%以上の脱臼例のみを対象とし、65%の整復率を得られており、軟部手術のみでも大腰筋腱の移行を追加することで、求心効果に関して一定の効果が得られたと考えられた。

また、本症例のような重度CP児では、低体重、てんかん、摂食不良など手術を行うにあたりさまざまな問題点が存在するため、最初から根治的な観血的整復や骨切り術などの骨手術を行い得ない症例も少なくない。低侵襲の術式を選択したことにより、今回の12例14股の経験では、死亡など重篤な合併症を認めなかったと考えられる。

術後成績への影響因子として、有意差を認めなかったが、整復群ではてんかんコントロール不良であったのは、8股中1股のみであったのに対し、脱臼群では5股中2股がてんかんコントロール不良であった。胃瘻の有無では両群間に差はなかった。

合併症のため、観血的整復や骨切り術など追加手術を行うことができない症例に対し、筋解離に加えて大腰筋腱移行術でも一時的な整復効果を得ることができると考えられた。しかし、白蓋のリモデリングは乏しいため、本術式は観血的整復や骨切り術を将来的に追加するtime saving operationと位置づける必要がある。

結 論

5歳以下の重度CP児の麻痺性股関節脱臼に対する筋解離に、大腰筋腱移行術を追加することによる、整復効果を検討した。

14股中9股は脱臼が整復され、その後も整復位が維持された。

文献

- 1) Erken EHW, Bischof FM: Iliopsoas transfer in cerebral palsy: The long-term outcome. J Pediatr Orthop 14 : 295-298, 1994.

- 2) Presedo A, Oh CW, Dabney KW et al: Soft-tissue releases to treat spastic hip subluxation in children with cerebral palsy. J Bone Joint Surg Am⁸⁷ : 832-841, 2005.
- 3) Staskikelis PJ, Lee DD, Sullivan CM: Complications of osteotomies in severe cerebral palsy. J Pediatr Orthop ¹⁹ : 207-210, 1999.
- 4) 寺本篤史, 松山敏勝, 糸田瑞央ほか: 重度脳性麻痺児での股関節脱臼に対する大腰筋前方移行術の併用効果について. 脳性麻痺の外科研究会誌 ¹³ : 33-36, 2003.
- 5) Turker RJ, Lee R: Adductor tenotomies in children with quadriplegic cerebral palsy: longer term follow-up. J Pediatr Orthop ²⁰ : 370-374, 2000.

Abstract

Muscle Tendon Release with Transfer of Psoas Tendon for Reduction of Hip Dislocation in Severe Cerebral Palsy

Takashi Matsumura, M. D., et al.

Hokkaido Medical Center for Child Health and Rehabilitation

We report the results after muscle tendon release with lateral transfer of the psoas tendon for reduction of hip dislocation in 14 cases under 5-years-old with severe cerebral palsy. To determine any factors for correlation to the results, we investigated the patient's age, body-weight, and any complication such as epilepsy, or any eating disorder. The average follow-up duration was 6 years 7 months. At most recent follow-up, the migration percentage was reduced from 94.3% to 60.9%. The reduced position was maintained in 9(65 %) of the 14 cases. In the other 5 cases, control of epilepsy was insufficient. These findings suggest that muscle tendon release with transfer of the psoas tendon was effective for reduction, and can replace the need for wide open reduction and osteotomy in young cases of severe cerebral palsy with hip dislocation.

小児手部マムシ咬傷に対して抗毒素血清投与と減張切開を行った1例

愛育病院 整形外科

畑 中 渉

要 旨 マムシは琉球列島を除く日本全土に生息し、その治療には抗毒素血清が使用されるが、治療法はいまだ確立されていない。抗毒素血清投与と減張切開術にて回復が得られた小児マムシ咬傷の1例を経験した。ヘビ咬傷に対する根本的な治療薬として抗毒素血清があるが、アナフィラキシーショックを起こすこともあり、その使用には賛否がある。また、抗毒素血清を小児マムシ咬傷に投与した報告例は少ない。マムシ咬傷では迅速かつ適切な初期治療が大切である。

はじめに

マムシは琉球列島を除く日本全土に生息しており、年間2000～3000例の咬傷が生じ、年間10～20人の死亡が起きている。小児のマムシ咬傷例の報告は少なく、その治療法に関しては議論が残る。抗毒素血清を投与し、減張切開することとなった手部小児マムシ咬傷の1例を経験したので報告する。

症 例

症 例 : 8歳, 男児

既往歴 : AD/HD(注意欠陥多動性障害)で治療中

家族歴 : 特記すべきことなし

現病歴 : 札幌近郊の山に登山中に、ヘビを捕まえて振り回して遊んでいた時に左示指を咬まれて受傷。下山後、腫脹が前腕部まで拡大してきたため、近医を受診しようとするが、ヘビ咬傷のため2院所で断られ、受傷4時間後に時間外受診となった。

初診時、左示指中節部と末節部の掌側に2箇所の牙痕を認め(図1)、中節部より遠位の変色を伴



図1. 左示指中節部と末節部の掌側に2箇所の牙痕を認める。

う腫大があり、手関節部まで腫脹は連続していた。示指指尖部の感覚鈍麻を認めた。複視などの視覚障害は認めなかった。受診時には、ヘビの種類は不明であったが、父親からマムシに咬まれたとの報告がその後にあった。

初診時の段階では、患児は元気でバイタル変動なく安定しており、重症感にはなかったが、コン

Key words : mamushi viper bite(マムシ咬傷), mamushi antitoxin(抗毒素血清), relaxation incision(減張切開)

連絡先 : 〒064-0804 北海道札幌市中央区南4条西25丁目2番1号 小児愛育協会附属 愛育病院 整形外科 畑中 渉
電話(011)563-2211

受付日 : 2014年2月18日

表 1. マムシ咬傷の Grade 分類

Grade	所見
Grade I	咬まれた局所のみ発赤, 腫脹
Grade II	手関節または足関節までの発赤, 腫脹
Grade III	肘関節または膝関節までの発赤, 腫脹
Grade IV	1 肢全体に及ぶ発赤, 腫脹
Grade V	それ以上の発赤, 腫脹

パートメント症候群発症も危惧されたため, 局所を小切開し, 破傷風トキソイドを投与した後, 挙上安静と抗菌薬点滴目的に入院となった. 崎尾らのマムシ咬傷の Grade 分類⁶⁾では Grade II と判断した(表 1). マムシ抗毒素血清に関しては, 院内に在庫がなく, 週末のため卸問屋に連絡がつかない状態で確保できなかったため, 投与しなかった.

翌朝, 上肢全体に腫脹が増強するとともに疼痛の増強があり, Grade IV に悪化とコンパートメント症候群発症が懸念された(図 2). 市内病院に抗毒素血清在庫を問い合わせた結果, 確保できたため, 抗毒素血清を投与するとともに全身麻酔下にコンパートメント圧測定を行ったところ, 内圧上



図 2. 肘関節を超え, 上腕部まで腫大変色を認めた.

昇(手掌 50 mmHg 台, 手背 30~40 mmHg 台, 前腕背側 30 mmHg 台)を認めたため, 減張切開術を施行した.

その後, 自覚的にもデータの的にも改善を認め, 第 11 病日に創の縫縮を行い, 第 15 病日に自宅退院となった.

術後 1 年経過し, 創癒痕形成と示指 MP 関節の軽度自動屈曲制限を認めるが, 日常生活上の機能障害は認めていない(図 3).

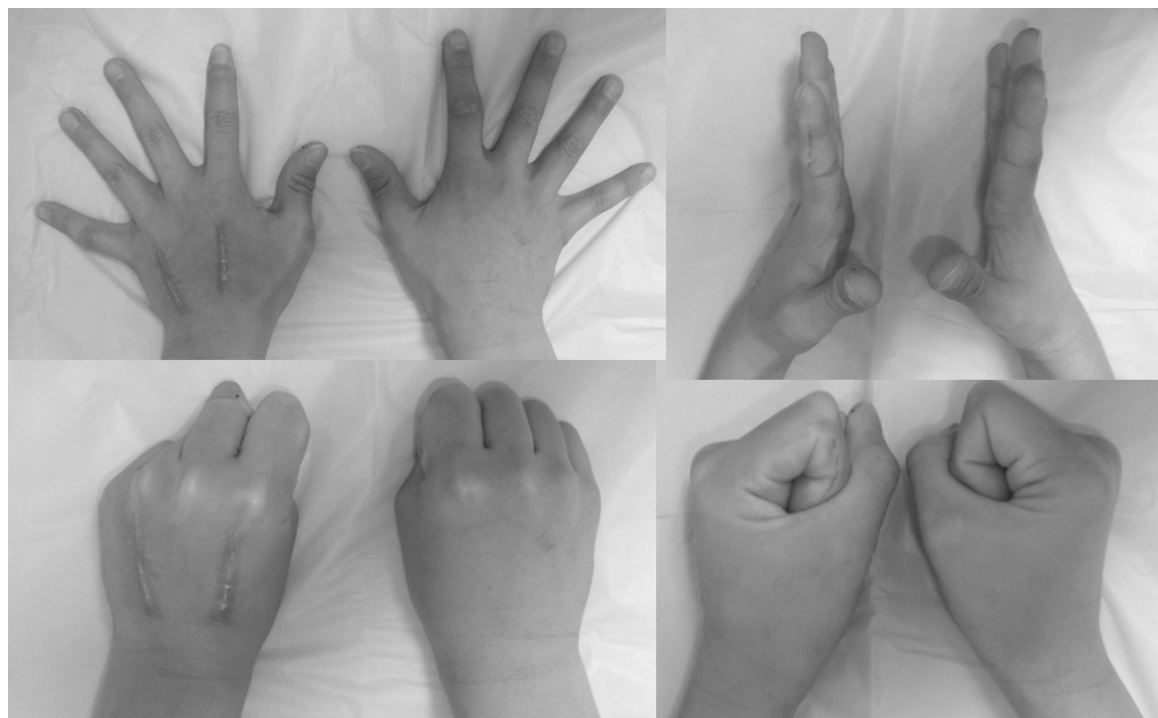


図 3. 創癒痕形成と示指 MP 関節の軽度自動屈曲制限を認める.

考 察

国内に生息する毒蛇にはマムシ、ヤマカガシ、ハブがあるが、マムシは琉球列島を除く日本全土に広く生息している。

ヘビ毒は、出血毒と神経毒に大別される。神経毒は主にコブラなどが持つ毒で、筋肉を弛緩もしくは収縮させることで横隔膜をストップさせ、呼吸を不可能とする。出血毒はマムシやハブなどの毒で、毒の中のプロテアーゼがフィブリンを分解することによって血液凝固を阻害して、出血を起こさせる。

マムシ毒にはプロテアーゼのほかにも、ホスホリパーゼ A、アルギニンエステル水解酵素、ヒアルロニダーゼなどの多くの酵素が含まれ、溶血、筋壊死、血管収縮、血圧低下などさまざまな作用を示すために、マムシ咬傷の病態を複雑にしている⁵⁾⁹⁾。また、量は少ないが毒性そのものではハブよりもはるかに強く、ハブの2～3倍はあるので、十分な注意が必要である。

マムシ咬傷は年間2000～3000例とされており、そのうち小児例は5～10%と考えられているが、Grade III以上の小児重症例の報告は少ない。

受傷直後は、マムシ咬傷の診断は必ずしも容易ではないが、並列する2個の牙痕が特徴的であり、急激に拡大する腫脹、複視や霧視などの眼症状、嘔吐や心悸亢進などの全身症状を伴うこともある。特に小児例では、相対的に毒素注入量が多くなり、重症化しやすいと考えられる³⁾。

ヘビ咬傷に対する処置に確立されたものはない。受傷直後の、中枢側の緊縛などの応急処置後に速やかな医療機関への受診が必要である。受診後には病態の適切な評価の後に、輸液・抗菌薬を開始し、局所の腫脹が強い場合は、減張切開が考慮される。減張切開については、有効との報告と創傷治癒を遷延させてしまうとの報告もあり、症例に応じた選択が必要とされる。

根本的な治療薬として抗毒素血清があるが、馬の血液を素にして作られているため、3～5%にアナフィラキシーショック⁷⁾を、10～20%に血清病⁴⁾

を発症すると言われており、その使用には賛否がある。また、抗毒素血清を小児マムシ咬傷に投与した報告例は少ない。しかし判例には、マムシ咬傷による死亡例に対して抗毒素血清の投与が遅れたとして医師注意義務違反という判決がされた判例²⁾もあり、その投与には慎重な選択が必要とされる。投与時期については、受傷6時間以内(遅くとも24時間以内)で、マムシ咬傷のGrade分類でGrade III以上と言われている⁸⁾が、今回は6時間以上経過した翌朝の投与となったため、家族に有効性と危険性について十分説明のうえ行った。

セファランチンは、副作用はないが、マムシ毒への中和作用もないという報告¹⁾があり、今回は使用しなかった。

マムシ咬傷の頻度は少なく、担当医師の判断に基づいた治療が行われていたのが現状であり、いままでも明確な治療指針は決められていなかった。受傷初期には重症度推測が困難であり、院内マニュアルの整備が必要と考えられた。

結 語

抗毒素血清投与と減張切開術にて、回復が得られた小児マムシ咬傷を経験した。マムシ咬傷では迅速かつ適切な初期治療が大切であるが、経験が少ないと判断に遅れることがあり、注意を要する。

文献

- 1) 海老沢功, 沢井芳男, 川村善治: マムシ咬傷に対するセファランチン療法の問題点. 日本医事新報 **3677**: 46-49, 1994.
- 2) 平成2年7月12日鳥取地裁判決: 判例時報 **1367**: 87-98, 1990.
- 3) Lopoo JB, Bealer JF, Mantor PC et al: Treating the snakebitten child in North America; a study of pit viper bites. J Pediatr Surg **33**: 1593-1595, 1998.
- 4) 真栄城優夫: 蛇毒咬傷. 救急医学 **3**: 1378-1383, 1979.
- 5) 堺 淳: マムシ, ヤマカガシ, ハブ. 救急医学 **25**: 162-164, 2001.
- 6) 崎尾秀彦, 横山孝一, 内田朝彦ほか: 当院におけるマムシ咬傷について. 臨床外科 **40**: 1295-

1297, 1987.

- 7) 高山孝弘, 山縣司政, 浜本貞徳ほか: 当院におけるマムシ咬傷 21 例の検討. 広島医学 58 : 262-265, 2005.
- 8) 瀧 健治, 岩村高志, 大串和久ほか: マムシ咬傷

の治療法の変遷. 新薬と臨床 55 : 177-192, 2006.

- 9) 都築 靖, 秋山典夫, 金本和男ほか: マムシ咬傷の治療経験からの考察—13 年間 58 症例より—. 外科 43 : 1023-1027, 1981.

Abstract

Anti-Toxin and Relaxation Incision Treatment after Mamushi Viper Bite

Wataru Hatanaka, M. D.

Department of Orthopaedic Surgery, Aiiiku Hospital

We report a rare pediatric case of a Mamushi viper bite successfully treated using anti-toxin and relaxation incision. The Mamushi pit viper is native to all areas of Japan except the Ryukyu Islands, and there is no recognised treatment yet for its bite. After considering the pros and cons including anaphylactic shock, we applied anti-toxic serum used generally for snake bites. There are very few reports of treating a pit viper bite using anti-toxin serum. Our findings suggest early intervention was key to the successful treatment preventing serious complications.

發育性股関節形成不全初期治療後の臼蓋形成不全に対する ソルター骨盤骨切り術の長期成績不良因子

金子浩史¹⁾・鬼頭浩史²⁾・三島健一²⁾・松下雅樹²⁾
岩田浩志¹⁾・北村暁子¹⁾・石黒直樹²⁾・服部 義¹⁾

1) あいち小児保健医療総合センター 整形外科

2) 名古屋大学医学部 整形外科

要 旨 發育性股関節形成不全(DDH)初期治療後の臼蓋形成不全において、ソルター骨盤骨切り術(SIO)後にもかかわらず、骨成熟時に臼蓋の被覆が不十分になる症例が存在する。保存的整復後5～6歳時にSIOを施行し、骨成熟時まで観察した片側DDH症例46関節を対象とし、成績不良因子を検討した。成績良好群40関節(Severin group I, II)と不良群6関節(group III)間で、術前臼蓋角、術後の遠位骨片外側移動距離、CE角の推移(術前、8～9歳時、11～12歳時、骨成熟時)を比較した。術前の臼蓋角とCE角は2群間で差を認めなかった。遠位骨片外側移動距離は不良群で有意に小さかった(良好群平均4.0 mm, 不良群平均0.4 mm)。不良群の術後CE角は手術側では横ばいで推移し、対側では良好群と比べ緩徐に増加していた。臼蓋發育能力がSIOの成績を左右する可能性が示唆されたが、5～6歳時にこれを予測することは困難であった。遠位骨片の十分な外側への移動が、長期成績を良好にする要因であった。

序 文

發育性股関節形成不全(Developmental Dysplasia of the Hip, 以下DDH)初期治療後に遺残した臼蓋形成不全に対する補正手術として、ソルター骨盤骨切り術(Salter Innominate Osteotomy: 以下, SIO)が広く行われており、その長期成績はおおむね良好である¹⁾²⁾³⁾。SIOの目的は、大腿骨頭に対する臼蓋の被覆を幼児期～学童期初期に補正し、成人期の変形性股関節症を予防することである。しかし、期待に反して、成長に伴い臼蓋の被覆が不十分になる症例を経験することがある⁴⁾。

また、成長に伴い顕在化する臼蓋形成不全も報告されており、乳幼児期に片側DDHとして治療した症例の13.6～40%に、対側の臼蓋形成不全が

骨成熟時に確認されている⁶⁾¹⁰⁾。このような股関節の潜在的發育能力が、SIOの長期成績に影響を及ぼすか否かは明らかではない。

本研究では、片側SIO施行例の成績不良因子を、手術側だけでなく対側股関節の發育にも着目し検討した。

対象・方法

1982～2004年、名古屋大学医学部附属病院において、DDH保存的整復後に遺残した臼蓋形成不全109例118関節に対してSIOを施行した。SIO単独施行後の変化と対側の臼蓋形成の経過を評価するため、大腿骨骨切り術併用例および両側施行例を除外した。さらに、大腿骨頭壊死(Avascular Necrosis: 以下, AVN)発生例も、骨頭の

Key words : developmental dysplasia of the hip(發育性股関節形成不全), residual acetabular dysplasia(遺残性臼蓋形成不全), conservative reduction(保存的整復), Salter innominate osteotomy(ソルター骨盤骨切り術)

連絡先 : 〒474-8710 愛知県大府市森岡町尾坂田1-2 あいち小児保健医療総合センター 整形外科 金子浩史
電話(0562)43-0500

受付日 : 2014年3月18日

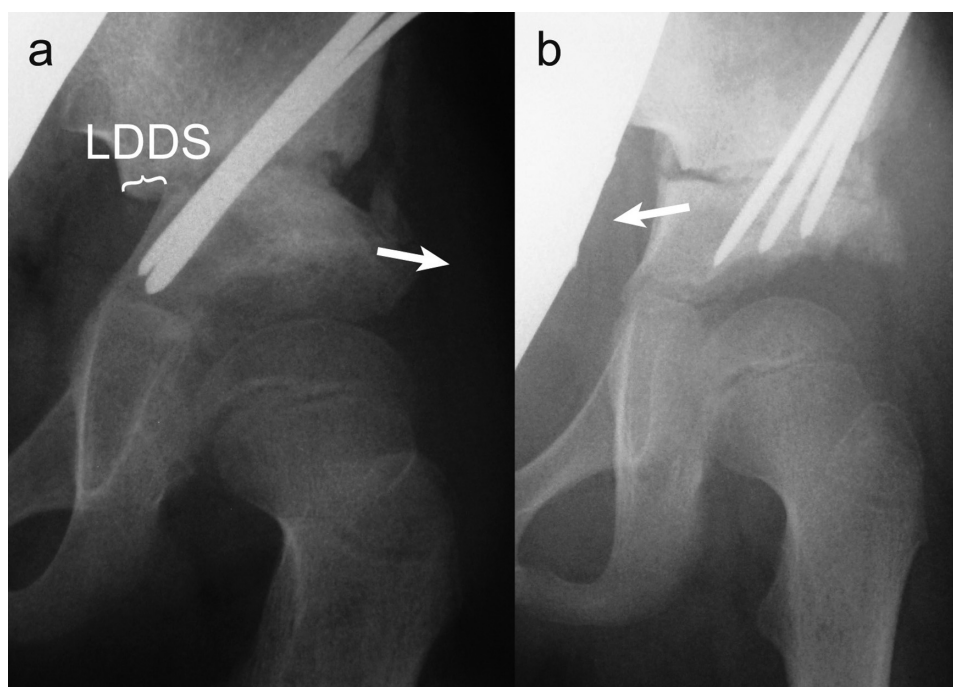


図1. ソルター骨盤骨切り術による LDDS
遠位骨片が外側へ移動した場合は+ (a), 内側へ移動した場合は- (b)で表記.

変形が臼蓋の発育に影響を及ぼす可能性があるため除外した. 最終的に, 骨成熟時まで追跡可能であった片側 DDH46 例 46 関節を対象とした.

対象の内訳は女 43 例, 男 3 例, 罹患側は左 29 関節, 右 17 関節であった. 術後観察期間は平均 10 年 (8~20 年), 最終観察時年齢は平均 16.1 歳 (14~26 歳) であった.

当施設の DDH に対する治療体系は以下の如くである⁴⁾. 生後 3~6 か月の脱臼に対する初期治療としてリーメンビューゲル法 (Riemenbügel 法, 以下 RB) を, 生後 7 か月以降または RB 不成功例に対してオーバーヘッド牽引法 (OverHead Traction 法, 以下 OHT) を用いて整復を試みる. 整復後に遺残した臼蓋形成不全に対する SIO の適応は, 5~6 歳時に臼蓋角 $\geq 30^\circ$ または CE 角 $\leq 5^\circ$ である. 術後 1~2 年に 1 回, 骨盤正面 X 線写真を撮影し, 骨成熟時まで経過観察している.

評価項目として家族歴, 整復方法, 整復時月齢, 手術時年齢を診療録から調査し, X 線所見として術前および術後早期 (1 年以内) の臼蓋角と CE 角, SIO による遠位骨片外側移動距離 (Lateral Dis-

placement of the Distal Segment: 以下, LDDS, 図 1, 遠位骨片が外側へ移動した場合は+, 内側へ移動した場合は-で表記)⁵⁾, 術後 CE 角の推移 (8~9 歳時, 11~12 歳時, 骨成熟時) を計測した.

骨成熟時の CE 角を用いて Severin 分類による評価を行い, 成績良好群 (group I または II) と不良群 (group III 以上) に分け, 各項目について 2 群間で比較検討した. 統計処理は IBM SPSS Statistics ver.20 を用いて Chi-square test と Mann-Whitney U test を行い, $p < 0.05$ を有意差ありとした.

結 果

成績良好群は 40 関節 (Severin group I: 35 関節, group II: 5 関節), 不良群は 6 関節 (group III) であった. Severin group II の症例では, 大腿骨頸部の肥大や短縮を認めた.

良好群の 11 関節 (27.5%) と不良群の 1 関節 (16.7%) に家族歴を認めた (表 1). 整復方法は RB, RB 不成功後 OHT, OHT の 3 種類に分けられ, それぞれ 12, 13, 21 関節であり, そのうち

表 1. SIO の長期成績良好群 (Severin group I + II) と不良群 (group III) の比較

評価項目			良好群 (n = 40)	不良群 (n = 6)	p 値
家族歴 (あり / なし)			11/29	1/5	N.S.
整復方法 (RB/RB 後 OHT/OHT)			12/12/16	0/1/5	N.S.
整復時月齢			13 か月 (3～50 か月)	11.8 か月 (7～18 か月)	N.S.
手術時年齢			5.8 歳 (5～7 歳)	5.5 歳 (5～6 歳)	N.S.
白蓋角	術前	手術側	33.1° (25～44°)	32.7° (29～38°)	N.S.
		対側	23.4° (18～32°)	25.2° (19～30°)	N.S.
	術後早期		20.2° (15～27°)	22.1° (20～26°)	N.S.
CE 角	術前	手術側	－ 1.6° (－ 14～8°)	－ 4.5° (－ 13～2°)	N.S.
		対側	9.1° (1～19°)	7.7° (1～12°)	N.S.
	術後早期		20.6° (7～30°)	17° (10～20°)	N.S.
LDDS			4.0 mm (－ 5～9 mm)	0.4 mm (－ 2.5～3 mm)	0.002*
骨成熟時の対側白蓋形成不全 CE 角 < 20° (あり / なし)			3/37	4/2	< 0.001*

SIO : ソルター骨盤骨切り術, RB : リーメンビュージェル装具, OHT : オーバーヘッド牽引法, LDDS : 遠位骨片外側移動距離

N.S. : 有意差なし

12(100%), 12(92.3%), 16(76.2%) 関節が良好群に含まれていた(表 1). 整復時月齢は, 良好群平均 13.0 か月 (3~50 か月), 不良群平均 11.8 か月 (7~18 か月), 手術時年齢は, 良好群平均 5.8 歳 (5~7 歳), 不良群平均 5.5 歳 (5~6 歳) であった(表 1). 家族歴, 整復方法, 整復時月齢, 手術時年齢に関して, 2 群間で有意な差を認めなかった.

以下, X 線計測値を良好群平均(幅) vs. 不良群平均(幅)で示す. 術前白蓋角は手術側 33.1° (25~44°) vs. 32.7° (29~38°), 対側 23.4° (18~32°) vs. 25.2° (19~30°) であり, 術前 CE 角は手術側 - 1.6° (- 14~8°) vs. - 4.5° (- 13~2°), 対側 9.1° (1~19°) vs. 7.7° (1~12°) であった(表 1). また, 術後早期の白蓋角は 20.2° (15~27°) vs. 22.1° (20~26°), 術後早期の CE 角は 20.6° (7~30°) vs. 17° (10~20°) であった(表 1). 術前後の白蓋角と CE 角に関して, 2 群間で有意な差を認めなかった.

LDDS は 4.0 mm (- 5~9 mm) vs. 0.4 mm (- 2.5~3 mm) であり, 不良群において有意に小さかった ($p = 0.002$) (表 1). LDDS が + 3.5 mm 以上

の症例は, 全例良好群に含まれていた.

CE 角の経時的推移を図 2 に示す. 手術側 CE 角は 8~9 歳以降で 2 群間に有意な差を認めた(図 2-a) : 8~9 歳時 23.0° (7~37°) vs. 16.7° (10~21°) ($p = 0.004$), 11~12 歳時 27.8° (17~36°) vs. 17.3° (11~21°) ($p < 0.001$), 骨成熟時 30.1° (21~39°) vs. 16.5° (9~19°) ($p < 0.001$). 一方, 対側 CE 角は 11~12 歳時と骨成熟時で 2 群間に有意な差を認めた(図 2-b) : 8~9 歳時 14.2° (7~23°) vs. 9.5° (1~15°) ($p = 0.059$), 11~12 歳時 21.1° (11~35°) vs. 12.8° (5~20°) ($p = 0.005$), 骨成熟時 26.7° (16~39°) vs. 17.8° (14~22°) ($p < 0.001$).

骨成熟時の対側股関節において, 白蓋形成不全 (CE 角 < 20°) を良好群 3 例 (7.5%) に対し不良群 4 例 (66.7%) に認め(図 3-b), 2 群間で有意な差を認めた ($p < 0.001$) (表 1).

考 察

DDH 初期治療後に遺残した白蓋形成不全に対する SIO の有効性は 71.1~91.7% (Severin group

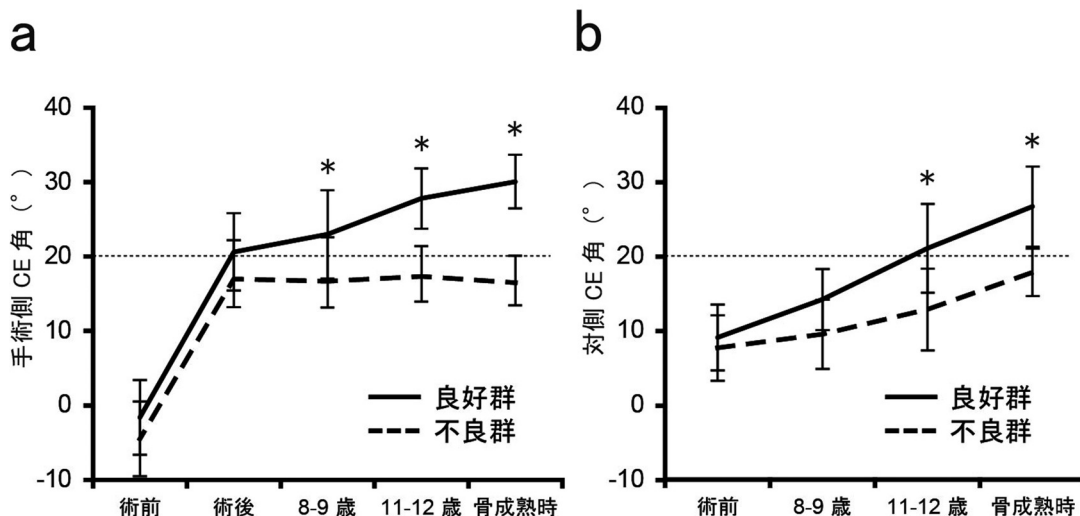


図 2. CE 角の経時的推移

a: 手術側 CE 角. 不良群は術後, 横ばいで推移している.

b: 対側 CE 角. 不良群は良好群と比べ緩徐に増加している.

* $p < 0.05$

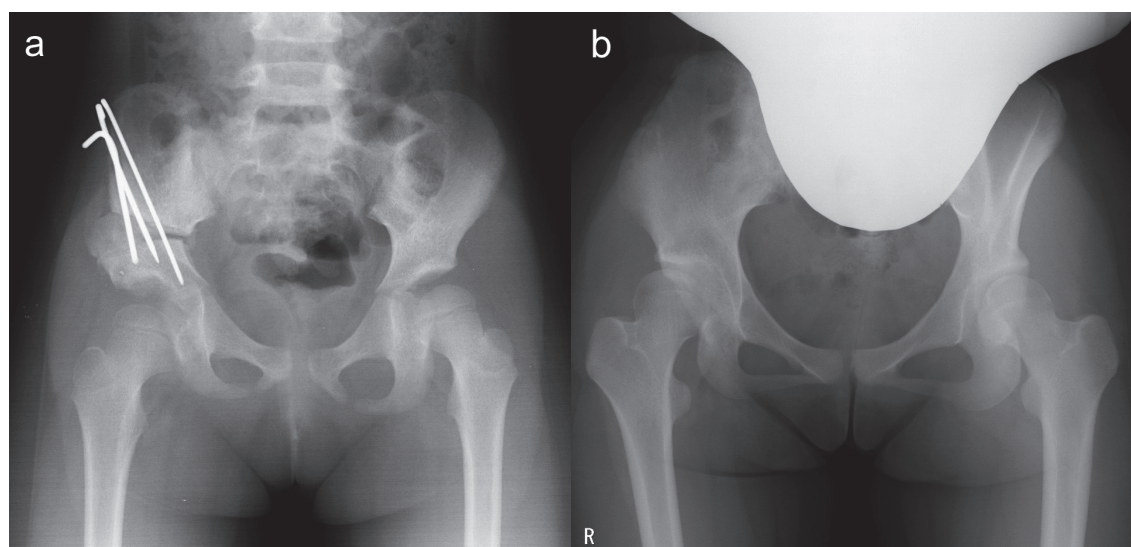


図 3. 症例: 右ソルター骨盤骨切り術 成績不良例 (Severin group III)

a: 5 歳, 術後 2 か月. 対側股関節は正常な形態. LDDs は 2.5 mm.

b: 14 歳, 術後 9 年. CE 角は手術側 18°, 対側 16°. 対側臼蓋形成不全を認める.

I および group II) と報告されている¹⁾²⁾³⁾⁵⁾⁸⁾. 本研究においても同様に 87% は成績良好であったが, 残り 13% は術後の臼蓋の発育が不十分 (group III) であった.

整復方法と整復時月齢は, 明らかな成績不良因子ではなかった. Lindstrom らは, 整復時月齢が高ければ高いほど, 整復後の臼蓋の発育が不良に

なると報告している⁷⁾. 本研究において, RB にて整復された症例 (生後 3~6 か月) に成績不良例はなかったが, 初期治療が OHT (生後 7 か月以降) だと 23.8% が不良例であった. 有意な差を認めなかったが, 整復時月齢が遅れる OHT では SIO の長期成績が不良になる傾向があった.

術前の放射線学的尺度と SIO の長期成績との

関連についての報告がいくつかある。術前臼蓋角は成績と関連がないとする諸家の報告³⁾⁸⁾と同様、本研究でも明らかな関連はなかった。一方、Ito ら³⁾は術前 CE 角を成績不良因子として挙げているが、本研究において明らかな関連はなかった。Ito らの症例には AVN 合併例が 20%含まれている³⁾。AVN に伴う骨頭の扁平化や肥大化が存在すると、術前 CE 角は相対的に小さくなる。本研究では、AVN 合併例をあらかじめ除外しており、より正確に術前 CE 角を検討できたと考ええる。

臼蓋部分が含まれる LDDS は、成績不良群において有意に小さかった(表 1)。Salter と Dubos⁹⁾は遠位骨片が後方または内側に移動することを避けるように提唱しており、これは SIO の手術手技において最も重要な点として広く理解されている。我々は、LDDS と術後 CE 角の増加に正の相関があることを過去に報告している⁵⁾。LDDS を最大限に獲得するため、遠位骨片を骨鉗子で把持しながら前外側に引き出した後、Salter の maneuver を行い、骨切り部を開大させることが重要と考える。本研究において、不良群ではこの操作が不十分であった可能性がある。しかし、CE 角は術後早期に 2 群間で明らかな差がなく、8~9 歳以降に有意差を認めた(図 2-a)。また、良好群の手術側 CE 角が成長とともに増加する一方で、不良群の CE 角は横ばいで推移しており(図 2-a)、成長とともに関与する因子の存在が示唆された。

片側 DDH として治療を受けた症例における骨成熟時の対側股関節の臼蓋形成不全について、Song ら¹⁰⁾は 40%の症例に対側臼蓋形成不全が確認できたと報告し、Kobayashi ら⁶⁾は 13.6%に確認でき、12 歳以降で明らかになったと報告している。本研究では、本邦の Kobayashi ら⁶⁾の報告と同様、全体の 15.2%に対側臼蓋形成不全を認めた。この対側臼蓋形成不全は、SIO の長期成績不良例で有意に多く認められた(表 1)。また、対側 CE 角の経時的推移に関して、不良群は良好群と比べ緩徐に増加し、11~12 歳以降で有意差を認めた(図 2-b)。以上の結果から、片側 DDH とし

て治療を受けた患者において、後に顕在化する対側臼蓋形成不全は、SIO の長期成績不良因子の一つと考えられる。しかし、この潜在的な臼蓋発育能力の低下が明らかになるのは 11~12 歳頃であり、術前(5~6 歳)にこれを予測することは困難である。

成績良好群に含まれていた対側臼蓋形成不全の 3 症例は LDDS が 6~7 mm と大きかったのに対し、不良群の 4 症例は -2.5~3 mm と小さかった(図 3)。症例数が少ないため、有意な移動距離を明らかにすることはできないが、潜在的に臼蓋発育能力の低下があったとしても、遠位骨片を十分に外側へ移動できれば、良好な結果に導くことができるかもしれない。

結 論

1) 患者自身が持つ臼蓋の発育能力が SIO の長期成績と関連していたが、5~6 歳時に予測することは困難である。

2) 遠位骨片の十分な外側への移動により、良好な長期成績が期待できる

文献

- 1) Böhm P, Brzuske A: Salter innominate osteotomy for the treatment of developmental dysplasia of the hip in children: results of seventy-three consecutive osteotomies after twenty-six to thirty-five years of follow-up. *J Bone Joint Surg* 84-A : 178-186, 2002.
- 2) Gulman B, Tuncay IC, Dabak N et al: Salter's innominate osteotomy in the treatment of congenital hip dislocation: a long-term review. *J Pediatr Orthop* 14 : 662-666, 1994.
- 3) Ito H, Ooura H, Kobayashi M et al: Middle-term results of Salter innominate osteotomy. *Clin Orthop Relat Res* 387 : 156-164, 2001.
- 4) Kaneko H, Kitoh H, Mishima K et al: Long-term outcome of gradual reduction using overhead traction for developmental dysplasia of the hip over 6 months of age. *J Pediatr Orthop* 33 : 628-634, 2013.
- 5) Kitoh H, Kaneko H, Ishiguro N: Radiographic analysis of movement of the acetabulum and

- the femoral head after Salter innominate osteotomy. *J Pediatr Orthop* **29** : 879–884, 2009.
- 6) Kobayashi D, Satsuma S, Kuroda R et al: Acetabular development in the contralateral hip in patients with unilateral developmental dysplasia of the hip. *J Bone Joint Surg* **92-A** : 1390–1397, 2010.
- 7) Lindstrom JR, Ponseti IV, Wenger DR: Acetabular development after reduction in congenital dislocation of the hip. *J Bone Joint Surg* **61-A** : 112–118, 1979.
- 8) Morin C, Rabay G, Morel G: Retrospective review at skeletal maturity of the factors affecting the efficacy of Salter's innominate osteotomy in congenital dislocated, subluxed, and dysplastic hips. *J Pediatr Orthop* **18** : 246–253, 1998.
- 9) Salter RB, Dubos JP: The first fifteen year's personal experience with innominate osteotomy in the treatment of congenital dislocation and subluxation of the hip. *Clin Orthop Relat Res* **98** : 72–103, 1974.
- 10) Song FS, McCarthy JJ, MacEwen D et al: The incidence of occult dysplasia of the contralateral hip in children with unilateral hip dysplasia. *J Pediatr Orthop* **28** : 173–176, 2008.

Abstract

Prognostic Factors for Unsatisfactory Outcome after Salter Innominate Osteotomy for Residual Dysplasia in Developmental Dysplasia of the Hip

Hiroshi Kaneko, M. D., et al.

Department of Orthopaedic Surgery, Aichi Children's Health and Medical Center

Even after Salter innominate osteotomy (SIO) for residual dysplasia in developmental dysplasia of the hip (DDH), some children still present remaining dysplasia at skeletal maturity. Here we investigate the prognostic factors for unsatisfactory outcome in 46 cases that underwent SIO for unilateral DDH at preschool age, and were followed until skeletal maturity. The 46 hips were divided into two groups, with 40 hips at Severin I or II in the satisfactory group, and 6 hips at Severin III in the unsatisfactory group. We investigated differences between the two groups in preoperative acetabular index (AI), the amount of lateral displacement of the distal segment (LDDS) after SIO, and CEA change (preoperative, at 8–9 years of age, at 11–12 years of age, and at skeletal maturity). There were no significant differences between the two groups in preoperative AI, or in CEA. LDDS was significantly smaller in the unsatisfactory group (average 0.4 mm) than in the satisfactory group (average 4.0 mm). In the unsatisfactory group, the postoperative CEA of the affected hip was unchanged during growth, while the CEA of the contralateral hip increased more slowly in the unsatisfactory group than in the satisfactory group. These findings suggest that the genetic potentiality for acetabular growth was associated with the final outcome of SIO, although it could not be predicted at preschool age. LDDS was concluded to be a critical indicator for SIO to achieve satisfactory results at skeletal maturity.

無痛症 2 症例における骨折後仮骨過形成についての検討

大阪市立総合医療センター

清水 勇 人・北 野 利 夫・江 口 佳 孝
中 川 敬 介・和 田 麻由子

要 旨 先天性無痛症患者は無痛，知的障害が臨床的特徴所見の一つとして挙げられる．それにより危険な行為が増え，容易に骨折性を繰り返すといわれている．骨折した際の仮骨過形成は特徴的な所見であり，局所の安静が保てないことが原因として考えられてきた．しかし，今回経験した症例では，局所の安静が保たれているにもかかわらず仮骨過形成が生じていたため，局所安静以外の原因もあると考えられた．当院で経験した 2 症例を報告し，これら 2 症例の骨折後仮骨過形成に焦点を当て，文献的考察を加えた．

症例提示

症例 1 : 0 歳 8 か月，女児

現病歴 : 生後 5 か月の時に特に誘因なく左大腿の腫脹が出現し，顔面には擦過傷，指には潰瘍形成などがあり，当院受診した．診察の結果，虐待疑いで児童相談所に通報され保護入院となり，保健師介入のもといったん退院となった．退院後，7 か月時に特に誘因なく右手掌に 3 度の熱傷痕，左下腿の腫脹を認めたため，乳児院に入院となった．乳児院入院中の 8 か月でも特に誘因なく，右下腿の腫脹を認めたため，無痛症が疑われ精査加療目的で当院入院となった．

身体所見 : 舌，指に潰瘍形成を認め，中切歯の脱臼を認めた．温痛覚は消失しており，発汗も低下していた．

遺伝子検査 : Neurotrophic Tyrosine Receptor Kinase1 (NTRK1) 遺伝子，Nerve Growth Factor β (NGF β) 遺伝子は正常であった．

遺伝子検査は正常であったが，身体所見から先

天性無痛症と診断した．

骨折治療経過 : 生後 5 か月時に左大腿腫脹を認め，単純 X 線撮影を施行したところ，左大腿骨骨幹部骨折を認めたため，ヒップスパイカキャスト加療を行った．受傷 3 週後に非常に旺盛な仮骨の形成を認めた (図 1)．

生後 7 か月時に左下腿腫脹を認め，単純 X 線撮影を施行したところ，すでに仮骨の形成を認めた．ギプス固定を行い，発見 2 週後には非常に旺盛な仮骨の形成を認め，10 週後にはリモデリングを認めていた．

生後 8 か月時に右下腿腫脹を認め，単純 X 線撮影を施行し，右脛骨近位部骨端線損傷と診断した．ギプス固定を行い，2 週後には仮骨の形成，5 週後にはさらに旺盛な仮骨の形成を認めた．

症例 2 : 3 歳，男児

現病歴 : 生後 6 か月時に先天性無痛症と診断された．3 歳時に，特に誘因なく左大腿部に腫脹を認め，左大腿骨骨幹部骨折と診断し，加療目的で入院となった．

Key words : congenital insensitivity to pain (先天性無痛症)，hypertrophic callus (仮骨過形成)，gene disorder (遺伝子変異)

連絡先 : 〒 530-0033 大阪府大阪市北区池田町 3-21-903 大阪市立総合医療センター 整形外科 清水勇人
電話 (090) 1598-6941

受付日 : 2014 年 3 月 26 日



図 1. 左大腿骨 X 線

a: 受傷時(生後 5 か月) b: 3 週間後 c: 10 週間後

身体所見: 中切歯の脱臼を認め、温痛覚は消失しており、発汗も低下していた。

遺伝子検査: 遺伝子検査については、家族の意向により現在のところ行っていない。

骨折治療経過: 左大腿骨骨幹部骨折に対して、麻酔科医により全身麻酔下手術が可能であると判断されたことから、同日手術を施行した。SYNTHES 1/3 円プレートを用いて固定を行った。術後経過良好であったが術後 2 週経過時、再度左大腿部に腫脹を認め、単純 X 線でプレートを含めた再骨折を認めた。再骨折診断同日、再手術施行した。SYNTHES LC-DCP small を用いて骨折部の再固定を行った。再手術後 3 週で旺盛な仮骨の形成を認め、術後 8 週ではさらに仮骨の形成を認めた(図 2)。

考 察

先天性無痛症は、遺伝性感覚性・自律神経系ニューロパチーの 4 型または 5 型に分類され、

NTRK1 遺伝子に変異のあるものは 4 型、NGF β 遺伝子に変異のあるものは 5 型に分類される。先天性無痛症は、無痛のため生体防御反応が不十分となり、体の扱いが乱暴になること、知的障害により危険な行為が増えることにより容易に骨折を繰り返すといわれている⁴⁾。

先天性無痛症の骨折における特徴的所見として、変形治癒と仮骨過形成が挙げられる。変形治癒の原因としては、無痛であるため免荷を守ることができないことが考えられている²⁾⁶⁾。仮骨過形成の原因として、局所の安静が保てないこと⁵⁾が考えられてきた。

しかし、今回経験した症例において、局所安静が保たれているにもかかわらず仮骨過形成が起こったため、局所安静が保たれない以外にも仮骨過形成の原因があると考えられた。

先天性無痛症の原因遺伝子である NTRK1 遺伝子、NGF β 遺伝子は骨折治癒過程の際、骨芽細胞の分化やプログラム細胞死を調整する役割があ

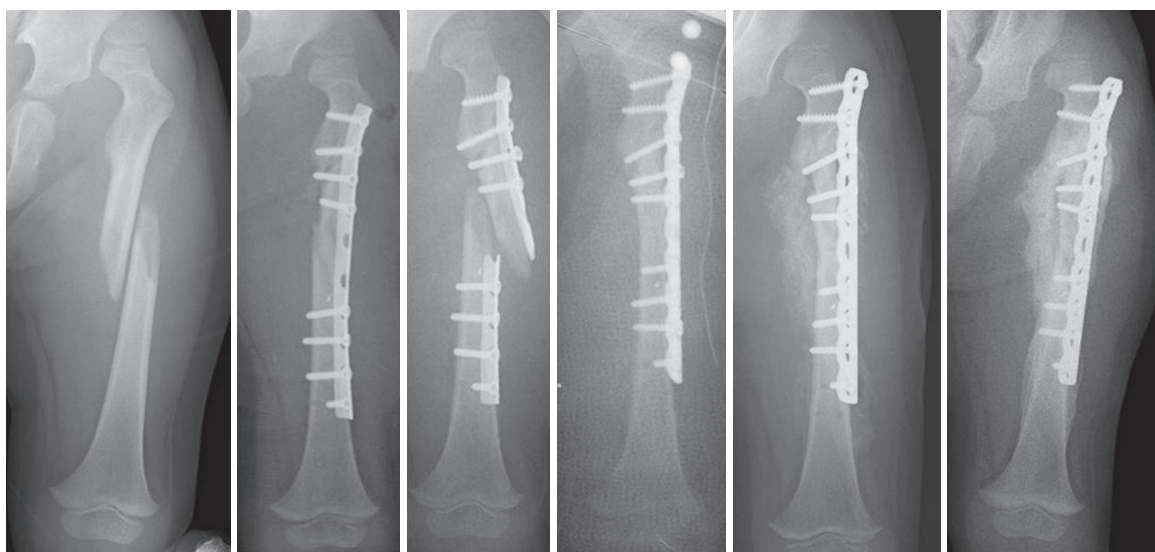


図 2. 左大腿 X 線

a: 受傷時(3 歳) b: 同日 1/3 円プレートにて内固定 c: 術後 2 週後プレートの破損を認めた d: プレート破損を認めた同日 LC-DCP にて内固定 e: 術後 3 週 f: 術後 5 週

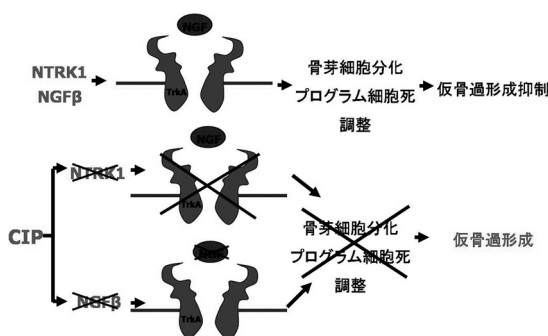


図 3. 骨折治癒のプロセス

るといわれており、NTRK1 遺伝子、NGF β 遺伝子の変異が起こると、骨芽細胞の分化やプログラム細胞死を調整することができず、結果として仮骨過形成が発生する¹⁾³⁾と報告されている(図 3)。

今回の症例では症例 1 に関しては、局所の微小運動(micro motion)により、仮骨過形成が起こったと考えられる。しかし、症例 2 に関しては、局所の微小運動が起こらない状況でも、仮骨過形成が起きたため、局所の微小運動以外にも、仮骨過形成の原因があると考えられた。原因として NTRK1 遺伝子、NGF β 遺伝子等の遺伝子変異の可能性も否定できない。脳性麻痺などの麻痺性疾患罹患児における骨折や骨切り術術後における仮骨の過形成との関連も含めて、無痛症患者の骨

折後の骨癒合機序の解明には、マルチセンタースタディ等による遺伝子解析を含めた大規模調査が望まれる。

結 語

無痛症患者 2 症例を報告し、これら 2 症例の骨折後仮骨過形成に焦点をあて、文献的考察を加えた。

文献

- 1) Asaumi K, Nakanishi T, Asahara H et al: Expression of neurotrophins and their receptors (TRK) during fracture healing. Bone **26** : 625-633, 2000.
- 2) 芳賀信彦, 田中信幸, 田中弘志: 先天性無痛無汗症の治療戦略. 日整会誌 **87** : 57-60, 2013.
- 3) Marion R, Juliane S, Christoph H et al: Severe complications in wound healing and fracture treatment in two brothers with congenital insensitivity to pain with anhidrosis. J Pediatr Orthop **B-22** : 76-80, 2013.
- 4) 三輪 隆, 君塚 葵, 城 良二ほか: 先天性無痛無汗症の検診報告. 日小整会誌 **7** : 71-85, 1988.
- 5) 中谷晃之, 竹内賢治, 大成浩征ほか: 大腿骨顆部骨折後に変形治癒をきたした先天性無痛無汗症

の一例. 骨折 **23** : 595-599, 2001.

6) 築谷康人, 岡野 徹, 山下優嗣ほか : 右尺骨骨折

の治療に工夫を要した先天性無痛無汗症の 1 例.

整形外科と災害外科 **62** : 66-71, 2013.

Abstract

Study of Hypertrophic Callus in 2 Congenital Insensitivity to Pain

Hayato Shimizu, M. D., et al.

Osaka City General Hospital

Hypertrophic callus is characteristic findings on fracture of congenital insensitivity to pain. It is said there is some reason of occurring hypertrophic callus. The reason is that it is occurred by micro motion. During the fracture healing process, NTRAK1 gene or NGF β gene is responsible for adjusting the programmed cell death and differentiation of bone-forming cells involved in bone metabolism. Based on the two cases experienced in our hospital, we subject the relationship of this two genetic abnormalities and hypertrophic callus.

当院の若年性特発性関節炎(JIA)の主訴と特徴

静岡県立こども病院整形外科

矢 吹 さゆみ・滝 川 一 晴・田 中 紗 代・志 賀 美 絃

要 旨 若年性特発性関節炎は、特徴的な所見が乏しいといわれる。そのため、我々は、診断に有用な所見の有無を知るため、若年性特発性関節炎と診断した26名の主訴と特徴を調査した。発症年齢、病型、初発罹患関節、初診時症状(複数回答含む)、血液検査を調査項目とした。さらに症状、血液検査は年齢別に検討した。発症年齢は3歳以下が64%、少関節型が81%、初発罹患関節は膝が54%だった。初診時症状は、朝のこわばり79%、疼痛44%、腫脹73%、拘縮40%、跛行81%だった。跛行が4歳以上で有意に多かった。血液検査は、血沈亢進87%、抗核抗体陽性率80%で、IgG抗体陽性52%、MMP-3 61%と上昇していた。年齢による有意差はなかった。本研究の特徴は、発症年齢、病型、罹患関節、症状において過去の報告と同様であったが、跛行は年齢別で差があった。また、血沈、抗核抗体、IgG抗体、MMP-3は有用な補助診断の可能性がある。

はじめに

若年性特発性関節炎(Juvenile Idiopathic Arthritis: 以下, JIA)は小児人口10万人対10~15人と報告があり⁸⁾、比較的まれな疾患である。1997年に国際リウマチ学会と世界保健機構が全身型、関節型、その他の症候性関節型として分類案を出している。関節型のみの分類を抜粋し一部改変した⁶⁾¹⁰⁾(表1)。16歳未満に発症し、関節型は6週以上持続する症状があり、発症から6か月以内の罹患関節数で病型を診断する。4関節以内が少関節炎で、さらに全経過を通じて4関節以内である持続型と、6か月以降に5関節以上まで進行する進展型に分類する。5関節以上が多関節炎で、リウマトイド因子陽性と陰性に分類する。

関節型JIAは、1~2年で関節破壊が進行するといわれており⁴⁾、早期診断と治療が重要となる。しかし、明確な診断基準がなく除外診断であるため¹⁰⁾、診断に難渋することがある。

表1. 国際リウマチ学会と世界保健機構による分類案(1997年)(関節型のみの分類を抜粋し一部改変)

関節型	少関節炎 (4関節以内)	持続型
		進展型
多関節炎 (5関節以上)		RF因子陽性
		RF因子陰性

- ◆16歳未満に発症
- ◆6週間以上持続する症状
- ◆6か月以内の経過で罹患関節数で病型を診断
- ◆6か月以降に5関節以上進行すると少関節型の進展型

1996年から2012年までの16年間で当科に原因不明の四肢痛、関節拘縮(以下、拘縮)、関節腫脹(以下、腫脹)、跛行のいずれか、または重複した症状として紹介された症例のうちJIAと診断した症例の主訴と特徴を調査した。

当院のJIAの診断は、前医あるいは当科で感染を疑う場合は関節穿刺を行い、感染を否定した上でアレルギー科へ紹介している。当院アレルギー科は、非ステロイド性抗炎症剤を投与し、治療に反応があり、かつ造影MRIで滑膜の増殖があるものをJIAと診断している。なお、当院ア

Key words : juvenile idiopathic arthritis(若年性特発性関節炎), pauciarticular juvenile rheumatoid arthritis(少関節型若年性特発性関節炎), chief complain(主訴), characteristics(特徴)

連絡先 : 〒420-8660 静岡県静岡市葵区漆山860 静岡県立こども病院 矢吹さゆみ 電話(054)247-6251

受付日 : 2014年3月26日

アレルギー科ではJIAの診断、治療効果判断のための造影MRIは、2004年より始めており、18名に実施している。2003年以前の3名は、実施していない。さらに2004年以降で、未検査の症例は5名であった。

対象・方法

対象は、1996年から2012年までの16年間に原因不明の四肢痛、拘縮、腫脹、跛行を主訴に当科を初診した899名中JIAと診断した26名(男:3名, 女:23名)とした。

調査項目は、発症年齢、初発症状から前医初診までの期間、病型、初発罹患関節、初診時罹患関節、初診時症状、採血の項目、X線所見とした。

初診時症状の項目である朝のこわばりは、本研究では持続時間の記載はなく、診療録に「朝のこわばりがあり」「午前中は動かないが午後、夜間は走って遊ぶ」「午前中は機嫌が悪く起きられない」「朝の痛みが強い」など、起床時から午前中と午後の症状に変化があるものを朝のこわばりがあるとした。

採血項目は、白血球、C反応性タンパク(C-Reactive Protein: 以下、CRP)、赤沈(1時間値)、リウマトイド因子(Rheumatoid Factor: 以下、RF)、抗核抗体、IgG抗体、抗シトルリン化ペプチド抗体(以下、抗CCP抗体)、マトリックスメタロプロテアーゼ-3(以下、MMP-3)を調査した。

統計学的には初診時症状、検査項目を発症年齢で最も多かった2歳前後と比較するために、4歳未満と4歳以上でMann-Whitney検定(危険率5%)を用いて検定した。

X線所見は正側2方向撮影での関節裂隙狭小化の有無を調査した。

結 果

発症年齢の平均は、3歳10か月(1歳2か月～11歳10か月)で、3歳以下が14名(64%)と多く、2歳にピークがあった(図1)。前医受診までの期間は発症1日～3年と幅が広く、中央値は70日であった。病型は、すべて関節型で、多関節炎は

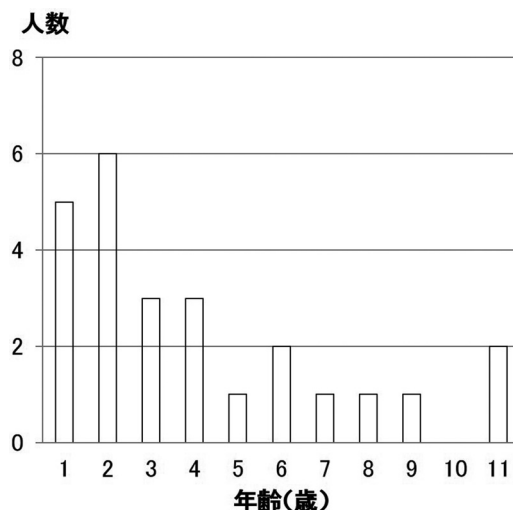


図1. 発症年齢

5名(19%)、少関節炎が21名(81%)、そのうち単関節のみに発症した例は14名で全体の58%であった。

初発罹患関節は、膝関節が14名(54%)、足関節が7名(27%)、手関節が3名(12%)、股関節が2名(7%)であった。両側発症は、足関節の1名で、ほかは片側(右15名、左10名)であった。初診時罹患関節は、初発から時間が経過しているため、複数の関節に及んでいた。少関節炎の膝関節の罹患が最多であった(図2)。

初診時症状は(複数回答あり、未記載例除く)、37.5℃以上の発熱は20名中2名(10%)、朝のこわばりは14名中11名(79%)、疼痛は25名中11名(44%)、そのうち4名(16%)は疼痛単独の発症であった。腫脹は26名中19名(73%)、そのうち4名(15%)が腫脹単独の発症であった。拘縮は25名中10名(40%)、そのうち4名(16%)が拘縮単独の発症であった。跛行は22名中18名(81%)であった。有意差があったのは跛行で(P値=0.03)、4歳以上の症例に多かった。

血液検査では(未記載例除く)、白血球数は全例正常であった。CRPが1.0 mg/dl以上であったのは26名中10名(38%)、血沈は15名中13名(87%)が亢進していた。RFは25名中5名(20%)が陽性、抗核抗体は25名中20名(80%)が陽性、

(関節数)

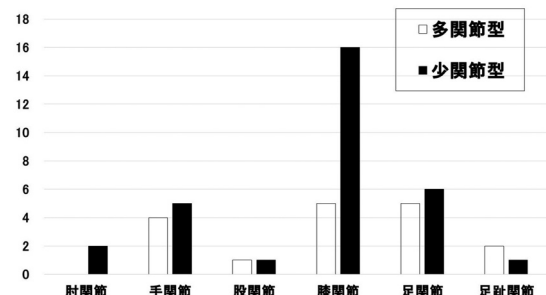


図2. 初診時罹患関節

IgG 抗体は25名中13名(52%)が上昇していた。MMP-3は18名中11名(61%)が上昇していた。抗CCP抗体は9名中1名(10%)が陽性であった。各検査項目の年齢による有意差はなかった。

X線所見で関節裂隙狭窄化が生じたのは26名中4名(15%)で、手1関節、足1関節と股2関節であった。全例症状発症から受診まで、2か月以上経過していた。

考 察

当院のJIAで最多であった少関節炎の文献的特徴^{3,4)}と当院の症例を比較した(表2)。少関節炎は関節型JIAの約60%で最多と報告があり、当院は81%で少関節炎が多かった。男女比は1:3といわれているが、当院は1:8と女兒が有意に多かった。発症年齢のピークは報告と同じであった。罹患関節は膝関節に多いといわれており、当院では初発罹患関節、初診時罹患関節ともに膝関節が最多であった。

症状として、疼痛は軽度といわれている。本研究での疼痛の程度は過去の診療録からは不明であったが、症状発症から受診するまで数か月経過している例が多く、軽度な疼痛であった可能性がある。関節症状では腫脹あるいは拘縮のみが多いとあるが、腫脹単独例は15%、拘縮単独例は16%と比較的少なく、他の症状を合併した腫脹が73%と多い傾向にあった。朝のこわばりは、JIAの診断基準には含まれないが特徴的な所見といわれている⁴⁾。2011年にWallaceらは、臨床的に非活動的なJIAの診断の1つとして、15分以上の

表2. 文献的特徴との比較

文献的特徴	当院の特徴
少関節型は48~60%	81%
男女比 1:3	1:8
2~3歳にピーク	2歳にピーク
膝関節に多い	58%
疼痛は軽度	?
関節拘縮、腫脹のみの主訴が多い	拘縮単独16% 腫脹単独15%
朝のこわばり	79%
発熱では37.5℃以下の微熱が多い	90%
WBC正常が多い	全例正常
CRP陰性が多い	62% (1≧)
血沈正常が多い	13%
免疫グロブリンの上昇が多い	52%
抗核抗体陽性率は75~85%	80%
リウマトイド因子は陰性が多い	80%
XpIは発症後数か月は所見がない	85%

朝のこわばりが有用と報告している⁹⁾。本研究では記載例の14名中11名(79%)と多くに生じていた。朝のこわばりの定義は関節運動時に一部、もしくは全身に動きにくさを訴えること、動きの制限、運動への抵抗性、不動性である¹⁾²⁾⁷⁾。JIAでは発症年齢が2~3歳が多く、上記の症状を自分で訴えることができないため、家族の観察による症状の有無や変化を「朝に不機嫌だったり、泣いて動かないか」「朝はじっとしているが、午後は元気に遊んでいるか」などと詳細な問診で確認することが重要ある。発熱は37.5℃以下の微熱が多いといわれており、本研究も同様であった。跛行は特徴的な所見ではないが、本研究では4歳以上に有意に多かった。これは低年齢では評価が困難だった可能性もあるが、幼児期から思春期までの跛行ではJIAを念頭に置くことが重要である。

検査項目で文献と一致していたのは、白血球、CRPが正常範囲であることが多く、免疫グロブリンが上昇すること、抗核抗体の陽性率が高いこと、RFの陽性率が低いことであった。文献と一致しなかった項目は血沈であり、正常が多いといわれているが、本研究では87%が亢進していた。文献的特徴には含まれないが、抗CCP抗体は2008年の中島らが関節型JIA、中でもRF陽性の多関節炎に特異的なマーカーであると報告してい

る⁵⁾。本研究では初診時検査を2007年までに行った17名は未検査であったが、2008年以降の多関節炎でRF陽性の1名(10%)が陽性で、9名(90%)が陰性であった。感度は低かったが、有用な検査と考える。

本研究では項目が未検査の症例が多く、統計学的には検討できなかったが、炎症反応と組み合わせると陽性が多かったものは、血沈亢進、IgG抗体上昇、抗核抗体、MMP-3上昇の4項目の組み合わせだった。4項目がそろっていたのは9名中5名で、すべての項目が陽性、あるいは上昇していた。血沈亢進、IgG抗体の上昇、抗核抗体の陽性、MMP-3の上昇は、補助診断としては有用な可能性があり、かつ炎症反応が軽度、もしくは正常であるという陰性所見も併せて重要であると考えた。X線所見も多くは発症初期に変化がないといわれており、本研究でも同様であった。

本研究では、過去16年間の診療で原因不明の四肢痛や関節症状があった症例の3%が関節型JIAであった。まれな疾患ではあるが、非特異的な四肢痛、関節症状、跛行はJIAを念頭に置いて診療にあたるのが重要である。

結 語

1)16年間にJIAと診断した26名は、3歳以下が14名(64%)で2歳にピークがあり、少関節型が21名(81%)で、初発罹患関節は膝関節で14名(54%)であった。

2)初診時症状は朝のこわばりが14名中11名(79%)、腫脹は26名中19名(73%)、跛行は22名中18名(81%)であった。年齢で有意差があったのは跛行で(P値=0.03)、4歳以上の症例に多くあった。

3)検査項目では、血沈の亢進は15名中13名(87%)、抗核抗体陽性は25名中20名(80%)、IgG抗体上昇は25名中13名(52%)、MMP-3上

昇は18名中11名(61%)だった。年齢による有意差はなかった。

4)X線は、関節裂隙狭小化が生じたのは26名中4名(15%)であった。

文献

- 1) Helliwell PS, Howe A, Wright V: The measurement of stiffness in the rheumatoid hand. *Eng Med* **16**: 203-207, 1987.
- 2) Helliwell PS: The semiology of arthritis: discriminating between patients on the basis of their symptoms. *Ann Rheum Dis* **54**: 924-926, 1995.
- 3) 川合 博: 若年性特発性関節炎—少関節型の診断と治療. *小児診療* **68**(4): 611-617, 2005.
- 4) 森 雅亮: 若年性特発性関節炎. *小児科臨床* **65**(4): 749-754, 2012.
- 5) 中島章子, 高橋亮岳, 宮前多佳子ほか: 若年性特発性関節炎(JIA)の診断および活動性の評価における血清学的マーカーの検討(IgG-RF, anti-CCP antibody, MMP-3, COMP, HO-1について). *Clin Rheumatol* **20**: 336-341, 2008.
- 6) Petty RE, Southwood TR, Baum J et al: Revision of the proposed classification criteria for juvenile idiopathic arthritis: Durban, 1997. *J Rheumatol* **25**(10): 1991-1994, 1998.
- 7) Rhind VM, Unsworth A, Haslock I: Assessment of stiffness in rheumatology: The use of rating scale. *Br J Rheumatol* **26**: 126-130, 1987.
- 8) 武井修治: 小児慢性特定疾患治療研究事業を活用した若年性特発性関節炎JIAの二次調査. *小児慢性特定疾患治療研究事業. 平成19年度総括・分担報告書*, 102-113, 2008.
- 9) Wallace CA, Giannini EH, Huang B et al: American college of rheumatology provisional criteria for defining clinical inactive disease in select categories of juvenile idiopathic arthritis. *Arthritis Care Res* **63**(7): 929-936, 2011.
- 10) 横田俊平, 森 雅亮, 今川智之ほか: 若年性特発性関節炎 初期診療の手引き. *日児誌* **111**(8): 1103-1112, 2007.

Abstract

Chief Complaints and Characteristics of the First Visit in Juvenile Idiopathic Arthritis in Our Institution

Sayumi Yabuki, M. D., et al.

Department of Pediatric Orthopedics, Shizuoka Children's Hospital

It is reported that JIA lacks in specific characteristics such as examination and symptoms. In order to determine useful clinical findings in observation for JIA, we examined chief complaints and characteristics of 26 JIA patients. We examined the age when the first symptom appeared, classification, the first affected joint, symptom at first visit to our hospital, and blood test result. Furthermore, we statistically examined their symptoms and results of blood test by age. 64% of patients were first diagnosed as JIA under age three. 81% of patients were categorized as oligoarticular JIA. 54% of patients first symptom appeared on their knee joints. 79% of patients had morning stiffness, 44% of patients had pain, 73% of patients had swollen joints, 40% of patients had contracture, and 81% of patients had limp in their first visit. Limp is remarkably seen in patients over 4 years old. Blood test showed results of increasing ESR in 87%, positive ANA in 80%, increasing IgG antibody in 52%, and increasing MMP-3 in 71%. There were no significant difference in any age group of patients. However our study was similar to past reports among age when first symptom appeared, classification, first affected joint, and symptoms, we found a significant difference in limp by age. There are also possibilities in diagnosis which ESR, ANA, IgG antibody, MMP-3 can be useful.

内反凹足変形に対するギプス矯正療法の新たな試み

金城 健¹⁾・粟國 敦男¹⁾・我謝 猛次¹⁾
安里 隆²⁾・上原 敏則¹⁾

1) 沖縄県立南部医療センター・こども医療センター 整形外科

2) 沖縄県立南部医療センター・こども医療センター リハビリテーション科

要 旨 内反凹足変形は前足部が回内し、足底縦アーチが増高し、後足部が内反する複合変形であり、原因の約 80% が症候性で、その中でも神経筋疾患の Charcot-Marie-Tooth 病に合併することが多い。従来は腱移行術、足底筋膜解離術、骨切り術などの外科的治療が一般的に施行され、内反凹足変形に対するギプス矯正法の報告はない。

近年、フランスから内反凹足変形に対してギプス矯正法が効果的であるとの報告があり、施設見学、直接のギプス矯正法指導を受けた後に当科で試みている。当科にて Charcot-Marie-Tooth 病、痙直型片麻痺に伴う内反凹足変形に対して serial cast 矯正を行い、良好な結果を得たので報告する。

内反凹足変形に対するギプス矯正法の意義は、保存治療の選択肢ができ、手術回数を減らすことができる可能性があり、ギプス矯正で柔らかくて痛みのない足に保ち、適切な年齢までタイムセービングできる可能性がある。

はじめに

内反凹足変形は前足部が回内し、中足部の縦

アーチが増高し、後足部が内反する複合変形(図 1)で病因の約 80% が症候性であり、その中でも神経筋疾患の Charcot-Marie-Tooth 病に合併す



図 1. 内反凹足変形

a: 前足部回内

b: 内側縦アーチ増高

c: 後足部内反

a|b|c

Key words : pes cavovarus deformity (内反凹足変形), cast correction (ギプス矯正), Charcot-Marie-Tooth disease (シャルコー・マリー・トゥース病), cerebral palsy (脳性麻痺)

連絡先 : 〒 901-1193 沖縄県島尻郡南風原町字新川 118-1 沖縄県立南部医療センター・こども医療センター整形外科
金城 健 電話 (098) 888-0123

受付日 : 2014 年 2 月 18 日

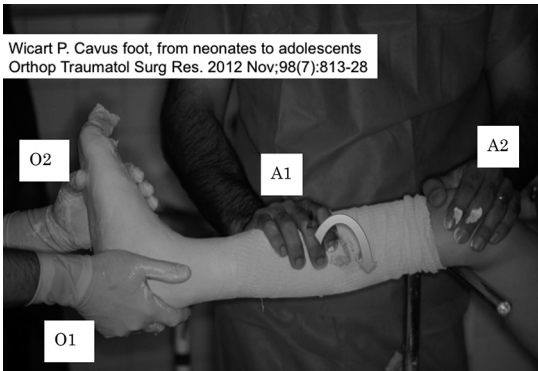


図2. ギプス矯正方法

A1: 助手が膝を軽度屈曲位で固定し、足関節背屈のカウンターとなるように膝から尾側に軸圧をかける。
A2: 反対の手で下腿を内旋
O1: 術者が後足部を外反
O2: 前足部を回外しながら外転して矯正。
最後に膝軽度屈曲位で膝上までギプス固定。
ギプス矯正は疾患や麻痺レベルに応じて1週ごとの合計2~4回の serial cast 矯正を行う

ることが多い。病因は「muscle imbalance」とする報告が多いが、詳細はまだ明らかになっていない⁶⁾。従来の治療は外科的治療が中心で、ギプス矯正や装具療法は効果に乏しいというのが一般的なコンセンサスである。近年、フランスから内反凹足変形に対してギプス矯正法が効果的であるとの報告があり⁸⁾、施設見学、直接のギプス矯正法指導を受けた後に当科で試みている。Charcot-Marie-Tooth 病と痙直型片麻痺に伴う内反凹足変形2例2足に対して serial cast 矯正を行い、良好な結果を得たので報告する。

ギプス矯正法(図2)

助手が膝を軽度屈曲位で固定し、足関節背屈のカウンターとなるように、膝から尾側に軸圧をかけながら下腿を内旋。術者が後足部を外反し、前足部を回外しながら外転し石膏ギプスで矯正する。最後に膝軽度屈曲位で膝上までギプス固定。ギプス矯正後は再発予防目的に夜間装具治療を継続して行う(図3)⁸⁾。ギプス矯正は疾患や麻痺レベルに応じて1週ごとの合計2~4回の serial cast 矯正を行う。



図3. 夜間装具

a: 前足部回外
b:
c:

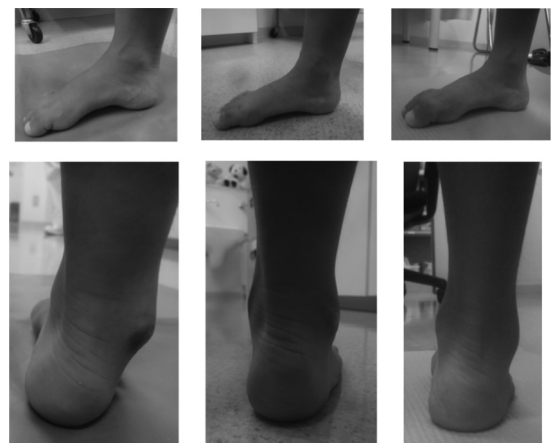


図4. 症例1: 6歳, 男児. Charcot-Marie-Tooth 病 a|b|c

a: 矯正前
b: ギプス矯正直後
c: 矯正後1年

症 例

症例1: 6歳, 男児. Charcot-Marie-Tooth 病に伴う右内反凹足変形. 1週ごとの合計4回の serial cast 矯正を行った. 矯正後は明らかに内側縦アーチが低下し, 後足部内反も中間位まで矯正された(図4). 立位荷重正面 X 線で距踵角が 22° から 28° と改善し立法骨が外転して足根骨アライメントが改善. 矯正後1年経過時点でも矯正位を維持している(図5). 荷重側面 X 線像では, ギプス矯正直後には距骨に対し第一中足骨が背屈し, 前足部の回内が改善していることが確認できる(図5). ギプス矯正後は, 再発予防のための夜間



図5. 症例1：立位荷重 X 線

d：矯正前

e：ギプス矯正直後

f：矯正後1年



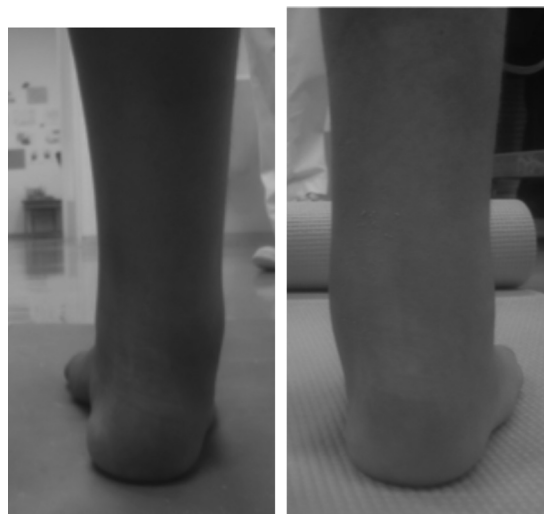
図6. 症例2：9歳，女兒，癱直型片麻痺 a|b

a：矯正前

b：ギプス矯正直後

装具を作成し(図3)外来経過観察中である。

症例2：9歳，女兒．脳性麻痺癱直型片麻痺に伴う右内反凹足変形．1週ごとの合計3回の serial cast 矯正で足部アライメント改善．矯正後は，明らかに内側縦アーチが低下し，後足部内反が中間位まで改善し，前足部回内が矯正され足部外側縁の彎曲が改善している(図6)．



c：矯正前

d：ギプス矯正直後

c|d

考 察

内反凹足変形に対する従来の治療は，腱移行

術、足底腱膜解離術⁵⁾⁶⁾や骨切り術などの外科的治療が中心で¹⁾²⁾³⁾⁴⁾⁷⁾、ギプス矯正や装具療法は効果に乏しいというのが一般的なコンセンサスである。2011年欧州小児整形外科学会(European Pediatric Orthopaedic Society)で、フランスのWicartらが内反凹足変形に対するギプス矯正法が効果的であると報告し、2012年に施設見学、直接のギプス矯正法指導を受ける機会があり、当院でも導入した。Wicartらは内反凹足変形に対するギプス矯正法の効果を成長終了までに約半数の症例で手術を回避することができ、手術を必要とする場合でも適切な年齢までタイムセービングすることができ、三関節固定に至った症例はなかったと報告している⁸⁾。

内反凹足変形に対するギプス矯正法の意義は、手術以外の新たな選択肢ができ、成長終了まで手術を回避することができる可能性があり、再発のため手術を重ね、硬くて痛い足になっていた症例を、ギプス矯正で柔らかくて痛みのない足に保ち、適切な年齢までタイムセービングできる可能性があると考えられる。

文献

- 1) Gould N: Surgery in advanced Charcot-Marie-Tooth disease. *Foot Ankle* 4 : 267-73, 1984.
- 2) Japas LM: Surgical treatment of pes cavus by tarsal v-Osteotomy preliminary report. *J Bone Joint Surg*. 50-A : 927-944, 1968.
- 3) 金城 健, 栗国敦男: 凹足変形に対して中足骨骨切り術を含む併用手術を行った1例. *日足外会誌* 32(2) : 181-184, 2011.
- 4) Mubarak SJ, Van Valin SE: Osteotomies of the foot for cavus deformities in children. *J Pediatr Orthop* 29(3) : 294-299, 2009.
- 5) Samilson RL, Dillin W: Cavus, cavovarus, and calcaneocavus. An update. *Clin Orthop Relat Res* 177 : 125-132, 1983.
- 6) Sherman FC, Westin GW: Plantar release in the correction of deformities of the foot in childhood. *J Bone Joint Surg*. 63-A : 1382-1389, 1981.
- 7) Wicart P, Seringe R. Plantar opening-wedge osteotomy of cuneiform bones combined with selective plantar release and dwyer osteotomy for pes cavovarus in children. *J Pediatr Orthop* 26(1) : 100-108, 2006.
- 8) Wicart P: Cavus foot, from neonates to adolescents. *Orthop Traumatol Surg Res* 98(7) : 813-828, 2012.

Abstract

Corrective Cast Therapy for Pes Cavovarus Deformity

Takeshi Kinjo, M. D., et al.

Department of Orthopedics Surgery,

Okinawa Prefectural Nanbu Medical Center and Children's Medical Center

Pes cavovarus deformity is a rare complex condition morphologically defined as forefoot pronation with elevation in the plantar arch, with hindfoot varus. The cause is usually due to neurological disorder, with the cause being Charcot-Marie-Tooth disease in two-thirds of cases. Conventional orthotic treatment is generally ineffective, and there is no consensus yet on recommended treatment. Here we report two cases successfully treated conservatively using a new corrective cast. One case involved Charcot-Marie-Tooth disease, and the other case involved cerebral palsy(spastic hemiplegia). The cast could maintain the foot without pain and without further contracture. Depending on the patient's age, these findings suggest that our corrective cast may help to avoid or delay an operation.

大腿骨に発生した単骨性線維性骨異形成に対する手術治療の成績

神奈川県立こども医療センター 整形外科

大庭真俊・町田治郎・中村直行・森川耀源
阿多由梨加・奥住成晴

要 旨 当施設で手術治療を行った大腿骨の単骨性線維性骨異形成 10 例(男性 5 例, 女性 5 例)の術後成績を後ろ向きに検討した. 対象症例の基礎データ, 術前後の画像データ, 最終観察時の身体活動レベルと再手術の有無等につき調査した. 大腿骨遠位に病変が限局した 1 例を除き, 全例で内固定材が使用されており, Compression Hip Screw が最も多く, 7 例で使用されていた. 掻爬後の骨移植には, 主に β -Tricalcium phosphate 製人工骨が使用されていた. 経過中抜釘を行った 2 例, および内固定の範囲が不足していた 2 例の計 4 例で変形が進行し, 再手術となっていた. 大腿骨近位の線維性骨異形成症の手術治療においては, 十分な機械的強度を保持するための内固定が重要であり, 病変が残存している可能性があれば, 抜釘は避けるべきであると考えられた. また, 病変部を超える範囲に内固定材を設置することが, 術後の変形予防のために重要であることが確認された.

背 景

活動性の高い若年者の大腿骨に発生した線維性骨異形成は, 経過中に病的骨折や内反変形を引き起こす可能性がある. 特に, 頸部や転子間部など近位部に病変が存在する場合はリスクが高い¹⁰⁾. そのため, すでに病的骨折や内反変形を来しているものだけでなく, 大腿骨近位部の線維性骨異形成を発見した時点で予防的内固定を行うという報告もある⁷⁾. しかし, 内固定を行わず, 病変の掻爬および骨移植のみでこのような病変を治癒し得た症例も報告されており⁶⁾, 本疾患の治療法についてはいまだ議論がある. そこで, 大腿骨に発生した線維性骨異形成に対し当院で手術を行った例を後ろ向きに調査し, 諸家の報告と併せ検討した.

対象と方法

当院の診療記録より, 2002 年 5 月～2012 年 9 月に当院で大腿骨の線維性骨異形成に対して手術を行った 11 例が抽出された. すべての症例について, 手術時に採取された組織の病理診断が線維性骨異形成であることを確認した. McCune-Albright 症候群に伴う多骨性病変を呈していた 1 例を除外し, 全 10 例(男性 5 例, 女性 5 例)を対象とした.

対象症例の基礎データ, 診察記録, 手術記録, 画像データについて後ろ向きに調査を行った. 診察記録については当院初診および病変発見の契機となった症状の有無, 経過中の転位を伴う病的骨折の有無および最終診察時の身体活動レベルについて調査した. 手術記録については, 抜釘時を除いた手術回数および内固定材の種類, 骨移植に用

Key words : monostotic(単骨性), fibrous dysplasia(線維性骨異形成), pathologic fracture(病的骨折), femur(大腿骨), internal fixation(内固定)

連絡先 : 〒 232-8555 神奈川県横浜市南区六ッ川 2-138-4 神奈川県立こども医療センター 整形外科 大庭真俊
電話 (045) 711-2351

受付日 : 2014 年 3 月 28 日

表 1. 対象症例基礎データ

初診時年齢(歳) [†]	9.5(7-14)
性別(男:女)	5:05
手術側(右:左)	5:05
フォローアップ期間(月) [†] (初診~最終診察)	53(16-113)

[†]: 中央値(最少—最大)を示す。

いた移植骨の種類について調査した。

術前に施行された MRI や CT の画像データを用いて病変の存在部位とその範囲を症例ごとに調査した。また、CHS が使用された症例のうち経過中に抜釘を行わなかった 5 例について、両股関節単純 X 線画像における患側の頸体角を術前および術後 24 か月まで計測し、その経時的変化について検討した。

結 果

対象症例の基礎データを表 1 に示す。対象症例は男性 5 人、女性 5 人の計 10 人で初診時年齢の中央値は 9.5(7~14) 歳であった。患側の大腿骨は右側 5 例、左側 5 例で、すべて片側例であった。初診から最終診察までの経過観察期間の中央値は 53 か月(16~113)であった。

線維性骨異形成病変の存在範囲別の症例数を図 1 に示す。頸部から転子間に至るもの 3 例、頸部から転子下に至るもの 4 例と、計 7 例(70%)が大腿骨近位部に病変を有した。2 例で頸部から骨幹部にかけての広い範囲の病変を呈していたが、この 2 例はいずれも皮膚のカフェオレ斑や内分泌学的な異常等、McCune-Albright 症候群の診断に至る所見を認めなかった。そのほか、病変が大腿骨遠位骨幹部に局限するものが 1 例あった。

当院初診の契機となったのは、全例で跛行あるいは患側の荷重時痛であった。前医および当院初診時の単純 X 線像で発見された大腿骨の異常陰影に対して全例当院で MRI が撮像されており、うち 4 例(25%)において造影 MRI が施行されていた。術前に得られた画像所見から線維性骨異形成と診断されていたものは 9 例で、残り 1 例の術前診断は単純性骨嚢腫であった。この 1 例につい

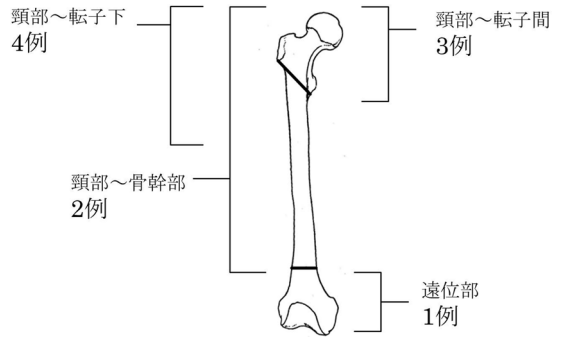


図 1. 線維性骨異形成 病変の存在範囲と症例数(N = 10)

ては、初回手術でハイドロキシアパタイト製中空ピン挿入による減圧術が行われたが、術中に得られた検体から嚢胞性変化を来した線維性骨異形成と診断された。そのため、後に Compression Hip Screw(以下、CHS)による内固定が追加されている。術前の試験的生検術は全例で行われていなかった。

本症例の対象は 1 例を除き大腿骨近位部に病変があり、かつ受診時に跛行や疼痛など不顕性骨折の可能性が高いため、画像診断後早期に、手術による内固定を行うことを患者および家族に提案していた。当初より手術治療の方針に同意した 7 例は、初診後中央値 18(15~95) 日で手術が行われていた。それに対し、患者や家族の希望により経過観察の方針となった 3 例はそれぞれ初診後約 6 年 2 か月、6 か月、5 か月後に手術となっており、うち 2 例は経過観察中(初診後約 6 年 2 か月、および 5 か月)に病的骨折を来したために手術となっていた。対象全体では初回手術は初診後、中央値 51(15~2253) 日で行われていた。

初回手術時の術式別の症例数を表 2 に示す。病変の搔爬および自家骨あるいは人工骨移植を行ったうえで CHS の設置が行われたものが 6 例と最も多かった。搔爬後に腸骨より採取した自家海綿骨移植が行われたものが 1 例、 β -Tricalcium phosphate(β -TCP)顆粒(オスフェリオン®: オリンパス(株))補填されたものが 5 例であった。病的骨折に対して CHS を用いた 1 例では、骨移植が行われていなかった。Ender 釘およびシリ

表 2. 初回手術 術式別症例数

術式	症例数	再手術例
搔爬 + CHS + 骨移植	6	2
搔破 + CHS	1(1)	1
髄内釘 (Ender 釘)	1(1)	1
髄内釘	1(1)	0
搔爬 + 人工骨移植	1	0

括弧内の数字は、初回手術時に骨折を来していた症例数を示す。

CHS : Compression Hip Screw

ダー型髄内釘による内固定が行われたものがそれぞれ 1 例ずつあった。病変が大腿骨遠位部に限局した 1 例では、病変の搔爬と β -TCP の補填のみ行われ、内固定材は用いられなかった。

再手術を要したものは 10 例中 4 例で、いずれも内反変形の進行が再手術の理由となっていた。

4 例中 2 例は、初回手術で設置した内固定材を抜

釘した後に内反変形が進行し再手術が行われた (症例 1 : 図 2)。他 2 例は、内固定材の転位や大腿骨の成長により、固定範囲が病変に対して不十分な状態となっていた (症例 2 : 図 3)。

内固定材として CHS が使用されたもののうち、経過中に抜釘されたものを除く 5 例の術後股関節正面単純 X 線像における患側大腿骨の頸体角の継時的推移を図 4 に示す。前述の症例 2 は、グラフの太線で示すように内反変形が進行しているのに対し、その他の症例では術後頸体角の変化は術後 2 年で 1~2 度であった。

最終観察時の身体活動レベルについては、10 人中 6 人で体育などの軽い運動が許可され、4 人は補助具なしでの歩行までとなっていた。術後に再骨折を来した症例はなかった。

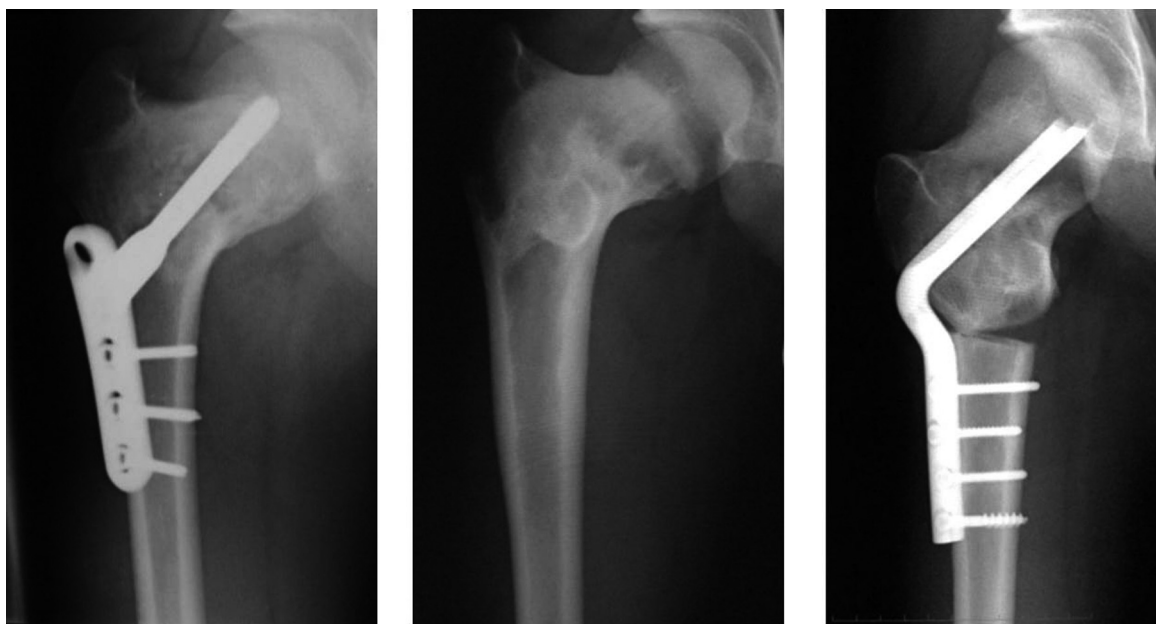


図 2.

症例 1 : 初診時 14 歳, 男性

初診時主訴 : 右股関節痛

初回手術で搔爬, 人工骨移植, CHS 設置を行った。

初回手術 15 か月後抜釘したところ内反変形が進行し, 抜釘後 22 か月で再手術 (外反骨切りおよびアングルブレードプレート固定)

a : 初診時

b : 抜釘 20 か月後

c : 再手術後

a|b|c

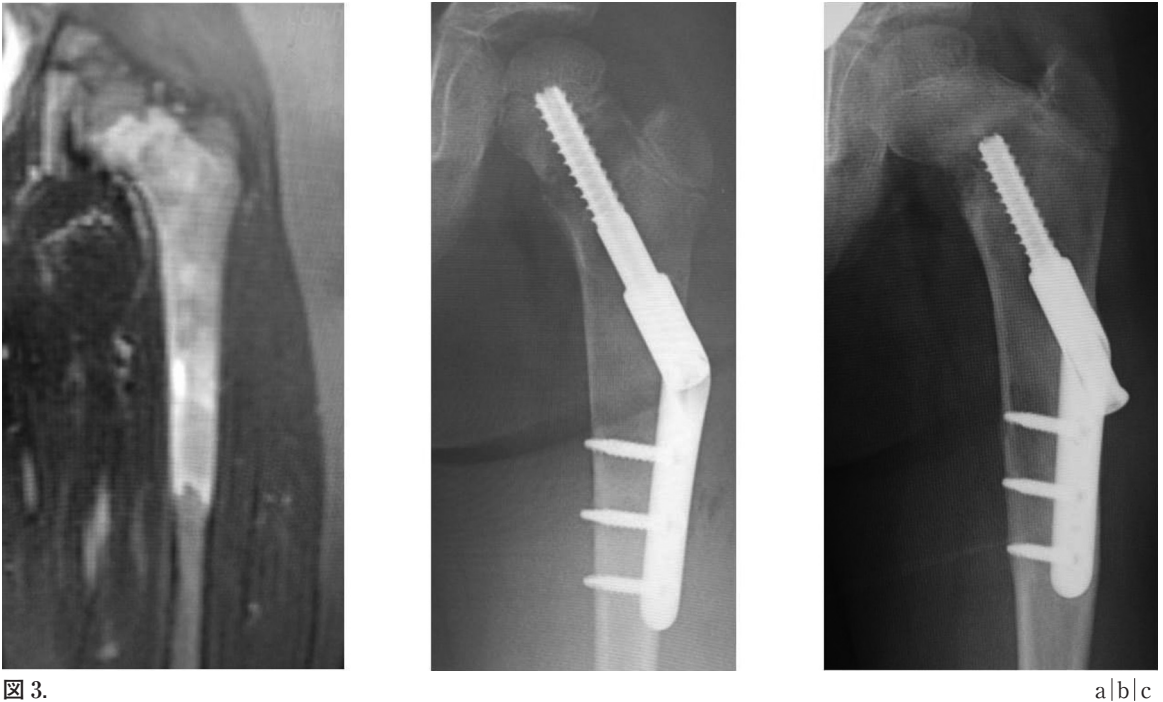


図 3.

症例 2：初診時 6 歳，女性

初診時主訴：左大腿部痛

初回手術で CHS 設置を行った。

初回手術後 34 か月で内反変形し，CHS 再設置。

その後も 2 年ほど内反変形の進行を見たが，さらなる悪化はなく経過している。

a：初回手術後

b：CHS 再設置前

c：再手術後

a|b|c

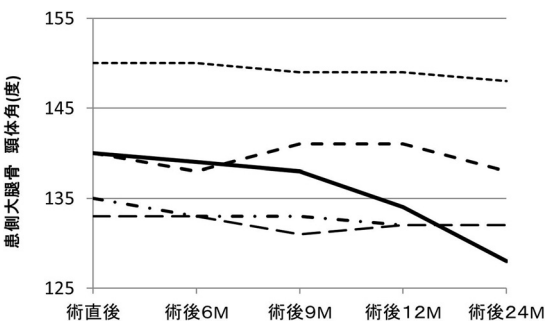


図 4. CHS 挿入後抜釘なし例 (N = 5) における，術後頸体角の変化

図の黒い直線で示される系列が，再手術例(症例 2)を示す。

考 察

線維性骨異形成症の原因となる Gs 蛋白 α サブユニットの変異は，受精後の発生段階で起こる¹⁾。

変異体細胞に起源をもつ骨は正常な成熟骨になることができないため，その部位の骨強度は低下し，骨折や変形の原因となる。

単骨性の線維性骨異形成は，病変の拡大がなく骨折リスクの低い場合は経過観察されることが多い⁵⁾⁸⁾。しかし，大腿骨近位部に病変が存在する場合は骨折や変形を起こすリスクが高く，治療の対象とされる。

多骨性病変の場合は，非手術治療としてビスフォスフォネートによる治療が試みられており，症状の緩和や骨折頻度の減少などの効果がみられている²⁾。しかし，一般的には，単骨性ですでに病的骨折や変形を来している症例やそのリスクが高いとされる症例では，手術治療が行われる。

若年患者の下肢に発生した病変に対しては，掻爬および骨移植に加え内固定を行うことが必要であるとされる⁹⁾。Nakashima ら⁶⁾や萩原ら⁴⁾は，単

骨性の線維性骨異形成に対し骨搔爬と骨移植で良好な成績が得られたと報告している。しかし、線維性骨異形成の病変は、広範囲に存在し完全に搔爬することが不可能なため、自家海綿骨などの移植骨は吸収され、徐々に再発病変に置換されることが多い¹⁾。構造骨として血管柄付腓骨などの皮質骨移植が行われることもあるが、内固定を行わない場合、やはり術後に吸収されてしまうことが多く成績は不良である³⁾。本研究の対象症例では1例を除き β -TCP 顆粒を搔爬後の補填材として用いている。人工材料は他家骨や自家骨よりも吸収が遅いため、線維性骨異形成の治療においてはそれらの材料よりも適しているとされる¹⁾。

内固定材の種類は、強固な固定が可能でかつ病変部を超える範囲に設置することができる髄内釘が用いられることが多い¹⁾⁵⁾。しかし髄腔径の小さい例には使用できないことや、順行性髄内釘の挿入に伴う大転子部骨端線の破壊などのデメリットが存在する。

本研究対象に最も多く用いられた内固定材はCHSであった。本症例の術後経過から、病変の存在範囲が頸部や転子間部に限られる症例については、CHSによる固定も有効であると推測される。しかし、症例3(図5)のように、CHSの固定範囲よりも病変の存在範囲が広い場合には、術後に変形が進行すると考えられる。

本研究対象症例で内固定材を抜去した例は、いずれも変形が進行し再手術となった。おそらく、病変が残存している状態で内固定材を抜去したため術前と同様の状態となり、力学的に弱くなった部分に負荷がかかることで変形が進行したと考えられる。そのため、基本的には線維性骨異形成に対して設置した内固定材は抜去しないほうがよいと思われる。

結 論

大腿骨に発生した線維性骨異形成に対する当院の手術治療の成績から、搔爬、 β -TCP 移植および病変を超える範囲で内固定を行うことで術後再骨折や変形の進行を予防しうることがわかった。

また、術後も病変が残存することが多く再変形や病的骨折を来す可能性があるため、内固定材の抜去は極力避けたほうが望ましいと考えられた。

文献

- 1) DiCaprio MR, Enneking WF: Fibrous dysplasia. Pathophysiology, evaluation, and treatment. J Bone Joint Surg 87-A : 1848-64, 2005.
- 2) Gibbons CLMH, Petra M, Smith R et al: Bisphosphonate treatment of benign multifocal and unifocal osteolytic tumours of bone. Sarcoma 7 : 35-41, 2003.
- 3) Guille JT, Kumar SJ, MacEwen GD: Fibrous dysplasia of the proximal part of the femur. Long-term results of curettage and bone-grafting and mechanical realignment. J Bone Joint Surg 80-A : 648-658, 1998.
- 4) 萩原茂生, 西須 孝, 柿崎 潤ほか: 線維性骨異形成症の大腿骨病変に対する治療成績. 日小整会誌 21(2) : 306-310, 2012.
- 5) Ippolito E, Bray EW, Corsi A et al: Natural history and treatment of fibrous dysplasia of bone : a multicenter clinicopathologic study promoted by the European Pediatric Orthopaedic Society. J Pediatr Orthop B 12 : 155-177, 2003.
- 6) Nakashima Y, Kotoura Y, Nagashima T et al: Monostotic fibrous dysplasia in the femoral neck. A clinicopathologic study. Clin Orthop Relat Res 191 : 242-248, 1984.
- 7) Shih HN, Chen YJ, Huang TJ et al: Treatment of fibrous dysplasia involving the proximal femur. Orthopedics 21 : 1263-1266, 1998.
- 8) Shin SH, Yeo I, Seo SW: Can certain benign lesions of the proximal femur be treated without surgery? Clin Orthop Relat Res 471 : 3319-3325, 2013.
- 9) Stephenson RB, London MD, Hankin FM et al: Fibrous dysplasia. An analysis of options for treatment : J Bone Joint Surg 69-A : 400-409, 1987.
- 10) Van der Linden YM, Dijkstra PDS et al: Comparative analysis of risk factors for pathological fracture with femoral metastases: Results based on a randomised trial of radiotherapy. J Bone Joint Surg 86-B : 566-573, 2004.

Abstract

Monostotic Fibrous Dysplasia in the Femur Treated Surgically

Masatoshi Oba, M. D., et al.

Kanagawa Children's Medical Center

We report the clinical course and results after surgery for monostotic fibrous dysplasia in the femur, in 10 cases involving 5 males and 5 females. We retrospectively reviewed the demographic data, the pre- and post-operative radiographic findings, the physical activity level at most recent follow-up, and any need for re-operation. An implant was used in all cases, except one where the dysplastic lesion was limited to the distal femur. We used compression hip screws in 7 cases. After curettage, we used artificial beta-tricalcium phosphate bone grafts. Re-operation was needed in 4 cases due either to local recurrence or to continuing deformation in the femur. Findings suggest that for best results the implant should traverse the whole affected lesion. Achieving sufficient mechanical stability is key for long-term results, and removal of the implant is not recommended.

重度脳性麻痺児の股関節亜脱臼，脱臼に対する軟部組織解離術と大腿骨減捻内反骨切り術の併用手術の中期成績

愛知県立心身障害児療育センター 第二青い鳥学園 整形外科

則 竹 耕 治・吉 橋 裕 治・萩 野 精 太

要 旨 重度の脳性麻痺児の股関節亜脱臼，脱臼に対する軟部組織解離術と大腿骨減捻内反骨切り術の併用手術の5年以上経過例24例46股の手術成績を明らかにした。Millerらの方法を用いて術前の亜脱臼の分類，調査時のX線学的評価を行った。術前，軽度亜脱臼10股，中等度亜脱臼19股，高度亜脱臼16股，脱臼1股であった。手術時年齢は，5歳2か月から12歳4か月(平均7歳5か月)であった。調査時，good[Migration Percentage：以下，MP]<25%)27股，fair(25%≤MP<40%)18股，poor(MP≥40%)1股であった。全体での成績不良例は，2.2%(1/46)であり，高度亜脱臼，脱臼を対象とした場合，5.9%(1/17)と過去の報告と比べて良好な結果であった。また，術後感染，偽関節，他家輸血例は1例もなかった。成績に影響する因子として，術前の亜脱臼の程度，術後1年の股関節外転角度，調査時の臼蓋形成不全が統計学的に確認された。完全脱臼に至る前なら，併用手術は股関節求心位の確実な再獲得に有効である。

はじめに

重度の脳性麻痺(Cerebral Palsy：以下，CP)児の股関節亜脱臼，脱臼の治療の必要性については，股関節痛，座位姿勢保持能力，陰部の衛生的管理，皮膚の褥瘡などの観点から議論されてきた。重度CP児の股関節亜脱臼，脱臼の治療が，これらの発生率やQuality of Lifeに及ぼす影響については未だ詳細は不明であるが，これらが高率に生じることが予想されることから，股関節求心性異常の治療の必要性は，多くの整形外科医により認められている。

整形外科的手術として，股関節周囲の軟部組織解離術(軟部手術)，大腿骨減捻内反骨切り術(Femoral Varus Derotational Osteotomy：以下，VDO)，臼蓋形成術などがあり，股関節亜脱臼，脱臼の程度，臼蓋形成不全の程度などから，これ

らの手技が単独または組み合わせて選択されてきた。当科では，重度CP児に対しては，初回手術として軟部手術とVDOの併用手術を一期的にこなってきた。その目的は，股関節求心位を確実に獲得し，長期にわたりその求心位を維持することである。さらに，歩行器移動が実用的でないレベルの児において，立位や歩行の際に見られる股関節内旋肢位や，これによる腸腰筋の過緊張の改善という目的もある。

本研究の目的は，重度CP児の股関節亜脱臼，脱臼に対する軟部手術とVDOの併用手術の5年以上の中期成績を明らかにすることである。

対象および方法

1998年から2005年3月までに，股関節亜脱臼，脱臼に対して，初回手術として軟部手術とVDOを施行した重度CP児28例52股中，追跡調査し

Key words : cerebral palsy(脳性麻痺)，hip subluxation(股関節亜脱臼)，hip dislocation(股関節脱臼)，femoral varus derotational osteotomy(大腿骨減捻内反骨切り術)，soft tissue release(軟部組織解離術)

連絡先 : 〒444-3505 愛知県岡崎市本宿町柳沢5-1

愛知県立心身障害児療育センター 第二青い鳥学園 整形

外科 則竹耕治 電話(0564)48-2831

受付日 : 2014年4月12日

表 1. 初回手術

(24 例 46 肢に対して)
軟部手術
・大腰筋腱切離術(26)または、腸腰筋腱切離術(20)
・長内転筋延長術(21)または、長内転筋切離術(25)
・薄筋近位部切離術(15)
・内側ハムストリング遠位部手術(46)
(半腱様筋延長術、半膜様筋延長術、薄筋切離術)
・大腿二頭筋延長術(46)
・Strayer 法(44)、ヒラメ筋延長術(14)、アキレス腱延長術(8)
骨手術
・両大腿骨減捻内反骨切り術(46)
・脛骨外旋骨切り術(19)、腓骨骨切り術(19)
・踵骨延長術(6)

※股関節の軟部手術では、腸腰筋(または大腰筋)、長内転筋は全例手術を行っているが、短内転筋、大内転筋の手術は行っていない。

えた 24 例 46 股(追跡率 85.7%)を対象とした。本研究では、重度 CP 児は、粗大運動能力分類システム(Gross Motor Function Classification System:以下,GMFCS)レベル IV と V とした。また、Migration Percentage(以下,MP)に基づいた Miller ら⁴⁾の基準に従い、亜脱臼は MP \geq 25% とした。なお、脱臼は MP \geq 100% と定義した。24 例の内訳は、片側例 2 例、両側例 22 例であり、MP < 24% の正常股は、2 股であった。男児 13 例、女児 11 例で、麻痺のタイプは、痙直型 22 例、混合型 2 例であった。術前の GMFCS レベル IV 18 例、レベル V 6 例であった。手術時年齢は、5 歳 2 か月から 12 歳 4 か月(平均 7 歳 5 か月)、調査時年齢は、10 歳 6 か月から 21 歳 5 か月(平均 15 歳)、経過観察期間は、5 年から 11 年 1 か月(平均 7 年 6 か月)であった。

股関節周囲の軟部手術は、大腰筋腱切離術または腸腰筋腱切離術、長内転筋延長または切離術、薄筋近位部切離術、内側、外側ハムストリングの遠位部延長術であった(表 1)。GMFCS レベル IV では、立位姿勢や歩行器での歩容改善のため、尖足に対する軟部手術や下腿内捻変形に対する脛骨外旋骨切り術も一期的に行っている。なお、観血

的整復術、白蓋形成術は 1 例も行っていない。VDO は術後頸体角が 105~120°に、前捻角が 5~20°になるようにした。転子間で open wedge osteotomy または semi-closed osteotomy を行った。術中、内反矯正が確実に得られたことを透視で確認し、マチス社製ヒッププレートにて固定した(図 1)。24 例中、術前亜脱臼の見られなかった 2 股に対しても VDO と軟部手術を行った。初回手術から、調査時までに行われた手術を表 2 に示す。長内転筋、薄筋近位部手術は、股関節内転拘縮に対して行った。大腿直筋遠位部移行術は、GMFCS レベル IV の症例の stiff knee gait に対して行った。いずれの手術も股関節亜脱臼の遺残や再発に対して行ったものではなかった。術前の股関節内転拘縮を改善し、股関節内転筋群の延長効果を確実にする目的で、術後は股関節最大外転位にて約 3 週間ギプス固定(A キャスト)を行った。A キャストは、1 週ごとに巻き直し、可及的に股関節外転角度を獲得した後、その維持のため夜間の股関節外転装具を 1 年以上使用した。術後 1 日目から、ギャッジアップを開始し、術後 5 日目には板付きの車いすで長座位とした。3 週間のギプス固定後、下肢の可動域訓練を開始した。



a: 両側の麻痺性股関節亜脱臼と外反股がみられる。(術前)



b: 大腿骨減捻内反骨切り術後

図 1. 6 歳, 男児, 痙性四肢麻痺

表 2. 初回手術以後に行われた手術

(24 例 46 肢に対して)
再手術
・長内転筋延長術(1)
・内側ハムストリング遠位部手術(1)
・大腿二頭筋延長術(1)
追加手術
・薄筋近位部切離術(1)
・大腿直筋遠位部移行術(18)
・踵骨延長術(2)
・脛骨外旋骨切り術(4), 腓骨骨切り術(4)
(抜釘術は除く)

※これらは、いずれも股関節亜脱臼の遺残や再発に対する手術ではない。

手術成績の評価として、1) X線写真にて、術前、調査時の MP, CE 角, Sharp 角を計測し、それらの変化を調べた。また、調査時の股関節内側関節裂隙を計測した。2) 股関節亜脱臼の治療評価は、Miller ら⁴⁾の方法を採用した。まず、術前のレントゲン写真から亜脱臼を、軽度($25 \leq \text{MP} < 40\%$)、中等度($40\% \leq \text{MP} < 60\%$)、高度($\text{MP} \geq 60\%$)に分類した。なお、 $\text{MP} \geq 100\%$ は脱臼とした。次に、調査時のレントゲン写真から、good($\text{MP} < 25\%$)、fair($25\% \leq \text{MP} < 40\%$)、poor($\text{MP} \geq 40\%$)の評価を行った。3) 成績に影響を及ぼす可能性のある因子の検討を行った。それらの因子を、①対象の背景(年齢、調査時年齢、経過観察期間、GMFCS レベル)、②レントゲン計測値

(MP, CE 角, Sharp 角, 大腿骨前捻角, 頸体角), ③その他(術前、術後 1 年、調査時の股関節外転角度、術後の夜間股関節外転装具の装着期間、入院期間)に分類し検討した。なお、術前的大腿骨前捻角、頸体角はレントゲン写真から甲斐氏法を用いて計測した。集中理学療法(週に 4 回程度)の期間は入院期間で代用した。また、手術の合併症(感染、偽関節、大腿骨頭壊死)を調査した。

統計学的検討は、術前後の比較には paired t-test を用い、その他の 2 群間の比較には、Mann-Whitney test を用いた。GMFCS レベルの比較には、Fisher の直接確率法を用いた。P < 0.05 を統計学的に有意差ありとした。

結 果

46 股の術前的大腿骨前捻角、頸体角の平均値 ± 標準偏差は、それぞれ、 $58.4 \pm 7.4^\circ$, $144.0 \pm 5.2^\circ$ であった。術中、矯正角度の平均値 ± 標準偏差は、減捻 $46.2 \pm 8.8^\circ$ 、内反 $31.4 \pm 8.0^\circ$ であった。

術前と調査時のレントゲン計測値に関して、MP, CE 角, Sharp 角の平均値は、それぞれ 55.9% から 24.1%, -4.8° から 20.8° , 53.3° から 45.3° へといずれも有意に改善した。調査時の内側関節裂隙は、7.3 mm だった(表 3)。

術前の亜脱臼は、軽度 10 股、中等度 19 股、高度 16 股であり、脱臼は 1 股であった(表 4)。調査時、good, fair の成績良好例は、46 股中、45

表 3. X 線学的変化

	術前(平均 7.4 歳)	調査時(平均 15 歳)
MP (%)	55.9 ± 18.7	24.1 ± 7.6*
CE 角 (°)	-4.8 ± 11.9	20.8 ± 7.3*
Sharp 角 (°)	53.3 ± 3.3	45.3 ± 3.7*
内側関節裂隙(mm)	-	7.3 ± 1.2
	n = 46	* : P < 0.0001
Paired t-test, MP : Migration Percentage		

表 4. X 線学的成績

Miller の評価(調査時) 亜脱臼(術前)	Good (MP < 25%) n = 27	Fair (25% ≤ MP < 40%) n = 18	Poor (MP ≥ 40%) n = 1
軽度亜脱臼 (25% ≤ MP < 40%) n = 10	8 股	2 股	0 股
中等度亜脱臼 (40% ≤ MP < 60%) n = 19	12 股	7 股	0 股
高度亜脱臼 (60% ≤ MP < 100%) n = 16 脱臼(MP ≥ 100%) n = 1	7 股	9 股	1 股

MP : Migration Percentage

股で、成績不良の poor 例は、1 股のみであった。Poor 例は、術前高度亜脱臼(左股関節 MP70%)で、調査時、wind swept posture で、軽度の亜脱臼が見られた(図 2)。成績不良例は、全対象 46 股中、1 股(2.2%)であり、また高度亜脱臼・脱臼のみを対象とすると、17 股中 1 股(5.9%)であった。

成績影響因子の検討は、poor 例が 1 股のみであったため、good 群と fair 群の 2 群間で比較した。①対象の背景(手術時年齢、調査時年齢、経過観察期間、GMFCS レベル)は、good 群と fair 群の間でいずれも有意差を認めなかった。②レントゲン計測値では、術前の MP、CE 角、調査時の MP、CE 角、Sharp 角に 2 群間で有意差を認めた。③その他の各因子では、術後 1 年の股関節外転角度が、good 群で有意に良好であった。

手術の合併症は、感染例、偽関節例は 1 例もなかった。また、全例自己血のみで対応でき、他家輸血例は 1 例もなかった。術後大腿骨頭壊死が



図 2. 調査時(16 歳)、poor 例(左 MP 45.5%)
Wind-swept posture と左股関節内転拘縮があり、レントゲン写真では左股関節に軽度亜脱臼がみられた。

46 股中 3 股(6.5%)に発生した。いずれも、外側の部分壊死であり、調査時には骨頭変形を残すことなく修復していた。また、術後リハビリ期間にも影響しなかった。

考 察

重度のCP児の股関節亜脱臼、脱臼に対して、軽度から中等度の股関節亜脱臼に対し、初回手術では軟部手術を行い、その後、股関節亜脱臼、脱臼の遺残または再発例に対して二期的にVDOなどを行う段階的手術が一般的である。

しかし、この段階的手術には問題がある。最初に行われる軟部手術について、短期、中期成績が比較的良好とする報告もあるが、長期成績(骨成熟期)の報告が非常に少ない。さらにTurker(2000)ら¹⁰⁾は、軟部手術後の長期成績について、半数以上が再手術を要したと不良な結果を報告している。また、初回の軟部手術後の遺残または再亜脱臼に対する二期的VDOに関しても長期成績はいまだ明らかにされていない。

著者らは、この段階的手術の長期成績が明らかになっていないことや再手術が児や家族に及ぼす精神的、肉体的、経済的負担を考慮し、初回手術で軟部手術とVDOの併用手術を一期的に行ってきた。

主に重度CP児を対象とした股関節亜脱臼、脱臼に対するVDO後のX線学的中期成績(平均経過観察5年以上)の報告は、散見される。Hofferら³⁾は、20例25股に対するVDO後、亜脱臼、脱臼は、それぞれ4股(16%)、1股(4%)と報告した。Settecerriら⁸⁾は、89例130股で、調査時MP30%未満は43.1%で、MP50%未満は84%と報告した。Noonanら⁷⁾は、65例79股で、調査時、亜脱臼19股(24%)、脱臼3股(4%)と報告した。Canaveseら¹⁾は、VDO後、骨成熟期まで達した27例27股で、12股(44%)が再手術を要したと報告した。本邦では、野村ら⁶⁾は、主に軟部手術後に残った亜脱臼33例37股を対象としたDVO(一部は軟部手術併用)の成績について、調査時MP50%未満は約85%、MP33%以下は、59.5%と報告した。三輪ら⁵⁾は、軟部手術で整復困難ないし安定しない36例38股に対する手術成績で、調査時MPの平均値は54.1%に改善し、MPが50%以下の症例は44.7%と報告した。鳥越ら⁹⁾は、

21例30股において、調査時MP40%未満は70%と報告した。以上よりVDO後の成績に関して、調査時、亜脱臼、脱臼、または成績不良とされるMP40%以上の症例の割合は、10%から50%程度と推定される。一方、著者らの成績は、術後平均7.5年の調査時MP40%以上は1股であり、術前高度亜脱臼例のみを対象としても成績不良は17股中1股(5.9%)であり、最も良好な結果と言える。しかし、手術時年齢、麻痺の重症度、麻痺のタイプ、術前の亜脱臼、臼蓋形成不全の程度、併用する軟部手術など手術成績に影響する多くの因子が報告者により異なるため、これらの手術成績を単純に比較することはできない。

これまでVDOの成績不良の原因として、大腿骨の内反矯正不足、股関節内転拘縮の再発、臼蓋形成不全の残存などがあげられてきた。歩行不能児のVDO後の頸体角について、Millerら⁴⁾は、90°~100°、Eilertら²⁾は、110°未満、(8歳未満90~100°)、Noonanら⁷⁾は、110°未満を薦めている。当科では、8歳未満のGMFCSレベルVでは、105°にしている。それ以外の児は、年齢に応じて110°から120°程度にしている。股関節求心性異常を有する重度CP児では、術前から股関節臼蓋形成不全や股関節外転筋力低下がみられるため、股関節整復位の長期の維持には、十分な内反矯正が必要と考える。今回の対象では、内反矯正不足の症例が1例もなかったことが、成績良好の要因の一つと考えている。

股関節内転拘縮の再発を防ぐには、手術による可及的な外転角度の獲得とその外転角度の維持が重要と考え、著者らは、術後3週間のAキャストを行い、その後は夜間の股関節の外転装具を1年以上使用してきた。その結果、術前の股関節外転角度が平均11°が1年後30°、調査時16°になった。過去の文献でVDO後の装具や股関節外転角度について言及しているものは非常に少ない。今回の成績影響因子の検討から、術後1年の股関節外転角度はgood群で有意に大きかった。これらの結果は、股関節の外転角度の維持が手術成績に好影響を与える可能性を示していると思われる。

表 5. 成績不良因子の検討

	Good 群 (27)	Fair 群 (18)	P
①対象の背景			
手術時年齢(歳)	7.4±2.1	7.5±2.1	0.781
調査時年齢(歳)	14.9±2.9	14.7±3.3	0.7899
経過観察期間(年)	7.5±1.9	7.1±2.0	0.4585
GMFCS レベル IV	22 股	13 股	
GMFCS レベル V	5 股	5 股	0.4642
②レントゲン計測値			
術前			
MP(°)	50.7±17.7	63.1±18.3	0.007
CE 角(°)	-0.9±10.8	-9.7±11.3	0.0047
Sharp 角(°)	53.0±3.0	53.8±3.9	0.2563
前捻角(°)	59.2±7.7	56.2±5.9	0.2067
頸体角(°)	143.6±5.3	144.4±5.0	0.5547
調査時			
MP(°)	18.4±6.5	29.5±3.4	<0.0001
CE 角(°)	24.4±6.1	16.6±5.3	0.0001
Sharp 角(°)	43.7±2.9	47.6±3.7	0.0003
③その他			
股関節外転角度			
術前(°)	13.6±11.6	8.2±4.7	0.0908
術後1年(°)	32.0±7.5	26.9±7.7	0.0261
調査時(°)	18.1±8.1	14.2±10.3	0.1576
装具装着期間(年)	4.7±2.5	3.4±1.8	0.0503
術後入院期間(月)	43.3±52.8	12.5±8.0	0.5861

GMFCS : Gross Motor Function Classification System

MP : Migration Percentage

Mann-Whitney test(ただし, GMFCS のみ, Fisher の直接確率法を使用)

調査時の臼蓋形成不全が, VDO 後の成績不良因子であることは以前から指摘されている. 今回の検討でも, good 群と fair 群間で, 調査時の sharp 角に有意差がみられた. 本研究では, 24 例 46 股において, 術前の Sharp 角の平均値が 53.4° から調査時 45.4° と改善していた. 24 例中, 18 例は手術時年齢が 9 歳未満であった. Eilert ら²⁾は, 8 歳までは VDO により臼蓋のリモデリングが期待できると述べている. 著者らは, 9 歳ごろまでは, 長期に股関節求心位が維持されれば, 臼蓋はかなり改善すると考えている. 仮に軽度の臼蓋形

成不全が残っても, 股関節亜脱臼がなければ, 重度 CP 児にとっては疼痛の原因にならないだろうと著者らは予想しており, これまで臼蓋形成術を行った例はない. 今後もこれらの結果が明らかになるまで, 重度 CP 児に対して, 臼蓋形成術は行わない方針である.

手術合併症として, 大腿骨骨頭壊死が 46 股中, 3 股でみられた. いずれも大腿骨頭の部分壊死であり, 調査時, 骨頭変形を残さず, リハビリ期間にも支障をきたさなかった. 併用手術の侵襲は大きい, 術後感染例, 骨偽関節例は 1 例もなかつ

た。また，他家輸血例はなく，全例自己血で対応できた。また，手術の5日目には，板付きの車いすで長座位の姿勢になり，手術後3週から下肢の可動域訓練を開始した。これまで長時間手術による合併症がなかったことから，今後も重度CP児に対して，併用手術を行っていく方針である。

今回，股関節外転角度の左右差(windswept posture)や脊柱側彎変形などについて調査しなかった。重度CP児にとっては，左右対象の身体にすることは重要であり，今後調査したいと考えている。

結 語

重度CP児の股関節亜脱臼，脱臼に対し，初回手術として，軟部組織解離術とVDOの併用手術を一期的に行った24例46股のX線学的成績を調査した。調査時，成績不良例は，1股のみであり，過去の報告とくらべ良好であった。

文献

- 1) Canavese F, Emara K, Sembrano JN et al: Varus derotation osteotomy for the treatment of hip subluxation and dislocation in GMFCS level III to V patients with unilateral hip involvement. Follow-up at skeletal maturity. J Pediatr Orthop **30** : 357-364, 2010.
- 2) Eilert RE, MacEwen GD: Varus derotational osteotomy of the femur in cerebral palsy. Clin Orthop **125** : 168-172, 1977.
- 3) Hoffer MM, Stein GA, Koffman MK et al: Femoral varus-derotation osteotomy in spastic cerebral palsy. J Bone Joint Surg **67-A** : 1229-1235, 1985.
- 4) Miller F, Girardi H, Lipton G et al: Reconstruction of the dysplastic spastic hip with peri-ilial pelvic and femoral osteotomy followed by immediate mobilization. J Pediatr Orthop **17** : 592-602, 1997.
- 5) 三輪 隆, 柳迫康夫, 城 良二ほか: 脳性麻痺の股関節脱臼に対する大腿骨減捻内反骨切り術. 整形外科 **61** : 401-408, 2010.
- 6) 野村忠雄, 林 律子, 西村一志ほか: 脳性麻痺の亜脱臼股に対する大腿骨骨切り術. 臨整外 **30** : 1037-1044, 1995.
- 7) Noonan KJ, Walker TL, Kayes KJ et al: Varus derotation osteotomy for the treatment of hip subluxation and dislocation in cerebral palsy : statistical analysis in 73 hips. J Pediatr Orthop **B-10** : 279-286, 2001.
- 8) Settecce JJ, Karol LA: Effectiveness of femoral varus osteotomy in patients with cerebral palsy. J Pediatr Orthop **20** : 776-780, 2000.
- 9) 鳥越清之, 福岡真二, 松田匡弘ほか: 脳性麻痺股関節脱臼・亜脱臼に対する整形外科的選択的痙攣性コントロール手術, 観血的整復ならびに大腿骨減捻内反骨切り術の同時併用手術の中期成績. 日小整会誌 **20** : 114-119, 2011.
- 10) Turker RJ, Lee R: Adductor tenotomies in children with quadriplegic cerebral palsy : longer term follow-up. J Periatr Orthop **20** : 370-374, 2000.

Abstract

Combined Soft Tissue Release and Femoral Varus Derotational Osteotomy for Subluxation and Dislocation of the Hip in Severe Cerebral Palsy

Koji Noritake, M. D., et al.

Department of Orthopaedic Surgery, Aichi Prefectural Hospital and Rehabilitation Center
for Disabled Children, Dai-ni Aoitori Gakuen

We report the results of a combination of soft tissue release and femoral varus derotational osteotomy for 46 spastic subluxation or dislocated hips in 24 children with severe cerebral palsy. According to the criteria of Miller et al, preoperatively there were mild subluxation (10 hips), moderate subluxation (19 hips), severe subluxation (16 hips), and dislocation (1 hip). Their mean age at operation was 7.4 years (range, 5.2 to 12.3 years). At final follow-up, 27 hips were classified as good ($MP : \text{Migration Percentage} < 25\%$), 18 hips were fair ($25\% \leq MP < 40\%$), and only one hip was poor ($MP \geq 40\%$). The incidence of poor cases was 2.2% (1/46) in all cases and 5.9% (1/17) in cases with severe subluxation or dislocation. The degree of preoperative hip subluxation, hip abduction one year after the operation, and acetabular dysplasia at follow-up were the factors that influence the results. There was no infection, and no nonunion. We concluded that a combination of soft tissue release and femoral varus derotational osteotomy was an effective method to obtain and maintain hip stability with severe cerebral palsy.

大腿骨前捻角症候群における大腿骨減捻骨切り術に対する 髓内釘の使用経験

自治医科大学とちぎ子ども医療センター 小児整形外科

松 田 蓉 子・渡 邊 英 明・萩 原 佳 代・吉 川 一 郎

要 旨 大腿骨前捻角症候群の大腿骨減捻骨切り術は、大転子から刺入する小児用ステンレス製髓内釘による固定の方が、プレートより簡単で成績が良いが、本邦では使用できない。成人用チタン製髓内釘を使用し、良好な治療成績を得た経験を報告する。症例1は10歳男性、症例2は9歳男性で、歩行開始時よりうちわ歩行があり、易転倒性があった。小学校高学年になっても転倒を繰り返すために、手術を行った。2例とも股関節可動域は内旋90°で、3次元CTでは大腿骨前捻角が両側とも40°であった。手術は片側ずつ、両側行った。大転子部より刺入する成人用チタン製髓内釘を使用して骨切り術を行い、遠位肢を約20°外旋し固定した。術後大腿骨前捻角は、それぞれ両側20°、25°に改善した。全例に骨癒合が得られ、うちわ歩行はなくなり、転倒することもなくなった。術後合併症はなく、術後約1年で抜釘ができた。小児でも髓内が大きいければ、成人用髓内釘で安全に治療できる。

はじめに

小児の大腿骨前捻角症候群の手術療法は、大転子から刺入する小児用ステンレス製大腿骨髓内釘による固定の方が、プレートによる固定より簡単で成績が良いと報告がある^{1)~3)}。しかし、本邦では小児用ステンレス製大腿骨髓内釘の保険適応がなく、それを使用することができない。そこで、当施設では小児用ステンレス製大腿骨髓内釘の代わりに成人用チタン製大腿骨髓内釘を使用し、良好な治療成績を得たので報告する。

症例供覧

症例1：10歳、男児。既往歴・家族歴に特記すべきことはない。歩行開始時よりうちわ歩行があり、2歳時に当院を受診した。年1回の外来通院で経過を診ていたが、小学校高学年になってもう

ちわ歩行は変わらず、転倒を繰り返していた。股関節可動域は両側とも外転60°、内転10°、屈曲140°、伸展10°、内旋80°、外旋45°であった。股関節単純X線正面及び軸写像では特に異常はなく、大腿頸骨角(Femorotibial Angle：以下、FTA)は175°であった。単純3次元CT(3Dimensional CT：以下、3DCT)を撮影し、大腿骨軸に垂直にスライスした再構成画像で、頸部を通るスライスで頸部の軸線を設定し、大腿骨頸部スライスでのepicondylar lineを基準線として、両線のなす角である大腿骨頸部前捻角を計測したところ、両側とも40°であった(図1)。易転倒性の改善を目的として、10歳時に手術治療を行った。

手術：CTで成人用チタン製大腿骨髓内釘の一番小さい径(Zimmer Sirius Intramedullary Nail System：9.3 mm)が使用できることを確認してから行った。また、片側ずつ約1年あけて行った。

Key words : children(小児), excessive femoral anteversion(大腿骨前捻角症候群), femoral derotational osteotomy(大腿骨減捻骨切り術), intramedullary nail(髓内釘)

連絡先 : 〒329-0489 栃木県下野市薬師寺3311-1 自治医科大学 整形外科科学講座 松田蓉子 電話(0285)58-7374

受付日 : 2014年3月5日

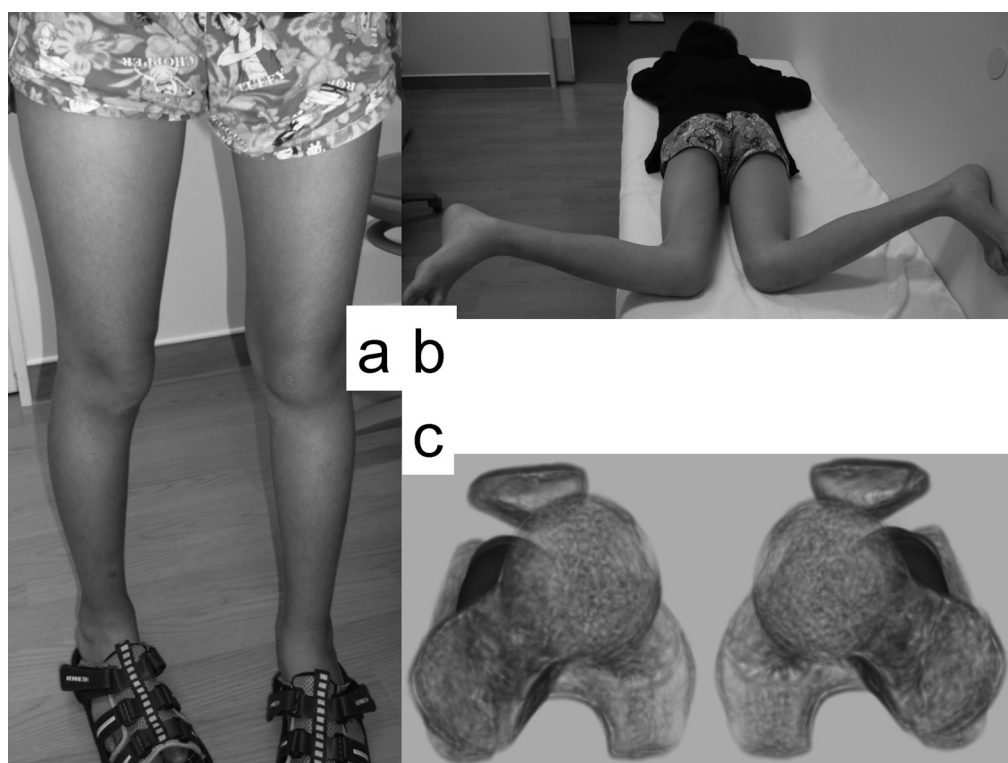


図 1. 症例 1

a: 術前立位正面像

b: 術前股関節可動域

両側ともに内旋 80°であった。

c: 術前 3DCT

大腿骨前捻角は両側ともに 40°であった。

体位は仰臥位で牽引ベッドを使用した。大転子を刺入部とし、9.3 mm の 1 mm over までリーミングを行った。骨切りラインを近位ロッキングスクリューより 4 cm 以上遠位の約 6 cm とし、骨切りライン手前まで髓内釘を挿入してから、遠位骨幹端に大腿骨遠位成長軟骨と平行になるように 2.0 mm K-wire を、また、同じように大腿骨遠位成長軟骨と平行になるように近位転子部に髓内釘とぶつからないように 2.0 mm K-wire を、遠位 K-wire より 20° 外旋させて 1 本刺入した。次に骨切り部で、大腿骨骨膜を切らずに 2.0 mm の K-wire で数か所穴をあけた後、ノミで骨切りし、遠位大腿骨を 2 本の K-wire が平行になるまで 20° 外旋(膝蓋骨が外に向くように)して、そのまま維持し、髓内釘を挿入して、近位に 2 本、遠位に 1 本のロッキングスクリューを挿入して、髓内

釘を固定した(図 2)。術後後療法は、ギプスなどの外固定は必要なく、痛みが引き次第徐々に患肢に荷重をかけて歩行し、単純 X 線で骨癒合が十分得られたところで、スポーツを許可した。術後、両症例とも大腿骨頭壊死などの合併症はなく、骨癒合が得られ、術後約 1 年で抜釘もできた(図 3)。

術後経過: うちわ歩行は改善し、易転倒性もなくなり、股関節可動域は内旋が両側 60°、3DCT による大腿骨前捻角は両側 20° と改善した(図 4)。FTA は 175° で変化はなかった。

症例 2: 9 歳、男子。既往歴・家族歴に特記すべきことはない。歩行開始時よりうちわ歩行があり、易転倒性があったため、7 歳時に当院を受診した。外来で経過を診ていたが、うちわ歩行と易転倒性の改善はなかった。股関節可動域は両側とも外転 60°、内転 10°、屈曲 140°、伸展 10°、内

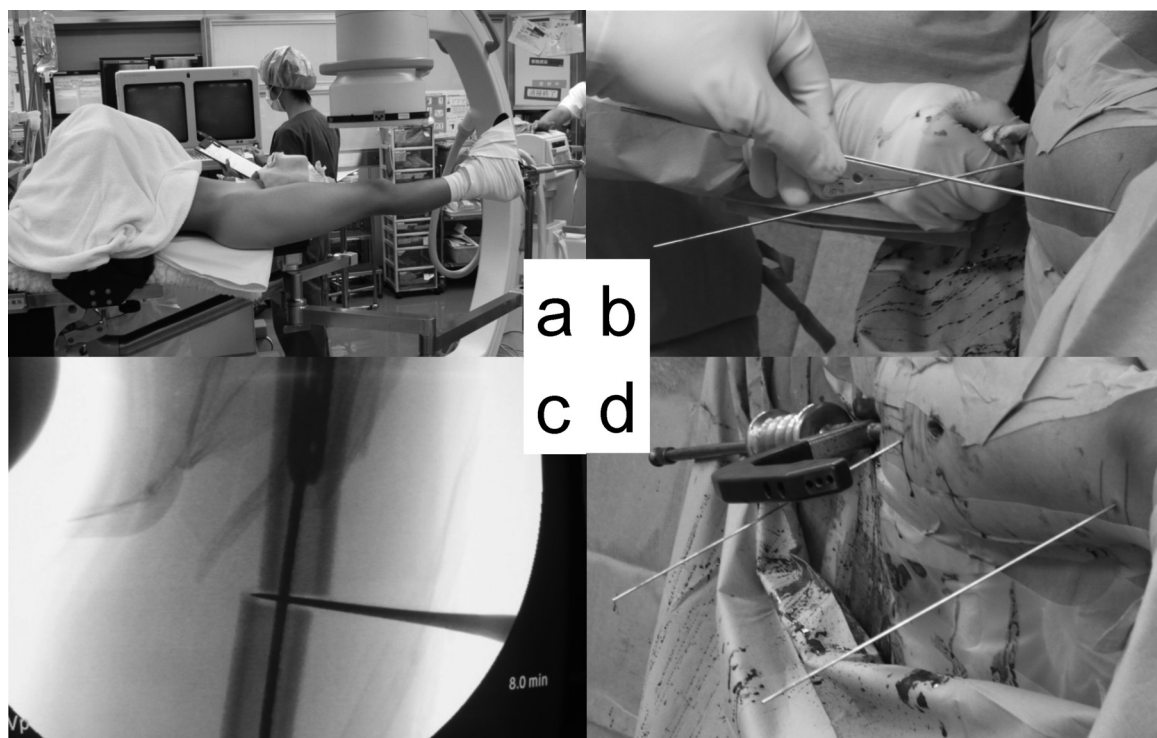


図 2. 手術手技

a: 牽引ベットを使用した.

b: 遠位骨幹端に大腿骨遠位成長軟骨と平行になるように K-wire を, また同じように大腿骨遠位成長軟骨と平行になるように近位転子部に髓内釘とぶつからないように K-wire を, 遠位 K-wire より 20° 外旋させて 1 本刺入した.

c: 大腿骨骨膜を切らずに 2.0 mm の K-wire で数か所穴をあけた後, ノミで骨切りした.

d: 遠位大腿骨を 2 本の K-wire が平行になるまで 20° 外旋して固定した.

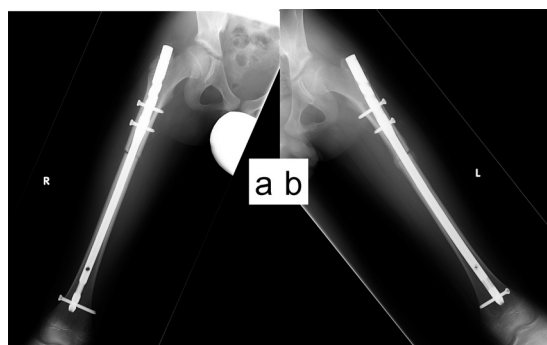


図 3. 術後単純 X 線

両側ともに固定性は良好である.

旋 90°, 外旋 20° であった. 股関節単純 X 線正面および軸写像では特に異常はなく, FTA は 175° であった. 単純 3DCT を撮影したところ, 大腿骨頸部前捻角は両側ともに 40° であった(図 5).

易転倒性改善を目的に 9 歳時に手術治療を行った.

手術: 手術手技は 1 例目と同様. ただし, 大腿骨髓腔が大きかったため, 11.5 mm までリーミングを行い, 10.3 mm の髓内釘を挿入した.

術後経過: うちわ歩行は改善し, 易転倒性もなくなり, 股関節可動域は内旋が両側 45° と改善し, 3DCT による大腿骨前捻角は両側 25° と改善した(図 6). FTA は 175° で変化はなかった.

考 察

2005 年に Eric Gordon ら¹⁾は, 大腿骨前捻角症候群のため日常生活やスポーツで転倒を繰り返していた患者に対して, 大転子より刺入する髓内釘を使用した大腿骨減捻骨切り術を報告した. 13 患者 21 肢, 平均年齢 10.7 (8.8~14.7) 歳, 平均経

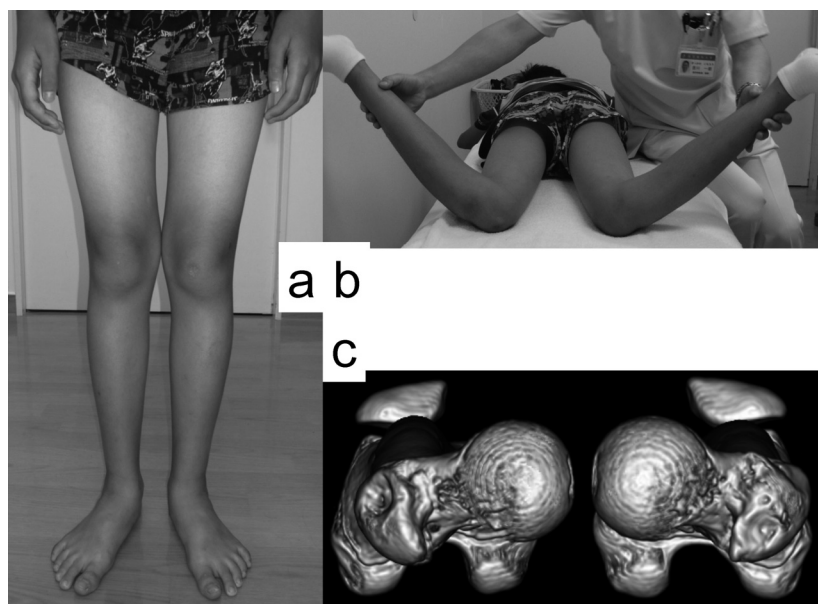


図 4. 症例 1

a: 術後立位正面像

うちわ歩行は改善し、立位で改善が見られる。

b: 術後股関節可動域

両側ともに内旋 60° に改善した。

c: 術後 3DCT

大腿骨前捻角は両側ともに 20° に改善した。

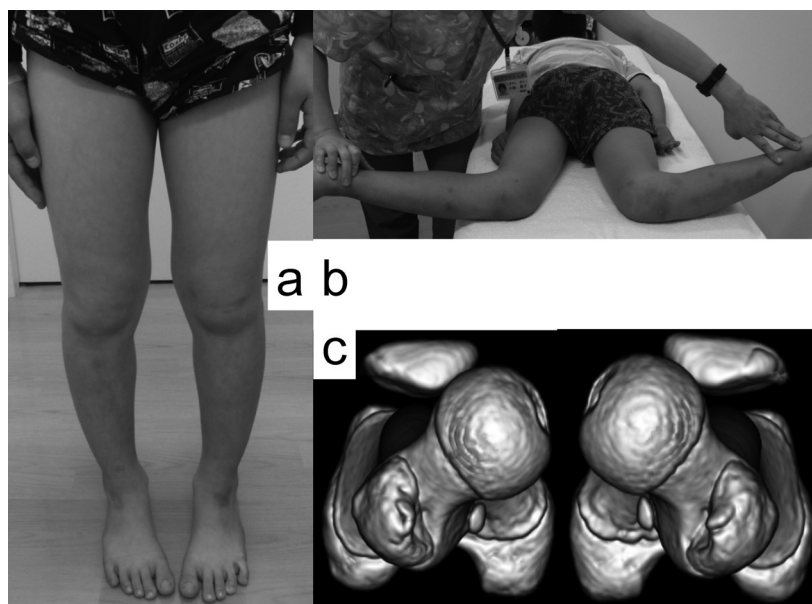


図 5. 症例 2

a: 術前立位正面像

b: 術前股関節可動域

両側ともに内旋 90° であった。

c: 術前 3DCT

大腿骨前捻角は両側ともに 40° であった。

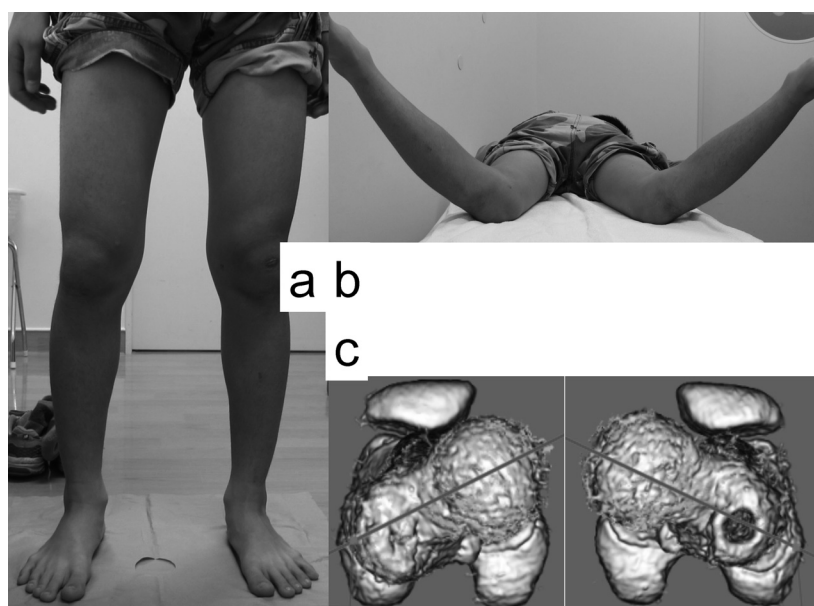


図 6. 症例 2

a: 術後立位正面像

うちわ歩行は改善し、立位で改善が見られる。

b: 術後股関節可動域

両側ともに内旋 45° に改善した。

c: 術後 3DCT

大腿骨前捻角は両側ともに 25° に改善した。

過観察期間 2.6(1.2~5.1)年で、術後 6 週で全例骨癒合が得られ、うちわ歩行も改善し、転倒はなくなったと報告している。また、大腿骨頭壊死などの合併症もなく、創も小さかったと報告している。2008 年に Stevens ら³⁾も、平均大腿骨前捻角 29°(20~47°)の大腿骨前捻角症候群の患者に対して、大転子より刺入する髓内釘を使用した大腿骨減捻骨切り術を報告し、30 患者 40 肢、平均年齢 11(8~16)歳で、全例術後 3 か月以内に骨癒合し、合併症もほとんどなく、1 例以外は抜釘も容易であったと報告している。また、プレートを使用した時より創が小さいために、出血量も少なく、ケロイドなどの癬痕形成も少ないことから、本人家族ともに満足度が高いと報告している。

しかし、本邦では小児用ステンレス製髓内釘の使用は、保険上認められていないために使用できない。今回、当施設では、前捻角症候群に対する大腿骨減捻骨切り術の内固定に大転子から刺入する成人用チタン製大腿骨髓内釘を使用した。術後

は、小児用大腿骨髓内釘同様に骨癒合は良好で、創も小さく、大腿骨頭壊死などの合併症もなく、術後約 1 年での抜釘も容易であった。成人用チタン製大腿骨髓内釘でも、髓腔が大きければ小児でも安全に使用できた。しかし、小児大腿骨骨折の髓内釘治療による大腿骨頭壊死の発生率は、梨状窩刺入では 2%、大転子刺入では 1.4%との報告がある²⁾ため、大腿骨髓内釘を使用したときは、大腿骨頭壊死が生じないか注意しながら、術後経過観察を行うことが必要である。

結 論

今回、小児の大腿骨前捻角症候群に対する大腿骨減捻骨切り術の内固定に大転子から刺入する成人用チタン製大腿骨髓内釘を使用した。まだ 2 例の経験ではあるが、術後は大腿骨頭壊死などの合併症はなく、骨癒合は良好で、術後 1 年での抜釘も容易であった。成人用髓内釘でも、大腿骨骨髄腔が大きければ小児でも安全に使用できると思わ

れた。

文献

- 1) Gordon JE, Pappademos PC, Schoenecker PL et al: Diaphyseal derotational osteotomy with intramedullary fixation for correction of excessive femoral anteversion in children. J Pediatr Orthop **25** : 548-553, 2005.
- 2) Michael JA, Francis A, El-Hawary R: A systematic review of rigid, locked, intramedullary nail insertion sited and avascular necrosis of the femoral head in the skeletally immature. J Pediatr Orthop **31** : 377-380, 2011.
- 3) Stevens PM, Anderson D: Correlation of anteversion in skeletally immature patients. J Pediatr Orthop **28** : 277-283, 2008.

Abstract

Intermedullary Nailing for Derotational Osteotomy of the Femur with Excessive Femoral Anteversion

Yoko Matsuda, M. D., et al.

Department of Pediatric Orthopedic Surgery, Jichi Medical Children's Center, Tochigi

Femoral derotational osteotomy for excessive femoral anteversion can be performed more easily and achieve better outcomes using intramedullary fixation by stainless-steel nails into the greater trochanter, compared to using plate fixation. Since these stainless-steel nails are not yet available in Japan, we report here the use of titanium nails, generally used for adult cases, in 2 boys. One was aged 10 years, and the other was aged 9 years. Each presented toe-in gait, and a tendency to fall at the start of gait. In each case, the range of motion in the hip was 90° in internal rotation, and the anteversion angle of the femur was 40° bilaterally. In each case, surgery was performed on both hips in separate operations. In each operation, the distal limb was fixed with about 20° external rotation. Results showed the bilateral femoral anteversion angle was improved to 20° in one case, and to 25° in the other. In both cases, bony union was achieved, toe-in gait was resolved, and the patients did not fall during gait. There was no postoperative complication, and the nails were removed at one year after the operations. These findings indicate that titanium nails are safe to use in children provided there is sufficient intramedullary area.

小児の痙性尖足に対する腓腹筋への A 型ボツリヌス毒素の 初回時効果の検討

北九州市立総合療育センター

中 西 芳 応・松 尾 圭 介・河 村 好 香・佐 伯 満

要 旨 歩行可能な痙性尖足に対する腓腹筋へのボツリヌス療法について、初回時の効果を、後療法として施行した矯正ギブスの併用の有無に分けて検討した。対象は 19 人 29 足、矯正ギブス併用無 A 群 14 人 20 足と矯正ギブス併用有 B 群 6 人 9 足に分けた。1 名で片足ずつ異なる群であった。治療前後の膝伸展足関節背屈角と Modified Ashworth Scale(以下, MAS), 体重当たりの腓腹筋への投与量を評価した。両群で膝伸展足関節背屈角の改善を認め、B 群では高度尖足例でも改善を認めた。MAS は A 群で 20 足中 14 足, B 群で 9 足中 4 足改善を認め、体重当たりの投与単位が同じでも、MAS の改善に違いを認めた。その一因として、投与部位による神経筋接合部への薬剤浸透効果に違いがあると考えた。矯正ギブス法の併用効果や適応を検討し、ボツリヌス療法の投与方法を工夫することで、さらなる治療効果の向上が得られると期待している。

はじめに

当院では 2004 年より A 型ボツリヌス毒素(ボトックス[®])を用いたボツリヌス療法を行っている。2009 年に「2 歳以上の小児脳性麻痺患者における下肢痙縮に伴う尖足」に対して治療が承認されてから、当院でも痙性尖足に対して治療を開始し、内反尖足例や外反尖足例も含めて筋緊張のバランスに配慮して投与筋を選択し、高度尖足例など症例によって矯正ギブスを併用している。今回、歩行可能な痙性尖足児における腓腹筋へのボツリヌス療法で、初回時の効果を矯正ギブスの併用の有無に分けて検討した。

対象は 2009 年 6 月から 2013 年 7 月の間にボツリヌス療法を行った歩行可能な痙性尖足児のうち、術後の再発尖足を除き、足関節底屈筋で腓腹筋のみに投与した 19 名 29 足(男性 15 名 23 足, 女性 4 名 6 足)であった。ただし、ボツリヌス療

法時に、尖足以外(膝屈曲痙縮に対してのハムストリングなど)に同時に治療を行った例も含んだ。初回治療時の平均年齢は 5 歳 8 か月(2 歳 10 か月～9 歳 9 か月)、疾患は脳性麻痺 18 人、遺伝性痙性対麻痺 1 人であった。矯正ギブスの併用無を A 群、併用有を B 群とし 2 群に分けた(表 1)。1 名で片足ずつ異なる群であった。

評価項目は、①治療前後の slow stretch による膝伸展足関節背屈角(Dorsiflexion with Knee Extension: 以下, DKE), ②治療前後の Modified Ashworth Scale(以下, MAS, 表 2), ③腓腹筋への体重当たりのボツリヌス毒素の投与単位とし、カルテ記載より後方視調査し、治療後の評価日は治療後 2 週から 1 か月後の再来時とした。

ボツリヌス療法は、3 人の整形外科医師によって施行され、各医師によって goniometer を用いて DKE の測定を行い、MAS の評価を徒手的に行った。

Key words : botulinum toxin type A(A 型ボツリヌス毒素), spastic paralysis(痙性麻痺), equinus deformity(尖足変形), gastrocnemius muscle(腓腹筋), corrective cast(矯正ギブス)

連絡先 : 〒 802-0803 福岡県北九州市小倉南区春ヶ丘 10-2 北九州市立総合療育センター 中西芳応
電話(093)922-5596

受付日 : 2014 年 3 月 27 日

表 1. 矯正ギブスの併用の有無の両群の構成

	A 群 矯正ギブス併用なし	B 群 矯正ギブス併用あり
症例数	14 人 20 足	6 人 9 足
性別	男性 10 人, 女性 4 人	男性 6 人, 女性 10 人
治療時年齢	平均 5 歳 9 か月 (2 歳 10 か月 ～9 歳 9 か月)	平均 5 歳 0 か月 (3 歳 10 か月 ～6 歳 8 か月)
GMFCS レベル*	I 5 人, II 2 人, III 7 人	I 0 人, II 2 人, III 4 人
施行前 DKE	平均 5.5° (-15°～20°)	平均 -8.3° (-25°～5°)
施行前 MAS	1: 1 足, 2: 12 足, 3: 6 足, 4: 1 足	2: 6 足, 3: 3 足

* GMFCS: Gross Motor Function Classification System

表 2. Modified Ashworth Scale (MAS)

Score	
0	筋緊張低下なし
1	軽度の筋緊張亢進がある。引っ掛かりとその消失, または屈曲, 伸展の最終域でわずかな抵抗がある
1 + (1.5)	軽度の筋緊張亢進がある。明らかな引っ掛かりがあり, それに続くわずかな抵抗を可動域の 1/2 以下で認める
2	よりはっきりとした筋緊張亢進を全可動域で認める。しかし, 運動は容易に可能
3	かなりの筋緊張がある 他動運動は困難
4	患部は硬直し, 屈曲, 伸展は困難

これらの結果から, DKE の変化と MAS の変化, 腓腹筋への体重当たりの投与単位と MAS の変化の関連性を調査した。

結 果

① DKE

全症例の動向を図 1 に示す。A 群では, 施行前平均 5.5° (-15°～20°), 施行後平均 10.8° (-5°～30°) と平均 5.3° (-5°～15°) 改善した。B 群では, 施行前平均 -8.3° (-25°～5°), 施行後平均 9.4° (5°～20°) と平均 17.8° (5°～45°) 改善した。

② MAS

全症例の動向を図 2 に示す。A 群では 20 足中

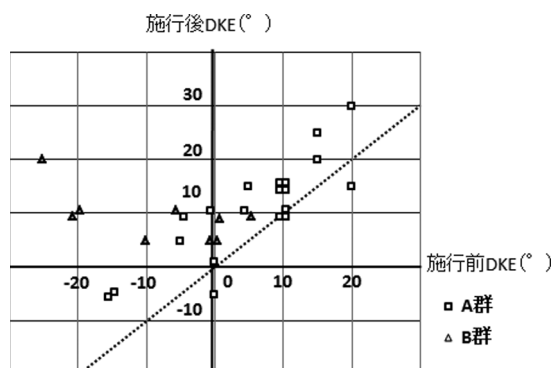


図 1. 全症例の治療施行前, 施行後の DKE の推移。横軸が施行前, 縦軸が施行後の DKE。点線は変化なしを示す。

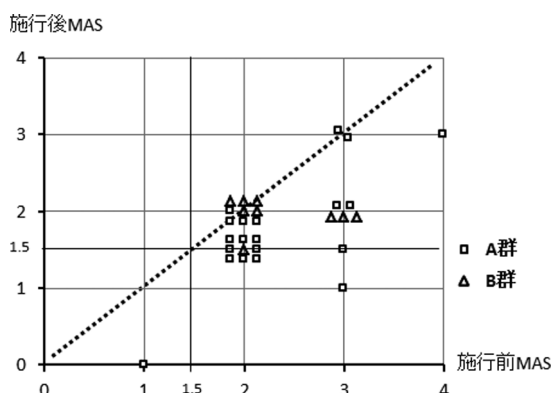


図 2. 全症例の治療施行前, 施行後の MAS の推移。横軸が施行前, 縦軸が施行後の MAS。点線は変化なしを示す。

14 足で筋緊張の軽減を認め, B 群では 9 足中 4 足であった。

③ DKE の変化と MAS の変化

全症例の動向を図 3 に示す。A 群で DKE の改善を認めた例では, 14 足中 12 足で MAS の改善を認めた。一方, B 群では, 10° 以下の DKE の改善例では MAS の改善を認めているが, 15° 以上の DKE の改善を得られた例では, 全例 MAS の変化を認めなかった。

④ 腓腹筋への体重当たりの投与単位と MAS の変化

全症例の動向を図 4 に示す。矯正ギブス併用の有無にかかわらず, 同じ投与単位数でも MAS の改善に差を認めた。

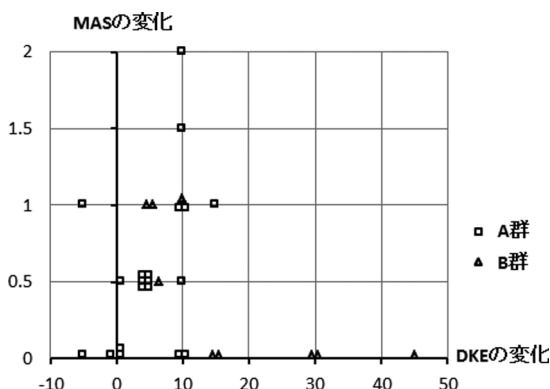


図3. 全症例のDKEの変化とMASの変化. 横軸が施行前後のDKEの変化量, 縦軸が施行前後でのMASの変化量.

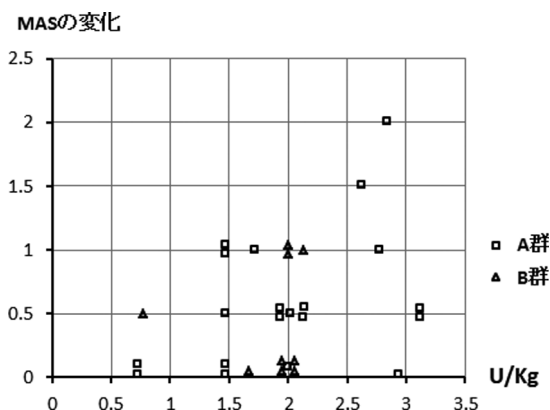


図4. 全症例のボツリヌス毒素の体重当たりの腓腹筋投与単位と施行前後のMASの変化. 横軸が腓腹筋への体重当たりのボツリヌス毒素の投与単位, 縦軸は施行前後のMASの変化量.

考 察

当院での小児の痙性尖足に対する治療は, 理学療法を基本とし, 症例に合わせて装具, 矯正ギブス法, ボツリヌス療法, 手術療法(腓腹筋筋膜切離術など)を組み合わせで行っている. しかし, 7歳以下での手術治療では, 成長過程での尖足の再発頻度が高くなるという報告もあり³⁾, 度重なる手術加療を回避するために, 矯正ギブス法やボツリヌス療法を用いてできる限り保存治療を行っている.

痙性尖足に対して, 矯正ギブス法は足関節背屈角の大きな矯正効果があると報告されている⁷⁾.

一方で, ボツリヌス療法は, 足関節背屈角の改善や痙性軽減などの理学所見の改善, 歩行分析にて歩容の改善を認めるなど有効とされ, 脳性麻痺リハビリガイドラインで強く推奨されており⁵⁾⁶⁾, どちらも痙性尖足に対する保存療法として有用と考えられる.

本研究では, 歩行解析など歩容に関しては検討しなかったが, 痙性尖足に対するボツリヌス療法の効果について, 二つの要素である足関節背屈制限と痙縮に対してDKEとMASを用いて検討した.

ボツリヌス療法単独群でDKEの改善はほとんどが10°以下であったが, MASの変化との関連を調べたところ, DKEの改善を認めた14足中12足でMASの改善を認めており(図3), ボツリヌス療法単独群での筋緊張の軽減は足関節背屈角の改善に寄与していると考えられた.

一方, 矯正ギブス併用群では全例でDKEの改善を認めたが, MASの変化との関連において, 10°以下のDKEの改善例ではMASの改善を認めているが, 15°以上の改善を得られた例では全例MASの変化を認めなかった(図3). 前者の施行前DKEが-5~-0°に対し後者は施行前DKEが-25~-5°とより高度な尖足であった(図1). 痙性尖足では痙縮と拘縮が混在しており, MASの改善がなくDKEの改善が得られた例では拘縮の要素が強く, ボツリヌス療法の効果は低い, DKEの改善に矯正ギブスの効果が大きく寄与したのではないかとと思われる. ボツリヌス療法時に矯正ギブスを併用した方が, ボツリヌス療法単独よりもさまざまな面で効果を期待できるという報告もあるが²⁾, 本研究ではボツリヌス療法単独群と矯正ギブス併用群の粗大運動能力や施行前のDKEの程度に違いがあり, 両群の効果を比較し検討するには限界があった.

本研究では, 腓腹筋への投与単位数と痙性の改善との関係についても調査した. 我が国でのボツリヌス療法の初回時では, 投与単位総量が4U/Kgまでとされており, 治療時に他部位にも投与すると一つの筋に対する投与単位が限られてく

る。Molenaers らが他施設での下肢のボツリヌス療法についてまとめた報告⁴⁾によると、腓腹筋への投与単位の適量は3~6U/Kgとしており、当院ではほとんどが3U/Kg以下と少ない量であった。当院での腓腹筋への体重当たりの投与単位とMASの動向をみると、矯正ギブスの併用の有無にかかわらず、少ない投与単位でも痙性が改善した例や、多いのに改善を認めなかった例もあり、投与単位数と痙性の改善に明らかな関連を認めなかった(図4)。ボツリヌス毒素は神経筋接合部(Presynaptic Membrane of the Motor Endplate: MEP)に作用することで効果を発揮するため、MEPの分布に合わせて薬液が浸透するよう注射部位を選択することで、効率よく痙性の軽減が得られると考えられる。Campenhout らの報告によると、腓腹筋のMEPの分布は下腿長の近位3/4(内側頭)、4/5(外側頭)に密集しており、この部位に注射することでより効率よく効果を期待できるとしている¹⁾。本研究では注射部位以外にも、超音波装置や筋刺激装置などの補助装置の有無、注射箇所数や薬液希釈濃度などで統一されていず、これらの因子も効果の差異に影響していたと考えられる。

今回の結果を踏まえて、投与方法の工夫や矯正ギブスなどの併用療法を用いることで、投与単位の限られた初回時から、痙性尖足に対するボツリヌス療法の治療効果を期待できると考えられた。また、一方で拘縮が強いなどボツリヌス療法による効果が得られにくい状態があると思われ、理学所見などからどのように状態を見極めるのかという課題も生じた。MASは簡易的に行える痙性の評価だが、高度痙縮例では、速度依存性に筋緊張が亢進する痙縮と依存しない拘縮の区別は難しい。

なお、本研究では3人の医師によって治療を行ったため、評価に際する偏りの可能性や、超音波装置の活用や希釈濃度など薬剤投与方法に違いが生じた。今後、症例を重ね、施行者によるボツリヌス療法の効果の違いも含め、さらなる検討を行っていきたいと思う。

結 語

- 1) 小児の痙性尖足19名29足に対する腓腹筋へのボツリヌス療法の初回時効果について報告した。
- 2) ボツリヌス療法単独、矯正ギブス療法の併用群どちらも全体的に足関節背屈角の改善を認めた。
- 3) ボツリヌス療法単独群での足関節背屈角の改善に痙性の軽減が寄与していると思われた。
- 4) 投与単位数と痙性の軽減に関連を認めなかったが、投与方法の工夫によって、少ない投与単位でも痙性の改善を期待できる。

文献

- 1) Campenhout A V, Molenaers G: Localization of the motor endplate zone in human skeletal muscles of the lower limb. anatomical guidelines for injection with botulinumtoxin. *Dev Med Child Neurol* **53**: 108-119, 2011.
- 2) Hayek S, Gershon A, Wientroub S et al: The effect of injections of botulinum toxin type A combined with casting on the equinus gait of children with cerebral palsy. *J Bone Joint Surg Br* **92**: 1152-1159, 2010.
- 3) Koman LA, Smith BP, Barron R: Recurrence of equinus foot deformity in cerebral palsy patients following surgery: a review. *J South Orthop Assoc* **12**: 125-133, 2003.
- 4) Molenaers G, Campenhout A V, Fagard K et al: The use of botulinum toxin A in children with cerebral palsy, with a focus on the lower limb. *J Child Orthop*: 183-195, 2010.
- 5) 日本リハビリテーション医学会: 脳性麻痺リハビリテーションガイドライン, 金原出版, 東京, 92-95, 2009.
- 6) 日本リハビリテーション医学会: 脳性麻痺リハビリテーションガイドライン第2版, 金原出版, 東京, 161-166, 2014.
- 7) 須田英明, 落合達宏, 高橋祐子ほか: 矯正ギブス法による痙直型両麻痺および片麻痺の尖足変形に対する治療成績. *日本脳性麻痺の外科研究会誌* **17**: 97-100, 2007.

Abstract

Botulinum Toxin Type A into the Gastrocnemius Muscle for Spastic Equinus Deformity

Yoshitaka Nakanishi, M. D., et al.

Kitakyushu Rehabilitation Center for Children with Disabilities

We report the initial findings from injecting botulinum toxin type A into the gastrocnemius muscle, with and without corrective cast, in 29 feet involving 19 children with spastic equinus deformity. Of these, 20 feet involving 14 patients received botulin without cast (Group A), and the other 9 feet involving 6 patients received botulin injection combined with corrective cast (Group B). We investigated ankle dorsiflexion with knee extension (DKE), the Modified Ashworth Scale (MAS), and any correlation between change in MAS and the botulin dosage. In Group A, 14 feet (70%) showed improvement in DKE, and 14 feet (70%) showed improvement on MAS. In Group B, all 9 feet (100 %) showed improvement in DKE, and 4 feet (44 %) showed improvement on MAS. There was no correlation between change in MAS and the botulin dosage. These findings suggest botulin injection therapy may be worthwhile exploring further, and the presynaptic membrane of the motor endplate area may be the best site for the botulin injection.

痙性尖足歩行例に対するボツリヌス治療の短期成績

宮城県拓桃医療療育センター 整形外科

水 野 稚 香・落 合 達 宏・高 橋 祐 子
千 本 英 一・佐 藤 一 望

要 旨 15歳以下の痙性尖足歩行例に対するボツリヌス治療(Botulinum Toxin : 以下, BT)の短期成績を検討した。対象は73例112件160足である。BT前およびBT後最も効果の生じた時期の痙縮の状態を調査し比較した。施注筋は下腿三頭筋(TS)120足, TS+後脛骨筋(TP)34足, TS+腓骨筋(Per)5足, TS+TP+Per1足であった。1足あたりの注射箇所は平均8.5箇所, 投与単位は平均83.5単位であった。後療法は144足で行われていた。BTによりModified Ashworth Scale, Foot Contact Scaleが軽減し痙縮への有効性が確認できた。尖足に対し有意な改善が得られたものの, 改善角度はおおむね10°と限定的であった。BT単独でも効果は認めたが, 矯正ギプスなどの併用が効果的であった。15歳以下でも, 拘縮度に応じた後療法の選択が有用と考える。

はじめに

A型ボツリヌス毒素は神経筋接合部において神経終末のアセチルコリンの放出を抑えることから痙縮治療に応用されている。国内の整形外科領域のボツリヌス療法(Botulinum Toxin : 以下, BT)は, 2001年から痙性斜頸に対して適応症が承認されて開始され, その後2009年2月に2歳以上の小児脳性麻痺患者における下肢痙縮に伴う尖足, 2010年10月に上肢痙縮・下肢痙縮への追加承認されている。近年では脳性麻痺児への局所的な痙縮治療の選択肢となっている。当センターでも, 歩行例の痙性尖足に対するBTは, 保存療法と観血的治療法の間置的な位置づけとして積極的に行ってきた。今回, 15歳以下の痙性尖足歩行例に対するBTの短期成績を検討した。

対象・方法

当センターにおける2001~2012年のBTは

304例692件であった。このうち歩行ビデオ・カルテで施注前後の痙縮の状態の調査が可能であった複数回例を含む15歳以下の痙性尖足歩行73例112件160足を対象とした。治療時平均年齢は, 9.8歳(2~15歳), 粗大運動能力分類システムはIが58例, IIが9例, IIIが6例であった。

施注は著者ら全員で施注場所・施注量を決定して施行した。施注量は下肢痙縮に対する300単位を上限とし, 年齢, 体重, 尖足の程度などを考慮して, それぞれ決定した。後脛骨筋には3から4箇所, 腓骨筋にも3から4箇所, 腓腹筋・ひらめ筋は症例により施注箇所を決定した。後療法は, 尖足の重症度の軽いほうからストレッチ, 装具療法, 矯正ギプスを主治医が判断し選択した。

施注前および施注後6か月以内で, 最も効果の生じた時期の記録で調査した。調査項目は, 足の変形の種類, 施注筋, 1足あたりの注射箇所, 後療法, Modified Ashworth Scale(以下, MAS), Foot Contact Scale(以下, FCS), 膝屈曲足関節

Key words : Botulinum toxin(ボツリヌストキシン), equinus foot(尖足), juvenile cerebral palsy(小児脳性麻痺)

連絡先 : 〒982-0241 宮城県仙台市太白区秋保町湯元字鹿乙20 宮城県拓桃医療療育センター 水野稚香
電話(022)398-2221

受付日 : 2014年3月31日

表 1. 痙縮評価

	BT前	BT後		
MAS	4	28足	<div>Modified Ashworth Scale (MAS)</div> <ul style="list-style-type: none">• 4 : 固まっていて、屈曲あるいは伸展ができない。• 3 : かなりの筋緊張の亢進があり、他動運動は困難である。• 2 : 筋緊張の亢進がほぼ全可動域を通して認められるが、容易に（他動）運動ができる。• 1+ : 軽度の筋緊張あり。引っかかりが明らかで可動域の1/2以下の範囲で若干の抵抗がある。• 1 : 軽度の筋緊張の亢進あり。屈伸にて、引っかかりと消失、あるいは可動域終わりに若干の抵抗あり。• 0 : 筋緊張に亢進なし	
	3	121足		41足
	2	11足		98足
	1			21足
	0			

MAS は各 BT 平均 1.2 点改善

背屈角(Dorsiflexion with Knee Flexion：以下、DFKF)、膝伸展足関節背屈角(Dorsiflexion with Knee Extension：以下、DFKE)とした。また、年齢別に A 群を就学前の 2 歳から 6 歳、B 群を就学後の 7 歳から 15 歳として MAS、FCS、DFKF、DFKE を比較検討した。

結 果

変形は、尖足 120 足、内反尖足 34 足、外反尖足 6 足であった。施注筋は下腿三頭筋 120 足、下腿三頭筋+後脛骨筋 34 足、下腿三頭筋+腓骨筋 5 足、下腿三頭筋+後脛骨筋+腓骨筋 1 足であった。1 足あたりの注射箇所は、平均 8.5 箇所、投与量は平均 83.5 単位であった。

後療法は 144 足に施行されており、ストレッチが 38 足、装具が 96 足、矯正ギプスが 10 足であった。

MAS は施注前後でおおむね 1 段階の改善が認められた(表 1)。FCS は、施注後にほとんどの症例で歩行時踵接地が可能になっていた(表 2)。

DFKF(平均±SD)は、前： $-1.7 \pm 10.8^\circ$ 、後： $7.1 \pm 8.0^\circ$ へ有意に改善した。DFKE は前： $-16.2 \pm 9.7^\circ$ 、後： $-3.1 \pm 9.2^\circ$ へ有意に改善した(図 1)。

後療法別に足関節背屈角を比較すると、いずれ

の治療法も施注前より施注後の背屈角が優位に改善した(図 2)。矯正ギプスを行った症例は、そもそも施注前の尖足の強かった症例といえるが、ギプス治療を併用することで効果を得ていた。また、角度の改善がなかった症例は 5 例 5 足で、すべて後療法に装具を併用しており、後療法として矯正ギプスを選択した方が角度の改善が得られた可能性もある。しかし、角度に改善は認められなかったが、FCS はいずれも 1 点の改善が認められた。

年齢別に A 群の就学前と B 群の就学後を比較してみると(表 3)、MAS・FCS は平均 1 段階の改善で両群に有意差はなかった。DFKF の平均改善は、A 群が平均 10° 、B 群が平均 8.3° で両群に有意差はなかった。一方、DFKE は A 群の平均改善角度が平均 16° 、B 群が平均 11.8° で有意差が認められ、B 群の 7 歳以上には腓腹筋の拘縮の影響が示唆された。

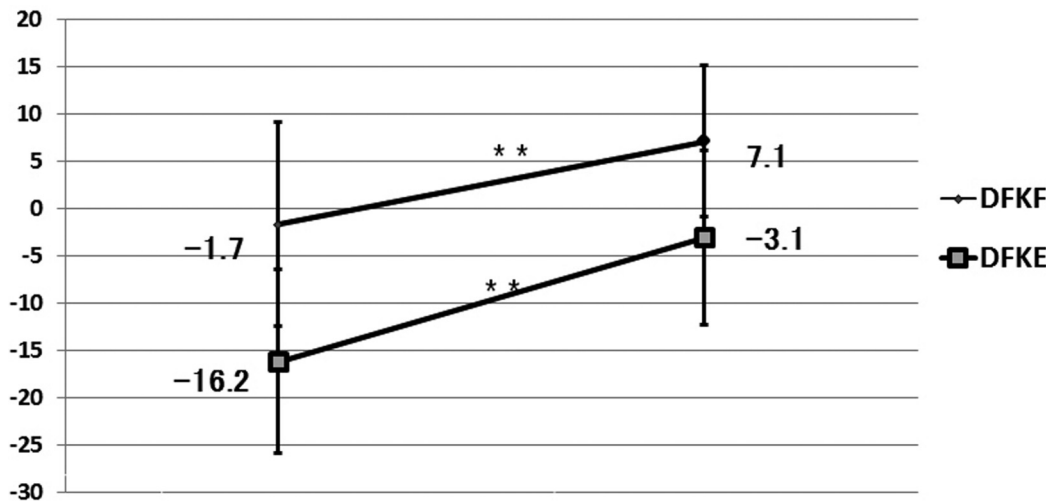
症 例

痙性対麻痺の 12 歳男児。施注前の MAS は 3、動的尖足は軽度で踵を上げての歩行で FCS 3 であった。右足関節の DFKF は -10° 、DFKE は $-$

表 2. 歩行機能評価

	BT前	BT後	
FCS	40足		Foot Contact Scale (FCS) ・ 4 著明に踵を上げてつま先で歩く ・ 3 軽度に踵を上げてつま先で歩く ・ 2 つま先から着地し、次に踵をつく ・ 1 足底全体で着地 ・ 0 正常に踵から着地
	106足	36足	
	14足	100足	
		20足	
		4足	

FCS は平均 1.1 点改善(有効> 1.0 点改善)



DFKF ⁴⁾	-1.7±10.8 (-25~+25) °	7.1±8.0 (-20~+25) °
DFKE ⁵⁾	-16.2±9.7 (-45~+5) °	-3.1±9.2 (-30~+15) °

図 1. 足関節背屈可動域(ROM)

DFKF, DFKE とも BT 前後で有意に改善した

25°であった。両尖足に対して、両腓腹筋とヒラメ筋に 12 箇所、計 60 単位の BT を施注した(図

3)。施注後 4 週後で MAS は 2 段階改善, FCS は足底接地で歩行できるようになり 2 段階改善し

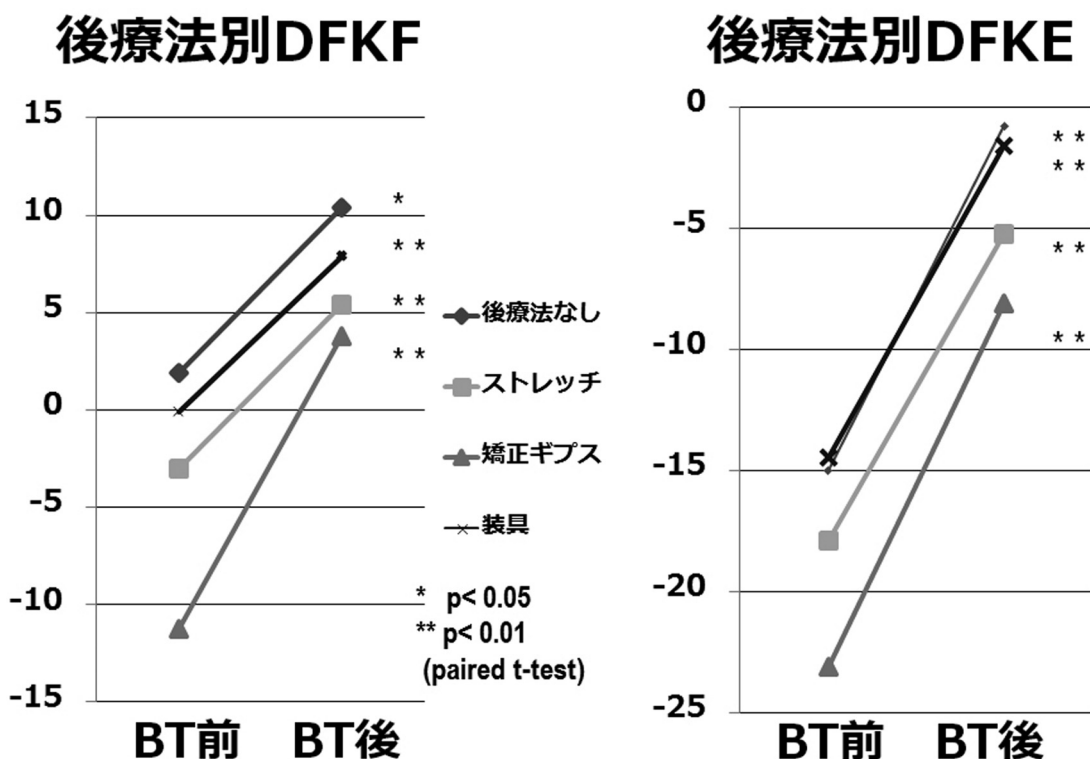


図2. 後療法別足関節背屈ROM

いずれもBT前後で優位に改善した。矯正ギプス例は、BT前の角度が特に悪かったが改善を得ている。

表3. 年齢別BT前後の変化

	Group A(n=46)	Group B(n=114)	
Mean age(range)	4.61(2-6)	11.6(7-15)	
	Group A(n=46)	Group B(n=114)	Paired t-test P-value
	Mean(SD)	Mean(SD)	
MAS変化量	1.21(0.55)	1.24(0.49)	0.41
FCS変化量	1.17(0.53)	1.09(0.60)	0.20
DFKF改善角度(°)	10(11.0)	8.3(7.5)	0.12
DFKE改善角度(°)	16.0(8.3)	11.8(7.2)	0.001

DFKEのみ両群間に有意差が認められた

た。施注後右足関節のDFKFは -5° に改善、DFKEは 5° と改善した。

考 察

過去の報告では、脳性麻痺児に対してBT単独でも歩行機能の改善、GMFCSの改善が報告されているが、³⁾⁷⁾添付文章にも拘縮には効果を有さな

いと明記されている。年齢別に尖足に対するBTの効果調べてみたところ、DFKEにおいては両群間に有意差が認められ、小児においてもすでに拘縮を伴う症例は存在し、BT単独での治療の限界といえる。

脳性麻痺歩行例の尖足に対して、BTに矯正ギプス併用がより効果的とされている⁴⁾⁸⁾。今回の調査でも拘縮を伴いBT単独では背屈角度の改善が十分でない症例があったものの、そのような症例でも矯正ギプスを併用することで施注前の背屈角に比べ有意に改善が得られた。

BT後の矯正ギプスにより、有効期間の延長効果の報告も散見される¹⁾²⁾。我々の複数回施注例も、施注間隔は1年に1回が最も多かった。当センターではBTをより効果的に用いるため、幼児期、学童期には装具や矯正ギプスを後療法として併用し、アキレス腱延長術を回避もしくは年長時の1回で済ませられるような成長期における対応を理想としている⁵⁾⁶⁾。



図3. 症例 12歳, 男児
各腓腹筋に4箇所, ヒラメ筋に2箇所, 計12箇所60単位施注

BTは侵襲的にも効果的にも, 手術療法と保存療法の中間的な治療として位置づけられる。すなわち, 選択的軟部組織解離延長術と同じように治療筋を選択できるものの, その効果は期間限定で可逆的である。加えて, 今回の症例の多くで, 足底接地時の深部反射の抑制を得られることもしばしば経験した。年少児では, 腱紡錘への手術的な損傷を与えずに反射弓を温存しつつ痙縮を抑制できる本法は, 下肢機能向上への新たな寄与の可能性を持つのではないかと期待される。

まとめ

痙性尖足歩行例に対するBTによりMAS, FCSが軽減し痙縮への有効性が確認できたが, 尖足の改善角度はおおむね10°と限定的であっ

た。また, 後療法でストレッチ, 装具, 矯正ギプスを併用した症例が多く, 拘縮を伴う尖足例では矯正ギプスが有用であった。痙性尖足歩行例に対するBTは, 症例に合わせて後療法を併用していくことが有用と考える。

文献

- 1) Boyd RN, Pliatsios V, Starr R et al: Biomechanical transformation of the gastrocnemius muscle with botulinum toxin A in children with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* 42(1) : 32-41, 2000.
- 2) Desloovere K, Molenaers G, Jonkers I et al: A randomized study combined botulinum toxin type A and casting in the ambulant child with cerebral palsy using objective outcome measure. *Eur J Neuro* 8(Suppl5) : 75-87, 2001.
- 3) Desloovere K, Molenaers G, De Cat J et al: Motor function following multilevel botulinum toxin type A treatment in children with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* 49(1) : 56-61, 2007.
- 4) Hayek S, Gershon A, Wientroub Z et al: The effect of injection of botulinum toxin type A combined with casting on the equinus gait of children with cerebral palsy. *J Bone Joint Surg* 92-B : 1152-1159, 2010.
- 5) 落合達宏: 各種疾患に対するボツリヌス治療 小児脳性麻痺(下肢痙縮). *MB Med Reha* 144 : 41-47, 2012.
- 6) 落合達宏: 麻痺性下肢変形に対するボツリヌストキシン療法. *別冊整形外科* 64 : 74-80, 2013.
- 7) Reddihough DS, King JA, Coleman GJ et al: Function outcome of botulinum toxin A injections to the lower limbs in cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* 44(12) : 820-827, 2002.
- 8) Yap R, Majnemer A, Benaroch Th et al: Determinants of responsiveness to botulinum toxin, casting, and bracing in the treatment of spastic equinus in the children with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* 52(2) : 186-193, 2010.

Abstract

Short-Term Results after Botulinum Toxin Type A for Spastic Equinus Foot

Chika Mizuno, M. D., et al.

Department of Orthopedic Surgery, Takuto Rehabilitation Center for Children

We review the short-term results with botulinum toxin(BT)type A for spastic equinus gait in 160 legs involving 73 patients younger than 15 years. A number of cases of injection were 112. We compared the pretreatment data against the efficiency peak data after BT injection. BT was injected into the triceps surae(TS)in 120 legs, into the TS and tibialis posterior(TP)in 34 legs, into the TS and peroneal muscle(Per)in 5 legs, and into TS, TP and Per in 1 leg. The mean number of muscles per leg injected was 8.5. The mean BT dosage was 83.5 units. Aftercare was given to 144 legs. The BT injections resulted in a reduction in the score on the Modified Ashworth Scale and a reduction in the score on the Foot Contact Scale. The BT injections resulted in limited improvement of only 10° in the angle of equinus gait. These findings indicate that BT was effective, and that BT was more effective when administered together with casting. Although all these patients were each younger than 15 years of age, there were some cases of contracture, suggesting that aftercare are useful.

先天性内反足における Ponseti 法の短期治療成績 —再発予測因子の検討—

平 良 勝 章¹⁾・根 本 菜 穂¹⁾・及 川 昇¹⁾
山 口 太 平²⁾・長 尾 聡 哉²⁾・徳 橋 泰 明²⁾

1) 埼玉県立小児医療センター

2) 日大整形

要 旨 【はじめに】Ponseti 法を施行し 3 歳以上に達した症例について、治療成績と予後予測因子を検討した。【対象と方法】基礎疾患や合併奇形を有する疾患は除外した 31 例 46 足。最終観察時の平均年齢は 3 歳 8 か月であった。【検討項目】成績不良例は追加手術に至った症例、最終 Dimeglio score severe 以上、最終経過観察時の側面脛踵角 $Ti-C > 70^\circ$ のいずれかを満たしたものと定義した。【結果】成績良好群は 36 足 (78.3%)、追加手術は 3 足に施行した。最終 Dimeglio 評価は Benign 31 足、Modelate 14 足、Severe 1 足であった。最終経過観察時 AP-TC 32.2° 、T-MT -8.7° 、Lat-TC 34.3° 、 $Ti-C 60.6^\circ$ であった。良好群と不良群を検討すると、アキレス腱切り直前と生後 9 か月時の $Ti-C$ で統計学的有意差を認めた。【考察】今回の結果より Ponseti 法の短期成績は良好である。しかし、腱切り直前、生後 9 か月時の $Ti-C$ が大きい症例はその後再発のリスクが高い可能性がある。過去の報告でも、経過観察期間が長いと手術回避率は低い。今後、さらなる長期にわたる観察が必要である。

はじめに

近年では先天性内反足に対し Ponseti 法が広く行われ、その初期治療成績は非常に良好であるが、経過が長期化するにつれ再発する症例が見られる。

目 的

Ponseti 法を施行し、3 歳以上に達した症例についてその治療成績を検討し、再発予測因子を抽出することである。

対 象

2008 年 4 月以降当院では、Ponseti 法を導入し

ている。先天性内反足 101 例 162 足のうち基礎疾患を有するものは除き、3 歳以上に達した 31 例 46 足対象とした。他院で初期治療された症例も、再度 Ponseti 法を用いて治療した。男児 20 例 29 足、女児 11 例 17 足で右側 8 例・左側 8 例・両側 15 例であった。最終経過観察年齢平均 3 歳 8 か月 (3 歳 0 か月～4 歳 11 か月)、follow-up rate は 95.8% であった。

当院の治療体系

生後 7 か月までに初診した症例は、全例 Ponseti 法を施行している。外来での週 1 回のギプス矯正を開始する。経皮的アキレス腱切腱術 (Percutaneous Achilles Tenotomy : 以下、PAT) (局所

Key words : congenital clubfoot (先天性内反足), Ponseti method (Ponseti 法), short-term results (短期治療成績)

連絡先 : 〒 339-8551 埼玉県さいたま市岩槻区馬込 2100 埼玉県立小児医療センター 整形外科 平良勝章
電話 (048) 758-1811

受付日 : 2014 年 4 月 3 日

麻酔下で施行)の適応は背屈 15° 以下, もしくは Pirani score の後足部 score で 1 点を超える症例とした. その後は足部外転装具を装着し歩行開始までは 2 か月に 1 度の頻度で外来通院としている. 生後約 9 か月時の単純 X 線像側面脛踵角 80° を超える症例は, 再度 PAT 施行(再ギプス施行せず)もしくは軟部組織離離術へ移行している. 足部外転装具の装着は 3~4 歳まで継続するよう指導している.

検討項目

追加手術の回避率(初回 PAT を除く)と追加手術の術式, 受診までの期間, ギプス矯正回数, 初診時 Pirani 重症度 score(以下, 初診時 Pirani score), 最終経過観察時 Dimeglio score(以下, 最終 Dimeglio score), 単純 X 線像評価とした. X 線学的評価は最終経過観察時の正面距踵角 Antero-Posterior Talo-Calcanal angle(AP-TC), 距骨第 1 中足骨角 Talo-Metatarsal angle(T-MT), 側面距踵角 Lateral Talo-Calcanal angle(Lat-TC), 側面脛踵角 Lateral Tibia-Calcanal angle(Ti-C)を計測した. また, Ti-C については PAT 直前, PAT 後 3, 9, 18 か月の推移も評価した. 成績不良群は追加手術を要した症例, 最終 Dimeglio score で severe 以上, 最終経過観察時 Ti-C70° 以上のいずれかを満たすものと定義し, 良好群と比較検討した. 統計は Fisher exact test, Mann-Whitney U test を用い, $P<0.05$ を有意差ありとした.

結 果

本研究の PAT の割合は 42 足(91.3%), 成績良好群 36 足(78.3%), 不良群 10 足(21.7%)であった. 不良群の内訳は, 追加手術 3 足, 最終 Dimeglio score が severe になった 1 足(10 点), 最終 Ti-C70° 以上(71~89°)の 6 足であった. 手術回避率は 93.5%である. 追加術式は全麻下再度 PAT 施行(術前ギプス矯正なし)2 足, 後内側離離術 1 足であり, 離離術を施行した 1 例は他院でギプス矯正され, 生後 210 日で当院初診した症例

図 1. 初診時 Pirani 重症度 score と予後
初診時重症度の予後への影響は少ない

	中足部 score(MS) N.S.	後足部 score(HS) N.S.	total score N.S.
良好群 (n = 36)	Ave. 2.76 (1.5~3)	Ave. 2.8 (1~3)	Ave. 5.57 (3.5~6)
不良群 (n = 10)	Ave. 2.65 (1~3)	Ave. 2.9 (2.5~3)	Ave. 5.55 (3.5~6)

図 2. 最終観察時 単純 X 線像評価
Lat-TC, Ti-C で 2 群間に有意差を認めた.

	全体	良好群	不良群	* Mann-Whitney U test
正面距踵角 (AP-TC)	32.2°	32.9°	29.5°	N.S
正面距骨 第 1 中足骨角 (T-MT)	-8.7°	-8.2°	-10.3°	N.S
側面距踵角 (Lat-TC)	34.3°	37°	24.5°	* $P<0.05$
脛踵角(Ti-C)	60.6°	55.5°	78.7°	* $P<0.01$

であった. 再度 PAT 施行 2 足は術後改善なく最終 Ti-C72°, 87° となった. また, 最終 Dimeglio score が severe の 1 足は, 最終 Tic も 87° と成績不良であった. 受診までの期間は, 平均 30 日, 良好群 29 日(1~84), 不良群 34 日(1~210), ギプス矯正回数は平均 5.4 回, 良好群 5.3 回(3~9), 不良群 5.4 回(4~6)で, とともに 2 群間に有意差はなかった. 初診時 Pirani score を示す(図 1). 平均 5.6 点で, 中足部, 後足部, total score とともに 2 群間に有意差はなかった. 最終 Dimeglio score は, 平均 3.8 点(1~10)で, Benign 31 足, Moderate 14 足, Severe 1 足で Very severe はなかった. 単純 X 線像評価を示す(図 2). Lat-TC, Ti-C で良好群は平均 37°, 55.5° と不良群の平均 24.5°, 78.7° に比べ優れており, 有意差を認めた. AP-TC, T-MT では有意な差を認めなかった. Ti-C の推移は, PAT 直前平均 83° が, PAT 後 3 か月時平均 54° に改善するが, その後の歩行獲得後に大きな変化は見られなかった. また, PAT 直前, 生後 9 か月の Ti-C は良好群 81.1°, 50.3°,

図3. PAT による Ti-C の改善

PAT 直前, 生後9か月ともに2群間に有意差を認めた. PAT による改善は約30°程度であり, 限界がある.

Ti-c(°) PAT 直前	Ti-c(°) 生後9か月
良好群 Ave.81.1° 不良群 Ave.100° *P<0.01	良好群 Ave.50.3° 不良群 Ave.68.1° *P<0.01
*Mann-Whitney U test	*Mann-Whitney U test

不良群 100°, 68.1°であり2群間に有意差を認めた(図3).

考 察

近年 Ponseti 法⁵⁾⁶⁾が見直されており, 当センターの山口⁸⁾が行った生後9か月時の手術回避率は97.2%であったが, 今回の3歳以上での回避率は93.5%と低下している. 衣笠ら²⁾も Ponseti 法の5年以上経過した症例について報告し, 経過観察が長くなると追加手術の割合が増加してきていると述べている. 今回の不良群10足(21.7%)をすべて追加手術したと仮定すると, 回避率は78.3%であり, 北野ら³⁾の76%(最終経過観察3歳2か月時の報告)と同等の成績である. しかし, 当センターの従来法の回避率が45.8%⁸⁾であったことや最終 Dimeglio score は平均3.8点であったことより, やはり Ponseti 法は優れた方法と考えている.

今回の結果からは, 初診時に Pirani score が不良であっても, ギプス矯正への反応が良ければ速やかに改善された. 成績予測因子としては, PAT 直前と生後9か月時の Tic が影響していた. Noh⁴⁾の報告でも, PAT 前の pirani score, Lat-TC, Ti-C が予後に影響すると述べている. 今回の結果からも, 前足部の改善が得られた段階で尖足の程度が強いと, PAT による改善にも限界がある. PAT による Tic の改善は約30°であり, PAT 直前の Tic が100°を超える重症例は, その後も注意を要する. また, 生後9か月時に Tic が70°を超えていた7症例は, 歩行獲得後に改善した症例は1例のみであり, 生後9か月の段階で, 追加治療が必要なことが予想される. その追加治

療として, 再度 PAT のみを施行した2例は, 最終観察時でも成績不良となった. 今後は, Verma A⁷⁾も述べているように, 再ギプス矯正を含めた Ponseti 法を再施行すべきと考えている. Cooper¹⁾の長期成績では手術回避率が47%であり, 今後追跡調査が必要である.

結 語

1) Ponseti 法を施行し3歳以上に達した31例46足を検討した.

2) 追加手術回避率93.5%, 成績良好群78.3%であった.

3) PAT 直前, 生後9か月時の Ti-C が大きい症例は, その後も再発のリスクが高い可能性がある.

4) 長期的に慎重な経過観察が必要である.

文献

- 1) Cooper DM, Dietz FR: Treatment of Idiopathic Clubfoot. A thirty-year follow-up note. J Bone Joint Surg 77-A : 1477-1489, 1995.
- 2) 衣笠真紀, 薩摩真一, 小林大介ほか: 先天性内反足に対する Ponseti 法の治療成績—5年以上経過した症例—について. 日小整会 20(2) : 349-352, 2011.
- 3) 北野元裕, 川端秀彦, 松井好人ほか: 先天性内反足に対する Ponseti 法による治療の短期成績. 日小整会誌 13 : 77-80, 2004.
- 4) Noh H, Park SS et al : Predictive factors for residual equinovarus deformity following Ponseti treatment and percutaneous Achilles tenotomy for idiopathic clubfoot. Act Orthopaedica 84(2) : 213-217, 2013.
- 5) Ponseti IV: Treatment of congenital club foot. J Bone Joint Surg 74-A : 448-454, 1992.
- 6) Ponseti IV: Clubfoot Management. J Pediatr Orthop 20 : 699-700, 2000.
- 7) Verma A, Mehtani A, Sural S et al : Management of idiopathic clubfoot in toddlers by Ponseti method. J Pediatric Orthopaedics B 21(1), 79-84, 2012.
- 8) 山口太平, 平良勝章, 根本菜穂ほか: 先天性内反足における従来法と Ponseti 法の初期治療成績の検討. 日小整会 20(2) : 339-342, 2011.

Abstract

Review of the Short-Term Results after Ponseti Treatment for Congenital Clubfoot

Katsuaki Taira, M. D., et al.

Saitama Children's Medical Center

We report the short-term results using the Ponseti method for 46 cases of idiopathic clubfoot, involving 31 patients. The mean follow-up duration was 3 years, and their mean age at most recent follow-up was 3 years 10 months. We investigated the rate of avoidance of surgery, the Dimeglio score, the antero-posterior talo-calcaneal angle, the talo-metatarsal angle, the lateral talo-calcaneal angle, and the lateral tibia-calcaneal angle. Overall a good result was seen in 36 cases (78%), and the rate of avoidance of surgery was 93.5%. In those receiving percutaneous tenotomy at 9 months of age, recurrence occurred in those with significantly higher lateral talo-calcaneal angle. These findings indicate that Ponseti method is the primary treatment for congenital clubfoot, and was effective for delaying the need for corrective surgery.

愁訴のない手指にも MRI 輝度変化のあった足趾発症 microgeodic disease の一例

自治医科大学とちぎ子ども医療センター 整形外科

萩原佳代・渡邊英明・吉川一郎

要 旨 基礎疾患のない 11 歳男児の両足趾と愁訴のない手指に発症した, microgeodic disease の 1 例を経験した. 単純 X 線で左第 4 趾基節骨に, 虫食い状の欠損と硬化像が見られた. MRI で同部位軟部組織の腫脹と脂肪抑制画像(STIR)で高信号, 骨髓内にも同様の変化が見られた. 手指は外観, 単純 X 線とも異常はなかったが, MRI で多指にわたり同様の変化が見られた. 凍傷様の皮膚変化, 単純 X 線の所見および MRI での炎症性変化により, 足趾に発症した microgeodic disease と診断した. 治療は, 経過観察のみで自然寛解した. 本疾患は, 手指, 足趾に発症する原因不明の疾患で, 90% 以上は手指に発症する. 足趾発症はまれであり, 手足同時発生の報告例はあるが, 本症例のように愁訴のない手指にも罹患した足趾と同様の MRI 輝度変化を指摘した報告は初めてである. 本疾患は限局した病態ではなく, 全身性の疾患である可能性が示唆された.

はじめに

Microgeodic disease は手指, 足趾に発症する原因不明の疾患で, 1970 年 Maroteaux ら⁴⁾が初めて報告して以来, 特に本邦での報告例が多く見られている. 90% 以上は手指に発症することが知られているが, 足趾報告例は少ない. 当院ではこれまでに足趾発症の microgeodic disease を 4 例経験しているが, その中で, 愁訴のない手指にも罹患した足趾と同様の MRI 輝度変化を呈した症例を経験したので報告する.

症例呈示

症 例 : 11 歳, 男児

主 訴 : 左第 4 趾の発赤腫脹, 疼痛. 右第 3・4 趾の発赤腫脹.

現病歴 : 某年 12 月, サッカーの試合中に左足趾を痛めて近医を受診. 外傷による打撲傷と診断



図 1. 初診時の両足趾と両手指
左第 4 足趾および右第 3・4 足趾に凍傷様の発赤と腫脹が見られた.

された. 疼痛は徐々に軽快してきたが, 左第 4 趾の発赤腫脹, 疼痛の増悪および右第 3・4 趾の発赤腫脹が生じてきたため, 受傷 1 か月後に当院へ紹介受診となった.

既往歴および家族歴 : 特記事項なし.

身体所見 : 左第 4 趾基節部の発赤, 腫脹があり, 疼痛を伴っていた. 右第 3・4 趾基節部は発赤と腫脹は見られたが, 自発痛はなかった(図 1).

Key words : microgeodic disease(microgeodic disease), MRI(MRI), toe(足趾)

連絡先 : 〒 329-0498 栃木県下野市薬師寺 3311-1 自治医科大学とちぎ子ども医療センター 整形外科 萩原佳代
電話 (0285) 58-7374

受付日 : 2014 年 7 月 8 日



図2. 初診時の単純 X 線像

両足趾および左第4趾基節骨の拡大

左第4趾基節骨に虫食い状の骨欠損と硬化像の混在が見られた。右足趾には変化がなかった。



検査所見：WBC 5,600/ μ l, CRP 0.02 mg/dl, 血沈 4 mm と炎症反応は見られなかった。その他、特記すべき事項はなかった。

画像所見：単純 X 線像では、左第4趾基節骨に、虫食い状の骨欠損と骨硬化像を認めた。その他の足趾および手指に変化は見られなかった(図2, 3)。MRI では、左第4趾基節骨に T1 強調像で骨髄内が低-等信号を示した。同部位の脂肪抑制画像(STIR)では、骨髄は高信号、周囲軟部組織は腫脹し高信号を呈していた。MRI の異常信号は、左第4趾だけではなく、左第1~3趾基節骨、右第1~4趾の基節、中節骨にも骨髄内や軟部組織に同様の変化が見られた(図4)。また、左示指、中指、環指および右中指、環指の中節骨、基節骨にも同様の骨髄内変化が見られた(図5)。

経過：基礎疾患はなく、各種所見、発症時期、年齢などから microgeodic disease と診断し、投薬などは行わず、スポーツの休止を指示して経過観察を行った。初診2か月後で腫脹、圧痛は軽減し、自発痛が消失した。単純 X 線像では左第4



図3. 初診時の単純 X 線像 両手指
手指骨の変化はなかった。

趾基節骨の骨硬化が進み(図6)、修復傾向が見られた。その頃より段階的なスポーツ復帰を許可し、自然軽快した。その後再発の訴えはない。

考 察

1970 年、Maroteaux ら⁴⁾が、手指の腫脹と特徴的な X 線所見を呈した乳幼児の5症例を microgeodic disease と名付けて報告したのが初めてである。以降、特に手指発症例が多く報告されているが、足趾発症は比較的まれである。



図4. 初診時のMRI 両足趾
左第4趾の軟部組織と骨髄内にSTIRで高輝度、T1強調像で低輝度の変化が見られた。左第3趾、右第1～4趾にも骨髄内に同様の輝度変化が生じていた。

本疾患の好発年齢は生後2か月～15歳であり、特に寒冷時期に発症するケースが多い。原因としては、循環障害説、ウイルス感染、アレルギー反応、外傷説などの報告はあるが、いまだに明確なものはない。本症例に関しては寒冷期発症であり、かつ打撲がきっかけになった可能性がある。

診断は、局所所見、血液検査、画像所見などを総合的に行う必要がある。特にX線所見は特徴的であり、小円形の骨吸収像および骨皮質の辺縁蚕食像が見られる。また、鑑別疾患として、骨髓炎や結核、サルコイドーシス、Ewing肉腫などが考えられるため、近年MRI所見が有用であるとされ、1999年、Fujitaら¹⁾によって最初に報告されて以来、散見されている³⁾⁶⁾⁹⁾。2010年、Onishiら⁵⁾が足趾発症のMRI所見を報告しているが、いずれの報告も共通して、愁訴のある指趾以

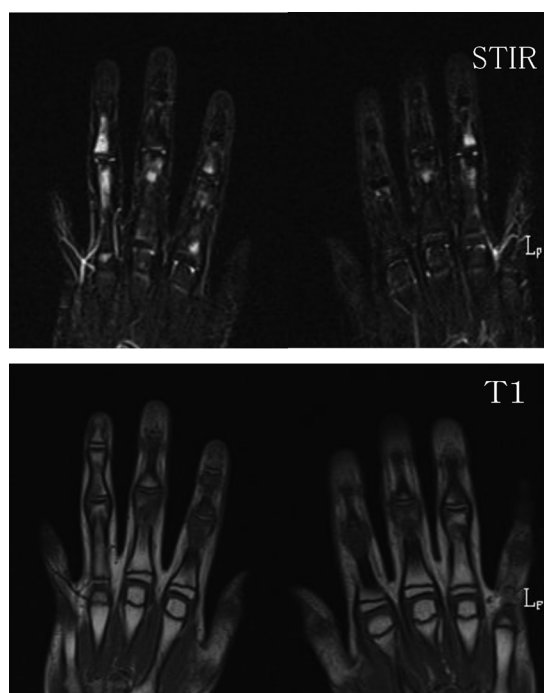


図5. 初診時のMRI画像 両手指
左示指、中指、環指および右中指、環指に、足趾と同様の骨髄内変化が見られた。

外にも、び漫性に周辺骨の骨髄内に病変が及んでいることが述べられている。本症例ではさらに、疼痛のあった足趾およびその周辺の足趾骨髄内の変化だけではなく、対側の足趾にも病変の広がりを確認することができた。また、今回我々は、手指、足趾同時発症の報告例⁷⁾を踏まえて、自験例に対してインフォームドコンセントを行い、手指のMRIも同時に撮影した。それにより、まったく愁訴のなかった手指の骨髄内にも同様のMRI輝度変化の広がりを確認することができた。この結果は、本疾患が局所的な病変ではなく、不顕性ではあるが、全身の手指、足趾にも同時期に複数生じ得る、全身性疾患である可能性を示唆するものと考えている。

本疾患の予後は良好であり、通常は6か月以内に自然治癒する。今回の症例は、全身状態が良好であること、炎症反応がないこと、寒冷期に発症したこと、症状の自然軽快とともにX線画像が改善したこと、MRI所見などから、総合的に本疾患であると考えた。



図 6. 初診から 2 か月後の単純 X 線像 左足趾と左第 4 基節骨の拡大
骨硬化が進み、骨修復が行われている。

合併症として変形や病的骨折、再発²⁾⁸⁾などの報告が見られるため、長期にわたった経過観察が必要と考える。

まとめ

愁訴のない手指にも罹患した足趾と同様の MRI 輝度変化を呈した、足趾発症の microgeodic disease の一例を経験したので報告した。

文献

- 1) Fujita A, Sugimoto H, Kikkawa I et al: Phalangeal microgeodic syndrome: findings on MR imaging. *AJR* **173**: 711-712, 1999.
- 2) 彦坂一雄, 小山明, 矢部裕ほか: 病的骨折を生じた Microgeodic disease の 6 例. *日手会誌* **2**: 404-407, 1985.
- 3) Lee RK, Griffith JF, Read JW et al: Phalangeal microgeodic disease: report of two cases and review of imaging. *Skeletal Radiol* **42**(3): 451-455, 2013.
- 4) Maroteaux P: Cinq observations d'une affection microgeodique des phalanges du nourrisson d'étiologie inconnue. *Ann Radiol (Paris)* **13**: 229-236, 1970.
- 5) Onishi Y, Hirota T, Kawaguchi Y et al: Magnetic resonance imaging findings of microgeodic disease of the toe: a case report. *Foot Ankle Int* **31**: 251-3, 2010.
- 6) Ruksal Saleh M, Nitta Y, Ikuta Y: Phalangeal microgeodic disease in childhood a case report using MRI as a supplementary way to assess the lesion extent. *J. Jpn. Soc. Surg. Hand* **15-6**: 803-808, 1999.
- 7) 富田佳孝, 久保仁志, 阿部修治: 手指及び足趾に多発した microgeodic disease の 1 例. *関節外科* **15**(10): 1319-1322, 1996.
- 8) 辻 秀記, 村瀬俊策, 川瀬 光: Microgeodic disease swan neck deformity 例を含む) の 8 例. *整形外科* **38**: 1179-1182, 1988.
- 9) Yamamoto T, Kurosaki M, Mizuno K et al: Phalangeal microgeodic syndrome: MR appearance. *Skeletal Radiol* **30**: 170-172, 2001.

Abstract

Microgeodic Disease in the Toe, in combination with MRI Luminance in the Fingers without Complaint

Kayo Hagiwara, M. D., et al.
Jichi Children's Medical Center Tochigi

We report a rare case of microgeodic disease in the toe in combination with MRI luminance in the fingers, involving an 11-year-old boy presenting no underlying disease. On examination, plain radiographs showed bone defects with moth-eaten appearance and sclerosis in the proximal phalanx of the 4th toe. The toe showed swelling with high intensity on STIR of the soft tissues on MRI. Similar changes were noted in the bone marrow. No clinical sign or symptom was seen in the fingers, and radiographs showed no abnormal findings; however, MRI showed similar abnormal findings in many of the fingers. Based on the frostbite-like skin changes, the findings on radiographs, and the inflammatory changes on MRI, the patient was diagnosed as having microgeodic disease of the toe. During close follow-up without treatment, the disease spontaneously went into remission. Microgeodic disease is a disease of unknown cause developing in the finger and/or toe, and involving the fingers in more than 90% of cases. Some cases simultaneously develop in both the toe and finger. Development in the toe alone is rare. This is the first report, to our knowledge, of a case with MRI findings similar in both the toe and fingers without any presenting complaint in the fingers. These findings suggest that microgeodic disease may be systemic rather than localised.

浜松市乳児股関節健診の現状と検討

浜松医科大学 整形外科

古橋 弘基・星野 裕信・松山 幸弘

要 旨 浜松市の4か月健診は、小児科・産婦人科を中心とした健診機関で行っている。健診の現状調査を健診機関と市役所に対して行い、浜松市における健診の問題点を検討した。浜松市の健診受診率は、97.8%と高率であった。開排制限の指摘率は4.2%だったが、精査を指示された率は2.1%であり、開排制限陽性の半数が精査の指示を受けてはいなかった。また、問診を行っている施設は半数のみであり、当院受診の精査理由の大半(87.4%)は開排制限であり、問診による紹介はなかった。他の報告と比較すると、浜松市の精査率は2.1%と低く、健診の改善が必要であると思われる。健診を改善する点として、開排制限のみでは診断には不十分であるため問診を追加すること、また、開排制限は病的意義の判断が難しいため、全例紹介を行うことが考えられた。

背 景

先天性股関節脱臼(Developmental Dislocation of the Hip : 以下, DDH)は、治療開始が遅れると初期治療のみで治療が完結することが難しくなり、治療に難渋する。治療を円滑に進めるために、健診による早期発見が重要である。しかし、近年診断遅延例の増加が報告されている。当科でも2001~2012年に10例の診断遅延例を経験し、2013年にさらに3例の診断遅延例を経験した。健診体制の改善が必要と考えた。

方 法

浜松市の4か月健診は小児科・産婦人科を中心とした健診委託機関119施設で行われている。異常所見を認めた例は、精密検査(精査)機関11施設へと紹介される(図1)。精密検査機関では、単純X線または超音波検査を用いて精査が行われる。精査の方法は、精査機関によってさまざまである。当院では、超音波検査と単純X線を併用し精査している。

浜松市4ヶ月検診

検診委託機関 119施設
(小児科・産婦人科)



精密検査機関 11施設
(整形外科)



図1. 浜松市の検診体制

市役所、健診委託機関、精査機関に対して健診状況を調査し、問題点について検討した。浜松市役所健康増進課に対して、健診状況と健診対象者数、受診数、精査率などの調査を行った。次に、健診委託機関119施設に対して、健診受診数・精査率の調査と健診における診察・問診内容についてアンケートを行った。最後に精査機関である当院における精査数と精査理由を調査した。

Key words : developmental dysplasia of the hip(先天性股関節脱臼), screening(健診)

連絡先 : 〒431-3192 静岡県浜松市東区半田山1-20-1 浜松医科大学 整形外科 古橋弘基 電話(053)435-2299

受付日 : 2014年3月27日

図2. 浜松市の4か月児健康診査表

結果

浜松市では、健診機関では健診結果は健康診査票に記入され、異常が見つかった患児には精査が指示されることになっていた。股関節に関して健康診査票に記入する項目は、開排制限のみであった(図2)。精査機関を受診するには、精査受診票を市役所から受け取り精査機関を受診することになっていた。

市役所に対する調査の結果、浜松市における4か月健診対象数は平均7346人/年であった。健診受診数は平均7185人/年であり、受診率は97.8%と高率だった。開排制限の指摘率は4.2%だったが、精査を指示された率は2.1%のみで、開排制限陽性の半数は精査の指示を受けていなかった。また、精査受診票による精査率は、平均0.4%と非常に低かった(表1)。精査受診表による受診が少なかったのは、精査受診票を使用せず精査機関を受診する例や市が定めた精査機関以外の医療機関で精査受診票を使用せず受診している例が多いためだった。

取 部	1 脚ヘルニア	2 肝脾腫 (高度)	3 腫瘍
外 陰 部	1 尿道ヘルニア	2 陰嚢水腫	3 外陰腫瘍
股 関 節	1 開排制限		
股 骨	1 形態異常		
皮 膚	1 胎毒	2 血管腫	3 母斑 4 その他

4か月児健康診査表は 開排制限のみ

表1. 浜松市の健診および精査の状況

	健診 対象者数	4か月健診 受診数	開排制限 患児数	精査 指示率	精査受診票 による精査率
平成22年	7383人	7236人 (98.0%)	329人 (4.5%)	—	17人 (0.2%)
平成23年	7350人	7113人 (96.8%)	279人 (3.9%)	—	27人 (0.37%)
平成24年	7304人	7206人 (98.7%)	295人 (4.1%)	151人 (2.1%)	45人 (0.6%)
平均	7346人	7185人 (97.8%)	301人 (4.2%)	151人 (2.1%)	30人 (0.4%)

健診委託機関に対するアンケートは郵送で行い、119施設中38施設より回答が得られた。3施設の健診委託機関では健診を行っておらず、診察・問診内容について回答がなかった。アンケートに回答が得られた健診委託機関における健診数は、2705例で浜松市における全健診対象数7206例の37.5%だった。健診委託機関における診察・問診内容については、健診を行っている全施設で開排制限は行われていたが、その他の所見(大腿皺の左右差、脚長差、クリック)は診ていない施設もあった。問診を行っている施設は約半数のみだった。本研究参加機関における精査指示率は3.9%であり、浜松市における精査指示率2.1%と

表 2. 健診機関における診察項目

診察項目	施設数
開排制限	35/38施設
脚長差	28/38施設
大腿皺の左右差	26/38施設
クリック	22/38施設

表 3. 健診機関における問診項目

問診項目	施設数
家族歴	21/38施設
分娩時胎位	19/38施設
向き癖	10/38施設

差があった(表 2, 3)。

当院への精査受診数は平均 39.7 件であり、浜松市の精査の 27%にあっていた。精査理由の大半(87.4%)は開排制限であり、問診による精査はなかった(表 4)。

考 察

1950 年以降の予防活動の普及により、DDH の発生率は著しく低下しており、日常診療で見かけることは少なくなっているが、近年、診断遅延例の増加が問題となっている。診断遅延を防ぐためには検診体制の見直しが必要である。

浜松市では、精査を受ける際に精査受診票の使用が勧められているが、股関節異常による精査受診票による精査率は 0.4%と非常に低い。本研究で、精査受診票での受診率と全健診機関の精査率に差がみられた。精査受診票は、健診委託機関ではなく市役所から受け取る必要があり、受診まで時間がかかることから積極的に使用されておらず、浜松市では精査数の正確な把握ができていなかった。健診体制の充実を図るには健診および精査数の把握は重要であり、健診から精査へのシステムを統一することが重要と考えられる。

本研究に参加した健診機関における精査率(3.9%)と浜松市の全健診機関における精査率

表 4. 当院における精査受診数・精査理由

	当院 受診数	精査理由		
		開排 制限	大腿皺 左右差	脚長差
平成22年	39件	30件	8件	1件
平成23年	36件	32件	4件	-
平成24年	44件	42件	1件	1件
平均	39.7件	34.7件 (87.4%)	4.3件 (10.9%)	0.7件 (1.7%)

(2.1%)に差がみられた。本研究に参加した健診機関は、DDH に対する関心や危機感がある施設と思われ、DDH に対する意識の差が精査率にみられたと思われた。品田ら⁴⁾は、選択的撮影方式(松戸式)を行っている松戸市の健診について報告しており、松戸市の精査率は 2005 年に 11%であったとしている。森田ら³⁾は、健診に松戸式を採用している千葉市について報告し、精査率は 12~14%と報告している。本研究での精査率は、松戸式を使用している地域の精査率と比較すると低く、診断遅延につながっている可能性がある。

松戸式では開排制限を指摘された全例が精査の対象となっているが、浜松市では開排制限の指摘率 4.2%に対し、精査率は全健診機関では 2.1%、本研究参加機関では 3.9%であった。開排制限が陽性であっても、紹介されていない症例があった。開排制限は脱臼と同義ではないが、病的意義の判断は難しいため、全例の紹介が望ましい。

原田ら²⁾は、DDH で治療を要した 26 例のうち開排制限がない例が 4 例(15.7%)あったと報告している。朝貝ら¹⁾は、股関節脱臼・亜脱臼 22 例でのうち 10 例に開排制限がなかったことを報告している。身体所見(開排制限)のみでは、精査の必要性の判断に不十分であることが報告されている。浜松市では、問診を行っている施設は約半数のみであり、当院における精査理由をみても大半(87.4%)は開排制限であり問診による精査はなく、問診による精査の症例が不足していると考えられる。診断遅延を防ぐためには、問診の導入を検討する必要がある。

浜松市の健診の問題点として、健診システムの確立が不十分で現状の把握ができていない点と健診を担当する小児科医・産婦人科医と小児整形外科医の間に健診に対する認識の差があり、精査率が低い点が挙げられた。

今後の改善点として、精査の紹介法などのシステムの確立と精査率の向上のため、開排制限陽性例は全例精査とすること、問診による精査追加することが必要と考えた。

結 語

浜松市の検診体制について調査し検討した。浜松市での検診は、全例の把握ができていなかった。

た。浜松市は精査率が低く、検診体制の改善が必要である。

文献

- 1) 朝貝芳美ら：長野県下諏訪町における乳児先天性股脱超音波検診の現状. 日小整会誌 14 : 40-43, 2005.
- 2) 原田理沙：乳幼児股関節検診における単純 X 線像によるスクリーニング有用性と問題点. 整形外科 62 : 1109-1111, 2011.
- 3) 森田光明ら：千葉市乳児股関節健診の現況と問題点. 日小整会誌 22 : 207, 2013.
- 4) 品田良之ら：乳児先天性股関節脱臼検診の現状と問題点—松戸市における一. 日本整形外科学会雑誌 79 : S48, 2005.

Abstract

Neonatal Routine Screening for Developmental Dysplasia of the Hip, in Hamamatsu City

Hiroki Furuhashi, M. D., et al.

Department of Orthopaedic Surgery, Hamamatsu University School of Medicine

We report the findings from routine screening for developmental dysplasia of the hip (DDH) in all neonates at 4 months old, in Hamamatsu City. A total of 97.8% of all neonates were examined and, among these, 4.2% presented limited flexion and/or limited abduction of the hip. Of note, only half of these were assigned to an orthopaedic specialist for follow-up. In all cases there was screening for hip abduction, but only half also used the required questionnaire. Among all cases of neonatal DDH referred to the orthopaedic specialists, in our university, 87.4% involved limited flexion or abduction, and none of these had completed the DDH-screening questionnaire. The referral rate of 2.1% of neonates screened is extremely low compared to nationwide statistics. These findings suggest improvements are needed in completing the DDH-screening questionnaire, and in assuring all those found with suspected DDH are referred for further examinations and follow-up by orthopaedic specialists.

基礎疾患を有する先天性内反足に対する Ponseti 法の初期治療成績

根本 菜穂¹⁾・平 良 勝 章¹⁾・及 川 昇¹⁾・長 尾 聡 哉²⁾
山 口 太 平²⁾・徳 橋 泰 明²⁾・佐 藤 雅 人³⁾

1) 埼玉県立小児医療センター 整形外科

2) 日本大学 整形外科

3) 佐藤整形外科

要 旨 基礎疾患を有する先天性内反足に対し Ponseti 法で治療を行い、1 歳時前後での初期治療成績を評価した。対象は 19 例 31 足(両側 12 例, 片側 7 例)であり、これらについて基礎疾患の内訳、初診までの期間、ギプス回数、アキレス腱皮下切腱、追加手術、1 歳時前後での X 線計測値(正面距踵角, 正面距骨第 1 中足骨角, 側面距踵角, 側面脛踵角)を調査し、基礎疾患のない特発性の症例と比較を行った。合併する基礎疾患は、脳性麻痺 9 足で最も多く、次いで多発関節拘縮症 6 足であった。初診までの平均期間 51.2 日、平均ギプス回数 5.8 回、アキレス腱皮下切腱 28 足、追加手術 7 足であり、ギプス回数と追加手術において両群間に有意差を認めた。X 線計測値は、いずれも両群間に有意差を認めなかったが、38.7% に遺残変形を認めた。基礎疾患を有する先天性内反足は、初期矯正に難渋するため、おのおのの運動能力に応じて追加手術を検討する必要がある。

はじめに

Ponseti 法を用いた先天性内反足の治療は、その有用性により標準的な治療法となっている。しかし、基礎疾患を有する、症候性内反足に対する Ponseti 法の成績については、十分に検討がなされていない。本研究では、特発性内反足の初期治療成績と比較検討を行い、基礎疾患を有する先天性内反足に対する Ponseti 法の初期治療成績について評価した。

対象と方法

対象症例は基礎疾患を有する先天性内反足(以下、N 群)19 例 31 足で、両側 12 例片側 7 例、男児 13 例 20 足、女児 6 例 11 足であった。基礎疾患の内訳は、脳性麻痺が最多で 9 足、多発関節拘

縮症 6 足、染色体異常 5 足、絞扼輪症候群、二分脊椎、精神運動発達遅延がそれぞれ 3 足で、代謝性疾患 2 足であった(表 1)。比較対象は特発性内反足(以下、I 群)48 例 70 足である。変形矯正の方法は Ponseti 法に基づいて矯正ギプスを週 1 回施行し、尖足以外の変形が十分に矯正されたのち、手術室で局所麻酔下にアキレス腱皮下切腱を施行した。皮下切腱後は 3 週間ギプス固定し、その後 foot abduction brace を装着した。これらについて初診までの期間、ギプス回数、アキレス腱皮下切腱の有無、追加手術の有無、X 線学的評価として初期治療終了時(生後 9 か月前後)の単純 X 線像での正面距踵角(A-P Talocalcaneal Angle: 以下、AP-TC)、正面距骨第 1 中足骨(以下、T-MT)、足関節最大背屈位での側面距踵角(以下、Lat-TC)、側面脛踵角(以下、Ti-C)を計測

Key words : Ponseti method (Ponseti 法), idiopathic clubfoot (先天性内反足), nonidiopathic (症候性), arthrogryposis (多発関節拘縮症)

連絡先 : 〒 339-8551 埼玉県さいたま市岩槻区馬込 2100 埼玉県立小児医療センター 整形外科 根本菜穂
電話 (048) 758-1811

受付日 : 2014 年 3 月 31 日

表 1. 基礎疾患の内訳

基礎疾患	症例数(足)
脳性麻痺	9
多発関節拘縮症	6
染色体異常*	5
絞扼輪症候群	3
二分脊椎	3
精神運動発達遅延	3
代謝性疾患**	2
合計	31

* 染色体異常

Mowat-Wilson 症候群：1 例 2 足

6q interstitial monosomy：1 例 2 足

Jacobsen 症候群：1 足

** 代謝性疾患

低フォスファターゼ血症：1 例 2 足

し検討を行った。統計には Mann-Whitney U-test または Pearson χ^2 検定を用い、P 値 0.05 未満を有意差ありとした

結 果

他院にて、Ponseti 法で治療を開始されていた 2 足(ギプス回数不明)を除いた N 群 29 足の初診までの期間は平均 39.5 日(0~284 日)で I 群は 26.6 日(0~243 日)であった。両群間に有意差は認めなかったが、N 群では出生後に何らかの処置を要する症例が多く、内反足の治療が遅れる傾向にあった(表 2)。ギプス回数は、N 群平均 5.8 回(3~8 回)、I 群 5.3 回(3~10 回)であった(表 2)。N 群において 7 回以上ギプス巻きを行ったのは、12 足(41.3%)に対し I 群ではわずか 5 足(7%)であり、N 群で有意に多かった(図 1)。アキレス腱皮下切腱は N 群で 29 足(93.5%)に施行し、皮下切腱を行ななかったのは、わずかに 2 足であった(表 2)。I 群では、67 足(95.7%)に皮下切腱を施行し、両群間に有意差を認めなかった。追加手術は、N 群では 7 足(22.5%)に施行し、手術回避率は 77.5%であった。追加手術を要した症例は、多発関節拘縮症 2 例 4 足、低フォスファターゼ血症 1 例 2 足、絞扼輪症候群 1 足であり、全例アキレス腱の皮下再切腱のみを行った。I 群では追加手術

表 2. 特発性内反足との比較

	N 群	I 群	P 値
初診までの期間*	39.5 日	26.6 日	0.1153
ギプス回数*	5.8 回	5.3 回	0.0444
アキレス腱切り**	93.5%	97.1%	0.6345
追加手術回避率**	77.5%	95.7%	0.0045

ギプス回数と追加手術回避率で有意差を認めた。

* Mann-Whitney U-test

** Pearson χ^2 検定：P 値 0.05 未満を有意差あり

は 3 足に施行し、手術回避率は 95.7%であった。追加手術の内訳は後内側解離術 1 足、アキレス腱皮下切腱単独 2 足であった(表 2)。X 線計測値は N 群：AP-TC29.3°、T-MT0.41°、Lat-TC30.0°、Ti-C61.0°、I 群：AP-TC32.2°、T-MT -9.2°、Lat-TC33.1°、Ti-C54.5°であり、すべての計測値において有意差を認めなかった(表 3)。

考 察

先天性内反足に対する Ponseti 法の初期治療成績は良好であると、さまざまな論文で述べられているが⁴⁾⁵⁾、基礎疾患を有する内反足に対する Ponseti 法の治療成績の報告はいまだ少ない。鬼頭らは²⁾、Ponseti 法で治療した特発性内反足と全身疾患や合併症を伴った先天性内反足の治療成績を比較し、初期矯正が獲得でき、その後の再発を認めなかった保存治療成功例は、特発性内反足では 91%であったのに対し、合併症を有する群では 38%のみであったと報告した。そして、Ponseti 法は、特発性内反足にはきわめて有用であるが、合併症を有するものに対しては保存治療のみでは限界があると結論づけている。一方、Janicki らは¹⁾、神経筋疾患と症候性内反足に対する Ponseti 法の治療について、特発性内反足と比較してギプス回数、初期矯正不成功例はより多く、再発率、追加手術率の割合は高かったと報告している。追加手術を必要とする再発例は、全体の 44%にみられ、28%に何らかの追加手術を施行したと述べている。自験例では、追加手術を施行した症例は 7 足(22.5%)認め、追加手術回避率が 77.5%であったのに対し、特発性内反足では

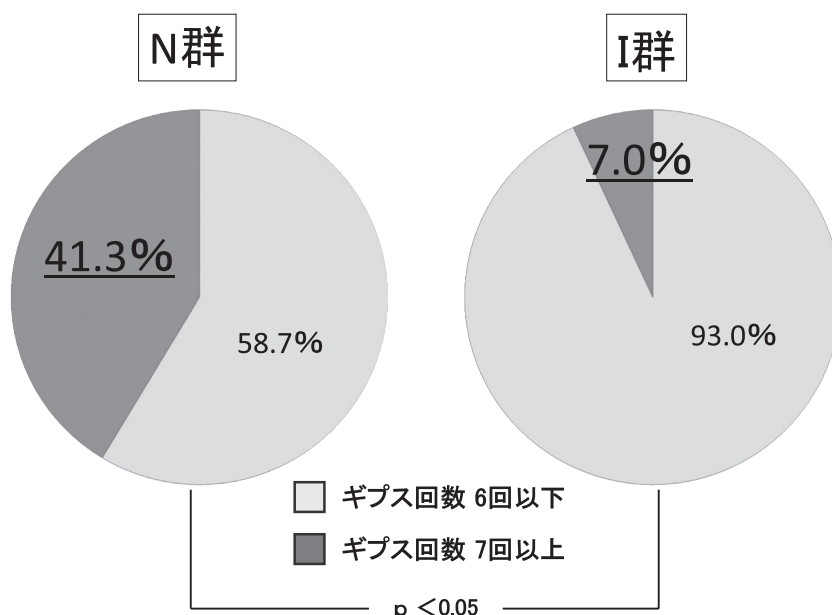


図 1. ギプス回数の比較

N 群では 7 回以上が 41.3% を占め, I 群と比較して有意にギプス回数は多かった.

Pearson χ^2 検定: P 値 0.05 未満を有意差あり

表 3. X 線計測値の比較

	N 群	I 群	P 値
AP-TC	29.3°	32.2°	0.1998
T-MT	0.41°	-9.2°	0.2251
Lat-TC	30.0°	33.1°	0.0758
Ti-C	61.0°	54.5°	0.0801

すべての計測値において有意差はなかった.

Mann-Whitney U-test: P 値 0.05 未満を有意差あり

95.7%であり, 基礎疾患を有する先天性内反足は Ponseti 法のみでは初期矯正に難渋する結果であった.

本研究においては, 初期矯正終了時 Lat-TiC70°以上であった, いわゆる遺残変形症例は 12 足 (38.7%) で, このうち多発関節拘縮症が 3 例 6 足と半数を占めた. 鬼頭らも, 骨系統疾患や染色体異常に伴う内反足は初期矯正獲得困難であり, 得られたとしても再発し, 治療抵抗性であると述べている. 自験例や過去の報告からも, 基礎疾患のなかでも多発関節拘縮症は, 治療に困難を要する疾患である. 一方で, Harold らは³⁾, 多発関節拘縮症に対してギプス巻きに先立ち, まずアキレス腱皮下切腱を行い, その後通常どおりの

Ponseti 法を足の状態に合わせて繰り返し行う, “Ponseti 法変法”を行うことで, 広範な軟部組織解離手術や距骨摘出術を回避でき, アキレス腱皮下切腱のみで装具適合性が良好な安定した荷重関節を大多数の症例で獲得できたと報告している. 自験例では追加手術は全例アキレス腱皮下再切腱単独(切腱前のギプス巻きなし)を行ったが, その後の追跡調査で再々発をきたしている症例が多く, 再発症例に対するアキレス腱皮下再切腱単独は, 有効でないと考えられた. 再発例に対しては, アキレス腱皮下再切腱前にギプス巻きを再度施行するか, 軟部組織解離手術を選択する必要がある. 対象となった 19 例 31 足はさまざまな原疾患が混在しており, 変形の原因も各疾患により異なる. 特発性内反足とその病態が異なるため, Ponseti 法のみで変形矯正を十分に得ることや, 再発を防止することは困難であるが, 自験例において 24 足 (77.5%) は追加手術を回避できており, 初期治療として Ponseti 法は有効な手段であると考えられた.

今回調査した 19 例のうち 2 歳頃までに歩行可

能となったのは、7例(36.8%)のみであった。基礎疾患を有する先天性内反足は、全身状態や将来的な運動発達を十分に考慮し、治療方法やタイミングを計る必要がある。

文献

- 1) Janicki JA, Narayanan UG, Harvey B et al: Treatment of neuromuscular and syndrome-associated(nonidiopathic)clubfeet using the Ponseti method. J Pediatr Orthop **29**(4) : 393-397, 2009.
- 2) 鬼頭浩史, 金子浩史, 馬淵晃好ほか: Ponseti 法による先天性内反足の治療成績—全身性疾患や合併奇形の有無による成績の検討—. 日小整会誌 **20**(2) : 353-356, 2011.
- 3) Van Bosse H JP, Marangoz S, Lehman W B et al: Correction of Arthrogrypotic Clubfoot With a Modified Ponseti Technique. Clin Orthop Relat Res **467** : 1283-1293, 2009.
- 4) 山口太平, 平良勝章, 根本菜穂ほか: 先天性内反足における従来法と Ponseti 法の初期治療成績の検討. 日小整会誌 **20**(2) : 339-342, 2011.
- 5) 吉野伸司, 肥後 勝, 中村雅洋: 先天性内反足に対する Ponseti 法の短期成績. 整外と災外 **58**(4) : 533-536, 2009.

Abstract

Short-Term Results of the Ponseti Method for the Treatment of Nonidiopathic Clubfoot

Naho Nemoto, M. D., et al.

Department of Orthopedic Surgery Saitama Children's Medical Center

We report the short-term results using the Ponseti method for 31 cases of nonidiopathic clubfoot, including 9 cases of cerebral palsy and 6 cases of arthrogryposis. The average time until the start of treatment was 51.2 days, and the average number of casts used per case was 5.8 times. Subcutaneous Achilles tendon release was performed in 28 cases. Further additional treatment was required in 7 cases. Compared with idiopathic clubfoot, cases of nonidiopathic clubfoot require more casts, and show a higher rate of recurrence. There was no difference in radiographic outcome between these cases of nonidiopathic clubfoot and other cases of idiopathic clubfoot. Overall at most recent follow-up, there was residual deformity in 12 cases(38.7%). Nonidiopathic clubfoot is generally considered to be resistant to treatment by Ponseti method ; however, these findings suggest that in combination with soft tissue release, that the method could be effective.

小児の肝性骨異栄養症に伴う骨折

大 矢 昭 仁¹⁾・関 敦 仁²⁾・鳥 居 暁 子²⁾
畑 亮 輔²⁾・谷 村 絵 里²⁾・福 岡 昌 利²⁾
日下部 浩²⁾・高 山 真一郎²⁾・宮 寄 治³⁾

1) 独立行政法人国立病院機構村山医療センター 整形外科

2) 国立成育医療研究センター 整形外科

3) 国立成育医療研究センター 放射線科

要 旨 【目的】肝疾患に伴う骨病変である肝性骨異栄養症は、小児においてはまだ十分に認識されていない。そこで、小児肝疾患に伴う骨折の特徴を調査した。【対象と方法】肝臓手術を受け、四肢に骨折を認めた7例(男児2例, 女児5例)を対象に、患者背景、骨折の時期、部位、発見の契機、治療法、血液検査値を調査した。また、少なくとも両側下肢単純X線を撮影し得た男児2例, 女児4例で不顕性骨折の有無を調査した。【結果】患者背景は胆道閉鎖症に対する肝移植6例, 肝芽腫に対する肝腫瘍切除1例で、手術時年齢は5か月から1歳5か月(平均10.7か月)だった。全例で手術前後1か月間に、大腿骨遠位部の骨折を認め、不動、疼痛、腫脹のほか、発熱や炎症反応などから診断に至っていた。血液検査では、多発骨折を認めた群は、血小板が低かった。【考察】小児肝疾患においても、肝性骨異栄養症に留意し、骨折予防に努めることが重要である。

はじめに

1956年にAtkinsonら¹⁾が胆汁うっ滞症患者の骨病変について報告して以降、慢性肝疾患では高頻度に骨粗鬆症が合併し、肝性骨異栄養症(hepatic osteodystrophy)として知られるようになった。しかしながら、小児において肝疾患に伴う骨折は十分に認識されているとは言い難い。今回、おもに肝臓移植後に病的骨折を発症した乳幼児症例を経験したため、その特徴について検討し報告する。

対象と方法

肝移植や肝腫瘍切除の既往があり、四肢に病的骨折を認めた患者7例(男児2例, 女児5例)を対象とし、原疾患、手術内容、骨折発覚時の年齢、

骨折発覚の契機、骨折部位、骨折の治療法、手術前の血液検査値を調査した。このうち少なくとも両側下肢の単純X線を撮影し得た男児2例, 女児4例における他部位の骨折の有無についても調査した。

結 果

患者背景としては、胆道閉鎖症が6例、肝芽腫が1例であった。胆道閉鎖症に対しては全例に生体肝移植が行われていたが、そのうち1例は脳死肝移植による再手術が行われていた。また、肝芽腫の1例に対しては肝腫瘍切除が行われていた。手術時年齢は5か月から1歳5か月(平均10.7か月)で、全例が手術前後1か月間の間に骨折が発覚しており、このときの年齢は6か月から1歳6か月(平均11.3か月)であった。骨折発見の契機

Key words : hepatic osteodystrophy(肝性骨異栄養症), children(小児), fracture(骨折)

連絡先 : 〒 208-0011 東京都武蔵村山市学園 2-37-1 村山医療センター 大矢昭仁 電話 (042) 561-1221

受付日 : 2014 年 5 月 21 日

表 1. 患者背景および骨折発覚時の状況

症例	性別	原疾患	治療(年齢)	骨折時年齢	発見の契機
1	F	胆道閉鎖症	生体肝移植(5M)	6M	下肢が腫れている, 動かさない
2	F	胆道閉鎖症	生体肝移植(8M)	7M	おむつ交換で泣く, 下肢腫脹, 感染疑う
3	F	胆道閉鎖症	生体肝移植(8M)	9M	下肢を動かさない, 痛がる
4	F	胆道閉鎖症	生体肝移植(8M) 脳死肝移植(10M)	11M	ALP 上昇, 大腿腫脹, 痛がる
5	F	胆道閉鎖症	生体肝移植(11M)	1Y0M	下肢を動かさない, 痛がる
6	M	胆道閉鎖症	生体肝移植(1Y4M)	1Y4M	上肢を動かさない, 下肢のむくみ
7	M	肝芽腫	肝腫瘍切除(1Y5M)	1Y6M	発熱, 開排制限, 感染疑う

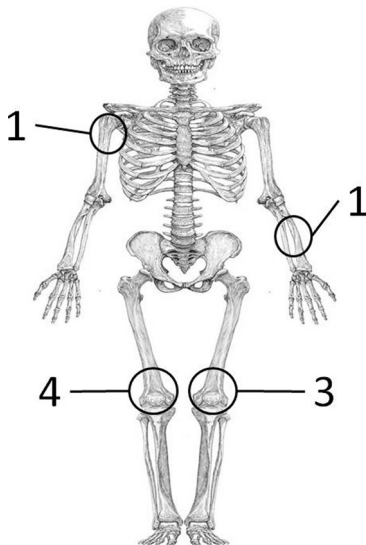


図 1. 骨折発覚時の受傷部位

全例において大腿骨遠位部の骨折を認めた. 1例は同時に上腕および前腕にも骨折を認めた.

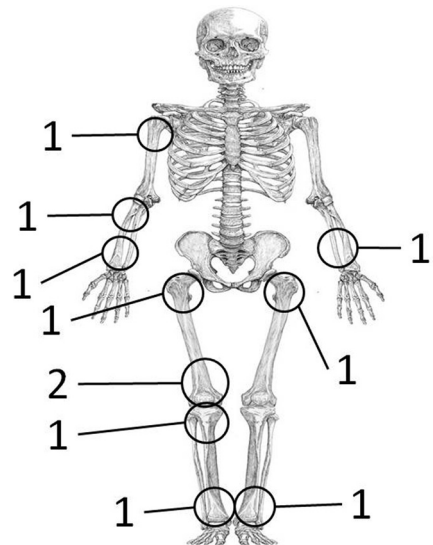


図 2. スクリーニングにより明らかになった陳旧性骨折の部位

四肢のさまざまな部位に陳旧性の骨折, 骨折の痕跡を認めた.

としては, 動かさない, おむつ交換時に下肢を痛がる, 四肢が腫れている等の異常に保護者や医療者が気づき診断に至るものが典型的であったが, 発熱, 開排制限, 血液検査での炎症反応等から小児股関節疾患や感染を疑われ, 最終的に骨折の診断に至る症例も存在した(表 1). 全例において大腿骨遠位部の骨折を認め, うち 1 例は同時に上肢の骨折も認めた(図 1). スクリーニングとして四肢の単純 X 線を施行すると, 四肢のさまざまな部位に骨折や骨折の痕跡を認めた(図 2). 年齢が低く活動性の低いもの, 受傷後ある程度期間が経過していると思われるものは, そのまま安静にて経過観察し, 比較的新鮮と思われるものは, 外固

定などの保存治療を行った. 全症例で, 確認されたすべての部位において, 骨癒合が得られていた. 肝臓手術前の血液検査では, 原疾患の影響で総ビリルビン, AST, ALT の平均は正常上限を上回っており, コリンエステラーゼ, カルシウム, 無機リンの平均は, 正常下限を下回っていた. また, 血小板が低値かつ PT-INR, APTT は高値で凝固能は低下しており, 肝予備能の低下が示唆された. 多発骨折を認めた群と認めなかった群において各検査項目で比較すると, 多発骨折を認めた群では, 血小板が有意に低値であった(表 2).

表 2. 肝臓手術前の血液検査

症例		T-Bil (mg/dl)	AST (U/l)	ALT (U/l)	ALP (U/l)	ChE (U/l)	TP (g/dl)	ALB (g/dl)	Ca (mg/dl)	P (mg/dl)	Mg (mg/dl)	血小板 (万 / μ l)	PT-INR	APTT (sec)
2	多発骨折 なし	10.84	231	144	1329	86	6.3	2.9	8.2	2.0	2.0	15.6	1.28	27.0
3		8.25	86	45	864	73	5.6	3.2	6.6	5.2	2.2	20.6	1.48	41.8
7		0.38	24	11	368	255	6.1	4.3	9.8	6.8	2.2	37.7	0.94	44.1
1	多発骨折 あり	10.65	148	41	2064	269	5.6	3.7	10.1	3.0	1.8	3.4	1.68	65.5
4		3.61	84	23	1114	150	4.8	3.2	9.1	3.4	2.0	3.3	1.20	36.6
6		13.49	260	118	1008	128	5.1	2.9	8.0	2.3	2.0	7.5	1.66	54.0
5	スクリー ニングなし	5.17	95	51	1208	190	6.6	3.4	8.0	3.0	2.0	16.9	1.28	31.0
平均		7.50	133	62	1136	164	5.7	3.4	8.5	3.7	2.0	15.0	1.36	42.9

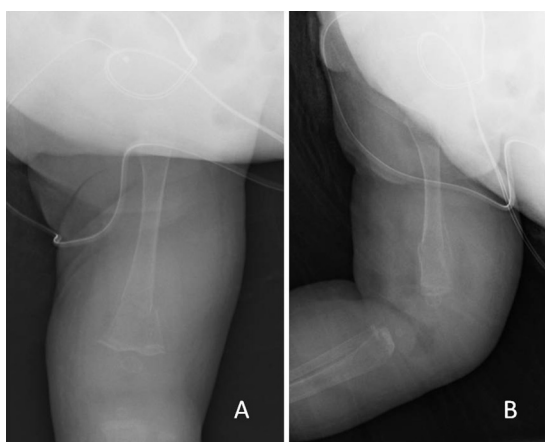


図 3. 症例 1 骨折発覚時の左大腿骨単純 X 線
A:正面像, B:側面像, 大腿骨遠位部に骨折を認めた。
すでに仮骨の形成があり, 受傷後ある程度の期間が経過していると思われる。

症例提示

症例 1: 手術時年齢 5 か月女児, 胆道閉鎖症に対し生体肝移植を施行された。術後 1 か月で左下肢が腫れていて動かさないことに気付かれた。単純 X 線検査の結果, 大腿骨遠位部に骨折を認めたため当科を受診した。スクリーニングとして四肢単純 X 線を撮影すると, 両側の前腕骨, 大腿骨, 脛骨に骨折を認めた(図 3-6)。

症例 7: 手術時年齢 1 歳 5 か月男児, 肝芽腫に対し肝腫瘍切除術を施行された。術後 1 か月で発熱, 炎症反応, 開排制限があり股関節あるいは大腿部の感染が疑われた。精査の結果, 右大腿骨遠位部の骨折と診断された。膝上までの外固定で保

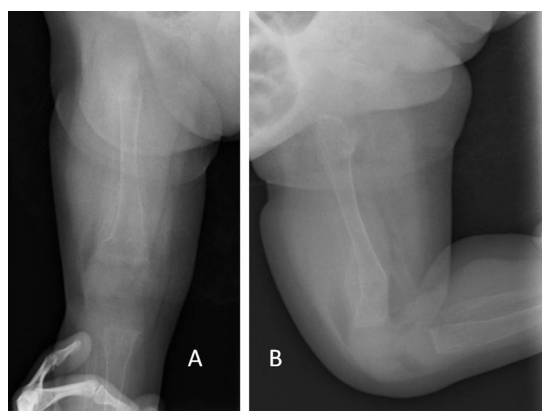


図 4. 症例 1 スクリーニングの右大腿骨単純 X 線
A:正面像, B:側面像, 大腿骨遠位部に骨折を認めた。
左と同様に仮骨の形成があり, 受傷後ある程度の期間が経過していると思われる。

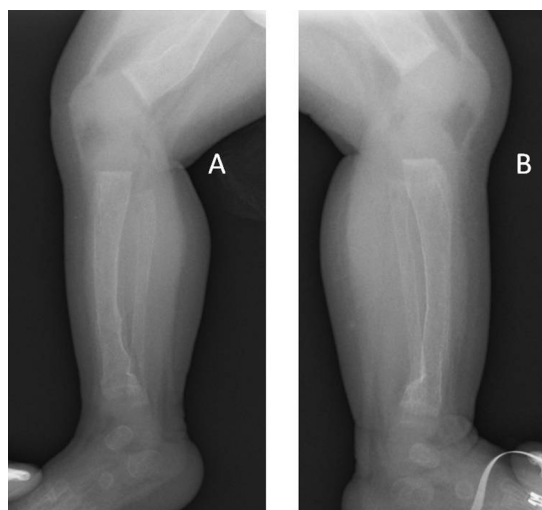


図 5. 症例 1 スクリーニングの両側下腿骨単純 X 線
側面像
A:右, B:左, 両側ともに脛骨遠位の皮質の不整を認め, 骨折と診断した。

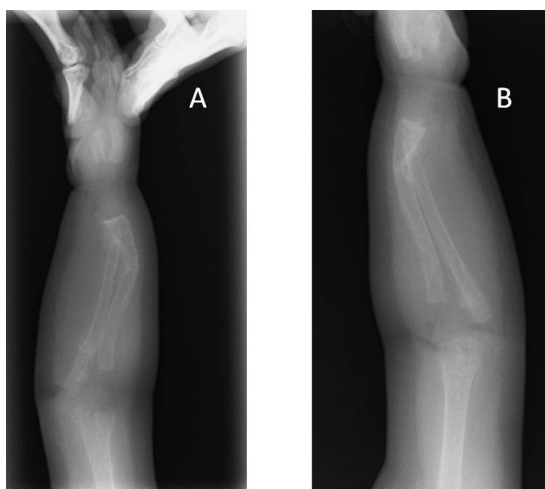


図6. 症例1 スクリーニングの両側前腕骨単純X線側面像

A: 右, B: 左, 両側ともに橈尺骨の骨折を認めた.

存在的に加療, 7か月後に骨癒合を認めた(図7).

考 察

肝性骨異常栄養症の病態について, 鈴木ら⁴⁾⁵⁾はビタミンD代謝, カルシウム代謝および微量元

素代謝の関与について述べている. 慢性肝疾患により胆汁うっ滞が起これば, 脂溶性ビタミンであるビタミンKとビタミンDの吸収が低下する. 肝機能障害による蛋白合成能低下はIGF(Insulin-like Growth Factor)-1やIGFBP(IGF Binding Protein)などの蛋白を低下させ, 低垂鉛血症と相まって骨形成が低下し, これも骨粗鬆症を招く. また, ラットの門脈体循環シャントモデルで骨塩量と骨密度の低下が証明されており, ビタミンDが肝臓での活性化を受けないことや, 炎症性サイトカインが肝初回代謝を受けないなどの機序が推測されている⁶⁾. 以上のように慢性肝疾患が骨粗鬆症を起こすメカニズムは, さまざまな要因が複雑に絡みあっている(図8). 治療は, 成人の場合, ビタミンK製剤⁷⁾やビタミンD製剤, ビスホスホネート製剤³⁾が用いられているが, 小児では一定した見解が得られていない.

今回検討した症例は, すべて手術例であった. 骨折の特徴としては, 手術前後1か月の間に骨折を受傷していた. これは, 手術を要するほど全身

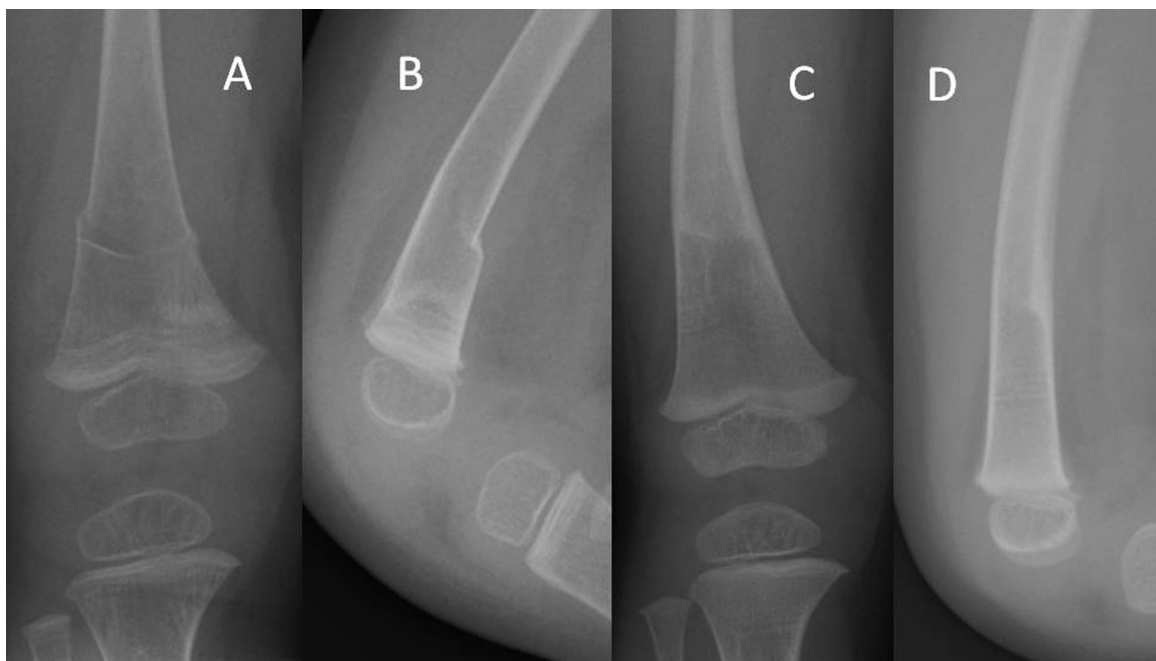


図7. 症例7 右大腿骨単純X線

A: 骨折発覚時正面像, B: 側面像, 大腿骨遠位に骨折を認めた. C: 7か月後正面像, D: 側面像, 骨癒合しリモデリングも認められた.

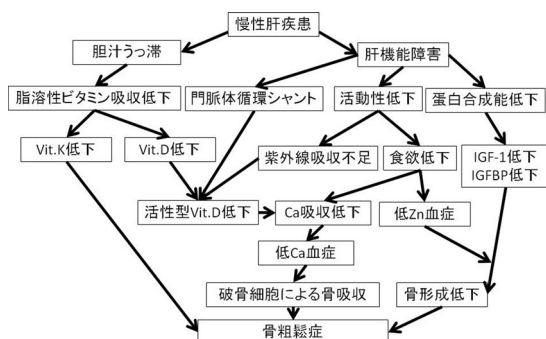


図8. 肝性骨異栄養症の病態

状態が不良であること、手術侵襲の影響、肝移植においてはステロイドや免疫抑制剤の投与などが関与していると思われる。D'Antiga ら²⁾は肝移植を受けた小児は骨密度が低下するが、12 か月以上の経過で原疾患の改善に伴い骨密度も増加すると述べており、肝疾患の状態が悪い時期や周術期に骨折を起こさないよう配慮することが重要である。骨折の部位は大腿骨遠位部に多かったが、おむつ交換の際に他動的な開排動作が必要であり、下腿を把持して外力を加えることにより、大腿骨遠位部が骨折するものと推測された。発見のきっかけについて、多くは下肢を動かさないことや腫脹、おむつ交換時に泣くことなどで気付かれていたが、発熱、発赤、血液検査での異常など、非典型的なものもあり注意を要する。

患児の治療能力は、比較的保たれており、全例で保存加療により骨癒合が得られていたが、入院加療中の患児の骨折は、保護者にとっても容易に受け入れられる合併症ではなく、発症や発見の遅れは、保護者の不信感やトラブルを招く可能性がある。医療従事者は、危険性を認識し、看護を検討する必要がある。また、十分な対策をとっていても、重度の骨粗鬆症患者では骨折が起こり得ることをあらかじめ家族に説明しておくことが望ましい。

今回の検討では、多発骨折を認めた群では、有意に血小板が低値であった。また、統計学的に有意差を認めないものの、傾向として総蛋白が低く、PT-INR や APTT が高値であった。低栄養状態や肝予備能の低下が危険因子となることが示唆され、本検討では血小板がこれを反映し有意差を認めたものと思われる。しかしながら、症例数が少ないため個々の検査項目が実際に骨折のリスクを表しているかは評価できていない。さらに症例が集積されれば、骨折のリスクを予期できる因子が見出せる可能性がある。

文献

- 1) Atkinson M, Nordin BEC, Sherlock S: Malabsorption and bone disease in prolonged obstructive jaundice. Q J Med 25 : 299-312, 1956.
- 2) D'Antiga L, Moniz C, Buxton-Thomas M et al: Bone mineral density and height gain in children with chronic cholestatic liver disease undergoing transplantation. Transplantation 73 : 1788-1793, 2002.
- 3) Higashiyama S, Shiomi S, Kawamura E et al: Effect of alendronate on bone loss in patients with cirrhosis of the liver. Jpn Pharmacol ther 34 : 1209-1214, 2006.
- 4) 鈴木 竜知, 大木 智子, 大山 理恵ほか: 肝臓病に伴う骨病変. 日本臨床 60 : 468-475, 2002.
- 5) 鈴木 竜知, 桑山 肇: 〈続発性骨粗鬆症とその対策〉消化器疾患 胃切除, 炎症性疾患, 肝疾患など. 総合臨床 54 : 2897-2903, 2005.
- 6) Van der Merwe SW, van der Bogaerde JB, Goosen C et al: Hepatic osteodystrophy in rats results mainly from portosystemic shunting. Gut 52 : 580-585, 2003.
- 7) 横井 正人, 釜本 寛之, 小熊 一豪ほか: 原発性胆汁性肝硬変に合併する骨密度低下およびメナテトレンオンによる治療効果の検討. 東医大誌 61 : 427-432, 2003.

Abstract

Fracture in Children with Hepatic Osteodystrophy

Akihito Oya, M. D., et al.

Department of Orthopaedic Surgery, National Hospital Organization Murayama Medical Center

Osteoporosis accompanying liver disease is termed as hepatic osteodystrophy. However it is not well recognized in children. Here we report the incidence of a fracture in 7 infants with liver disease who underwent liver surgery. We investigated the circumstances of the fracture involving the cause, time, location, sign or symptoms, together with blood tests. In six cases, we also performed radiographic examinations for any sub-clinical fractures. The liver disease was biliary atresia in 6 cases, and hepatoblastoma in the other 1 case. The fracture occurred in the distal femur in each case within one month after liver surgery. Many of the 7 cases were discovered due to immobility, pain, and/or swelling, and other cases due to high ALP, pyrexia, or suspected infection. There was a significant low platelet count in those cases with multiple fractures. These cases underscore the need to prevent fractures in children with hepatic osteodystrophy.

Ponseti 法による先天性内反足治療後 4 歳以降で再発した症例についての検討

大阪府立母子保健総合医療センター

名 倉 温 雄・川 端 秀 彦・田 村 太 資・杉 田 淳

要 旨 先天性内反足に対して Ponseti 法を施行し、4 歳以降で再発を認め、追加の治療を必要とした症例に対して検討を加えた。当センターにおいて 1999 年から合併症のない先天性内反足に対して Ponseti 法を施行し、4 年以上経過観察した 67 例 95 足を対象とした。4 歳未満で再発を認めた症例 19 例 26 足(A 群)、4 歳以降で初めて再発を認めた症例 9 例 13 足(B 群)、再発のない症例 39 例 56 足(E 群)であった。再発は、立位時に内反・内転・尖足・凹足のいずれかの変形を呈する場合と定義した。初期治療では、初期ギプス回数で有意差を認めた。足部変形要素としては、前足部内転が再発年齢に関係なく最も多い割合を占めた。足部正面 X 線評価では、健側との比較で A 群・B 群だけでなく、E 群でも内転傾向の残存を認めた。再発のない経過良好例であっても舟状骨の roll in は残存しており、前足部内転をはじめとする再発に対して 4 歳以降も引き続き注意深い経過観察が必要である。

はじめに

先天性内反足に対して Ponseti 法が導入され、良好な初期治療成績とともに初期治療後の再発予防に Foot Abduction Brace (FAB) の重要性が示されている²⁾⁴⁾。一方、Ponseti 法による初期治療後、経過良好であっても晩期に再発し治療に難渋する報告も散見される⁷⁾。今回、Ponseti 法で初期治療を行い 4 年以上経過観察した先天性内反足 (idiopathic) において、4 歳以降で初めて再発を認めた症例を中心に、4 歳未満で再発を認めた症例や、再発のない経過良好例と比較して治療経過の違い、再発の原因について検討した。

対象と方法

当科において 1999 年から 2013 年 8 月までに Ponseti 法で初期治療を施行した合併症のない先

天性内反足で、4 年以上経過観察できた 67 例 95 足(片側 33 例、両側 31 例)(男児 55 例 79 足、女児 12 例 16 足)を対象とし診療録に基づいて検討した。変形再発の定義は、立位時に内反、内転、尖足、凹足の静的な変形のいずれかを認めるものを「再発」とした。4 歳未満で再発を認めたグループを A 群、4 歳以降で初めて再発を認めたグループを B 群、再発の認めない群を E 群とした。A 群 19 例 26 足、B 群 9 例 13 足、E 群 39 例 56 足であった。

各群での比較検討項目は、初期治療では、生後初診日までの日数、矯正ギプス回数、アキレス腱皮下腱切り術の有無、FAB 終了時年齢とした。最終観察時の結果では、疼痛の有無、足関節背屈角度、変形遺残の有無を比較検討した。

X 線評価としては、手術施行前までの 1 歳、2 歳、4 歳、最終観察時の足部正面 X 線像から距踵

Key words : congenital idiopathic clubfoot(先天性内反足), Ponseti method(Ponseti 法), initial treatment(初期治療), late relapse(遅発性再発)

連絡先 : 〒 594-1101 和泉市室堂町 840 大阪府立母子保健総合医療センター 名倉温雄 電話 (0725) 56-1220

受付日 : 2014 年 8 月 3 日

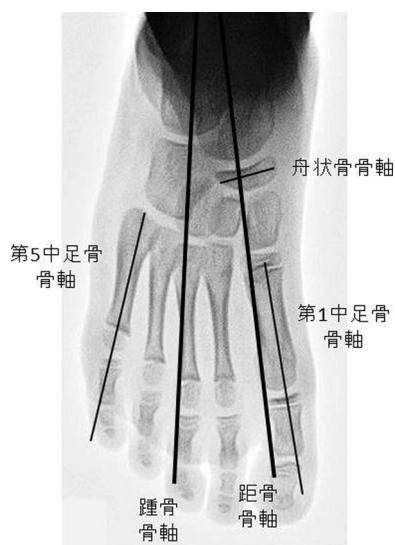


図 1. 足部正面 X 線評価

距骨第 1 中足骨角は距骨骨軸に対して第 1 中足骨が外転位、踵骨第 5 中足骨角は踵骨骨軸に対して第 5 中足骨が外転位、距骨に対する舟状骨の位置も距骨骨軸に対して舟状骨が外転位のときをそれぞれ正の角度とした。

骨、距骨第 1 中足骨角、踵骨第 5 中足骨角を計測した。さらに、最終観察時に舟状骨の骨化核を認める症例で、足部正面 X 線像から距骨骨軸に対する舟状骨の位置を計測し、距骨に対する舟状骨の roll in の程度を評価した(図 1)。また、片側 33 例の健側 33 足を健側群として X 線評価の比較検討に加えた。

統計学的評価として結果が連続変数の場合は t 検定、結果が 2 値変数の場合はカイ二乗検定を用い、p 値が 0.05 未満を有意差ありとした。

結 果

先天性内反足 67 例 95 足の平均観察期間は 8 年 1 か月(4 年 0 か月～13 年 1 か月)であった。全症例において再発に至った割合は、A 群と B 群を合わせて 39 足 41%、再発なく経過良好である割合は 56 足 59%であった。

初期治療では、矯正ギプス回数のみ、B 群と他群で有意差を認めた(表 1)。

初期治療後に認めた足部変形再発要素としては、前足部内転が A 群 24 足(92%)・B 群 9 足

表 1. 初期治療状況

	A 群 19例26足	B 群 9例13足	E 群 39例56足	P 値
生後初診日 までの日数	17.8日 (2～51日)	16.4日 (5～38日)	18.6日 (2～68日)	n.s.
初期ギプス 回数	8.1回 (5～15回)	10.8回 (7～13回)	7.4回 (4～13回)	A 群と B 群間、 B 群と E 群間 p < 0.05
アキレス腱 皮下腱切り	77%	88%	73%	n.s.
FAB 終了 時期	3歳2か月 (5か月～ 5歳1か月)	4歳2か月 (11か月～ 9歳5か月)	3歳3か月 (10か月～ 7歳5か月)	n.s.
再発指摘 年齢	2歳4か月 (8か月～ 3歳6か月)	5歳0か月 (4歳0か月～ 8歳10か月)		

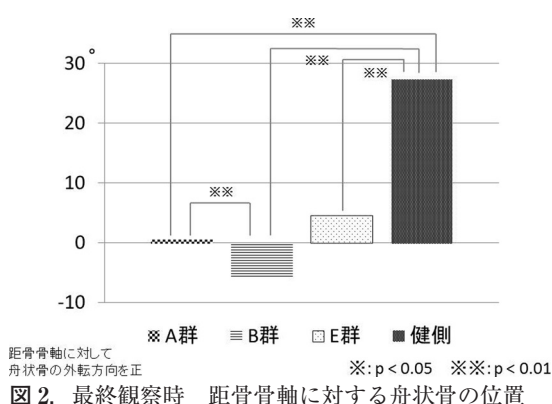
表 2. 手術内容

手術例	A 群	B 群
	15例21足	3例5足
手術時平均年齢	4歳3か月	8歳9か月
前脛骨筋腱移行術	7	0
後方解離術 +アキレス腱延長	5	3
後内側解離術 +アキレス腱延長	10	1
アキレス腱延長術	0	1

(70%)で両群ともに最も多く、続いて、尖足が A 群 16 足(62%)・B 群 7 足(54%)、後足部内反は A 群 15 足(58%)・B 群 2 足(15%)、凹足は A 群 2 足(8%)・B 群 5 足(38%)を認めた。後足部内反は統計学的に A 群で有意に多く(p 値 < 0.05)、凹足は B 群に有意に多く認めた(p 値 < 0.01)。

再発に対して、A 群のうち 15 例 21 足(81%)、B 群のうち 3 例 5 足(38%)で手術を施行した(表 2)。前足部内転に対してはギプスによる再矯正後に前脛骨筋腱移行術、尖足に対しては後方解離術とアキレス腱延長術、後足部内反に対しては後側方解離術とアキレス腱延長術、さらに、各症例に応じて足底筋膜解離術、母趾外転筋延長術、後脛骨筋腱延長術を追加した。

観察期間中に疼痛を訴えた例はなかった。最終観察時、足関節背屈時の平均角度は、A 群 16.9°(10～35°)、B 群 14.2°(0～30°)、E 群 19.5°(5～35°)で、B 群と E 群で有意差を認めた(p 値 <



0.05).

足部正面 X 線像の評価としては、距踵角と距骨第5中足骨角は、各群間での有意差を検出しなかった。距骨第1中足骨角は、最終観察時において、A群、B群、E群各群と健側との比較で有意差を認めたが(p 値 < 0.01)、A群、B群、E群各群間での比較では有意差は認めなかった(data not shown)。最終観察時の距骨骨軸に対する舟状骨の位置では、B群で舟状骨の内転位を呈していた。E群の舟状骨の位置は、A群やB群よりは外転位であったが、健側と比較すれば明らかに内転位であり、再発なく経過良好であっても舟状骨の roll in が残存していた(図2)。

考 察

先天性内反足に対して Ponseti 法による初期治療を行うことで、初期矯正位獲得率は90%以上を示す良好な成績が報告されている^{2)8)~10)}。一方、初期矯正位獲得後の再発率に関しては、Ponseti らは平均年齢2.5歳で56%の再発⁹⁾、Laaveg らは平均3歳3か月で47%の再発⁵⁾など、多くの文献で50%前後の再発率が示されている。さらに、初期治療後、経過良好例であっても Dobbs らは5歳まで³⁾、Ponseti は7歳頃まで¹⁰⁾は再発する可能性がある」と指摘している。具体的に晩期再発例に関する研究としては、McKay らが4歳以降再発例に対して、前脛骨筋腱移行術に個々の変形に応じた手術術式を施すことで、最終観察時平均年齢23.3歳という長期 follow 期間に、39例中31

例で足部機能が保たれていたと示している⁷⁾。今回我々は、平均観察期間8年1か月であり長期 follow とは言えないが、4歳以降で再発を指摘された9例13足に、痛みや変形、可動域制限により日常生活動作に支障を認めるほどの足部機能の低下を生じている症例はなかった。我々の症例からも4歳以降でも再発する可能性は珍しくなく、経過良好であるE群にも再発の可能性がまだ存在することを考えると、先天性内反足に対して長期 follow が必要であることは言うまでもない。

初期治療の検討の結果、矯正ギプス回数でB群がA群やE群よりも有意に多かった。Morcuende らは、初期治療として前医での治療歴や矯正ギプス回数は再発と関連がないことを示しているが⁸⁾、我々の示したような再発年齢の異なる群間での初期治療の比較検討を行っている報告はない。初期治療の違いが再発時期に影響があるのかを明らかにするには、さらなる検討が必要と考える。

再発時の変形要素として、前足部内転と後足部内反は、初期治療により十分な矯正位が得られていても再発しやすい変形であると言われている¹⁾⁹⁾。今回の症例では前足部内転が再発時の年齢に関係なく最も多く、2番目に尖足が続いた。また、後足部内反はA群に、凹足はB群に有意差を持って多く認めた。当科では、再発に対する手術療法をA群では81%、B群では38%の割合で施行しており、施行率に差を認めた。また、前足部内転に対して、ギプスによる再矯正後の前脛骨筋腱移行術は、A群で7足に対して施行しているが、B群では現在のところ1足もない。Ponseti 法では、再発があればギプスにより矯正位を再獲得した後に、前脛骨筋腱移行術での再発予防が推奨されており⁹⁾¹⁰⁾、A群はそれに準じた結果だが、B群の筋骨格の発達した4歳以降の晩期再発例では、ギプスにより矯正位を再獲得することは難しく、矯正不足の下で前脛骨筋腱移行術による再発予防効果は期待できない。よって、McKay らが示すとおり、前脛骨筋腱移行術に加えて、足根骨や後足部での解離術、もしくは骨性手術も必要になると考えるが、当科では晩期再発の前足部内転だけで

あれば、そのような侵襲の大きい手術には臨んでいないのが現状である。

最も再発で多いとされる前足部内転に関しては、再発の前段階としての内旋歩行や動的回外位などの動的な変形が関与しているという報告がある¹⁾⁶⁾。その機序としては、距骨頭に対する舟状骨の roll in が十分矯正されない状態で、前脛骨筋による筋力は足部の回外動作のための筋力として働き、それが前足部内転変形を誘発し、さらに、前脛骨筋の筋力がよりいっそう回外動作に働くといった悪循環が考えられている。また、今回我々の X 線結果では、距骨第一中足骨角に、A 群や B 群だけでなく E 群とも健側と有意差を認め、また、最終観察時の距骨骨軸に対する舟状骨の位置においても健側と比較すると、A 群、B 群、E 群の患側すべてで舟状骨の roll in は明らかに残存していた。これは、再発の危険性が、たとえ経過良好であっても 4 歳以降も残っており、特に、前足部内転やその前段階の内旋歩行や動的回外位などの動的な変形にも注意が必要ということである。

まとめ

Ponseti 法で治療した先天性内反足 67 例 95 足で、4 歳以降で再発した症例を中心に検討した。再発のない経過良好例であっても舟状骨の roll in は残存しており、前足部内転やその前段階の内旋歩行や動的回外位などの動的な変形に対して、4 歳以降も引き続き注意深い経過観察が必要である。

文献

- 1) Bhaskar A, Patni P: Classification of relapse pattern in clubfoot treated with Ponseti technique. *Indian J Orthop* 47(4) : 370-376, 2013.
- 2) Bor N, Coplan JA, Herzenberg JE: Ponseti treatment idiopathic clubfoot : Minimum 5 year followup. *Clin Orthop Relat Res* 467 : 1263-1270, 2009.
- 3) Dobbs MB, Corley CL, Morcuende JA et al: Late recurrence of clubfoot deformity: 1 45-year followup. *Clin Orthop Related Res* 411 : 188-192, 2003.
- 4) Dobbs MB, Rudzki JR, Purcell DB et al: Factors predictive of outcome after use of the Ponseti method for the treatment of idiopathic clubfeet. *J Bone Joint Surg* 86-A : 22-27, 2004.
- 5) Laaveg SJ, Ponseti IV: Long-term results of treatment of congenital club foot. *J Bone Joint Surg* 62-A : 23-31, 1980.
- 6) Lampasi M, Bettuzzi C, Palmonari M et al: Transfer of the tendon of tibialis anterior in relapsed congenital clubfoot. *J Bone Joint Surg* 92-B : 227-283, 2010.
- 7) McKay SD, Dolan LA, Morcuende JA: Treatment results of late-relapsing idiopathic clubfoot previously treated with the Ponseti method. *J Pediatr Orthop* 32 : 406-411, 2012.
- 8) Morcuende JA, Dolan LA, Dietz FR et al: Radical reduction in the rate of extensive corrective surgery for clubfoot using the Ponseti method. *Pediatrics* 113(2) : 376-380, 2004.
- 9) Ponseti IV, Smoley EN: Congenital club foot: The results of treatment. *J Bone Joint Surg* 45-A : 261-275, 1963.
- 10) Ponseti IV: Current concepts review. *J Bone Joint Surg* 74-A : 448-454, 1992.

Abstract

Late-Relapse in Idiopathic Clubfoot in Children Older than 4 Years after Treatment by Ponseti Method

Akio Nakura, M. D., et al.

Osaka Medical Center and Research Institute for Maternal and Child Health

We have performed the Ponseti method for congenital idiopathic clubfoot since 1999 and had 95 cases which passed more than 4 years after the initial treatment. We report our investigation into 39 cases of relapse in idiopathic clubfoot after treatment by the Ponseti method, involving 26 cases younger than 4 years old (Group A) and 13 cases 4 years old or older (Group B), compared to 56 cases with no relapse (Group E). Relapse was defined according to deformity in forefoot adduction, in hindfoot varus, cavus or equinus in a standing position. We investigated the initial treatment, the kind of relapse deformity, and the serial radiographic findings. The average number of casts in each case was significantly larger in Group B than in others. Forefoot adduction was the most frequent relapse deformity in Group A, and in Group B. In all three Groups, the serial radiographic findings showed a tendency to medial displacement in the 1st metatarsal and navicular towards talus, in the affected relapse side, compared to the unaffected side. These findings indicate the prolonged potential of relapse in those 4 years old or older, and confirm the need for long-term follow-up.

多発外傷あるいは多発骨折を合併した小児大腿骨骨折の治療経験

対比地 加奈子¹⁾・松村 福広¹⁾・萩原 佳代²⁾
渡辺 英明²⁾・吉川 一郎²⁾

1) 自治医科大学 整形外科

2) 自治医科大学とちぎ子ども医療センター 小児整形外科

要 旨 高エネルギー損傷を原因とした小児大腿骨骨折の特徴を知るため、当院で加療した小児大腿骨骨折 20 例を、多発外傷・多発骨折に合併した多発群 11 例(平均 9.7 歳)、大腿骨骨折単独であった単独群 9 例(平均 6.3 歳)の 2 群に分け、外傷重症度スコアと搬入時バイタルサイン、ヘモグロビン値(搬入時、2 回目、減少量)、治療法、手術までの日数について比較検討した。外傷重症度スコアは、多発群平均 19.5 点、単独群 9 点で、外傷重症度スコアと搬入時バイタルは相関しなかった。平均ヘモグロビン値は、搬入直後、24 時間以内の 2 回目ではいずれも有意差はなかったが、減少量は有意に多発群が多かった。治療法は、内固定術を多発群で 11 例中 9 例に、単独群で 9 例中 3 例に行い、ほかは牽引療法を行った。手術までの平均日数は、多発群 1.0 日、単独群 4.6 日であり、多発群で有意に短かった。多発群では、他部位の検査や治療のため、結果としてより早期の内固定術を行ったが、出血や合併損傷に注意し、全身状態の安定を優先する必要がある。

序 文

外傷は、1 歳以上の小児の死亡原因第 1 位である。骨折単独で死亡することはまれであるが、過去の報告によると、大腿骨骨折は小児多発外傷の約 20% に合併する¹⁾。

本研究は高エネルギー損傷を原因とした小児大腿骨骨折の特徴を知ることを目的とした。

対象・方法

2004 年以降に加療した小児大腿骨骨折 27 例のうち、高エネルギー損傷を原因とした 20 例を対象とした。これらを多発外傷あるいは多発骨折に合併した多発群と、合併損傷のなかった単独群に分け比較検討した。多発群は 11 例、受傷時平均年齢 9.7 歳(2~14 歳)、平均経過観察期間 33 か月

表 1. 多発群と単独群の比較

	多発群	単独群
症例数	11例	9例
平均年齢	9.7歳 (2~14)	6.3歳 (2~14)
平均経過観察期間	33か月	21か月

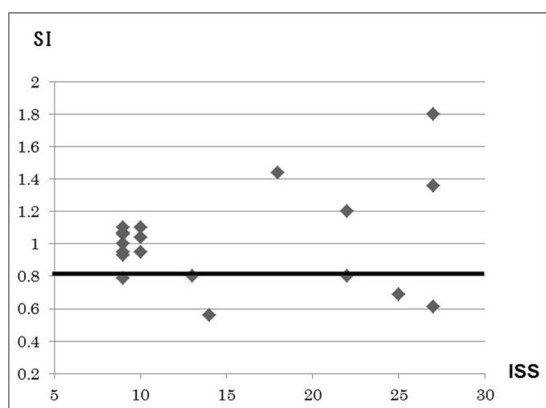
(3~96 か月)、単独群は 9 例、受傷時平均年齢 6.3 歳(2~14 歳)、平均経過観察期間 21 か月(4~60 か月)であった。2 群間の年齢に有意差はなかった($P=0.09$) (表 1)。

多発群 11 例における合併損傷の内訳は、頭部外傷 5 例、胸部外傷 4 例、腹腔内損傷 2 例、顔面骨骨折 2 例、脊椎骨折 2 例(うち 1 例の頸椎骨折は、受傷 3 日で判明)、骨盤骨折 1 例、上肢骨折

Key words : Ender(エンダー), children(輸血), femoral shaft fracture(大腿骨骨幹部骨折), high energy(高エネルギー外傷), shock(ショック)

連絡先 : 〒 247-0072 神奈川県鎌倉市岡本 1370-1 湘南鎌倉総合病院 外傷整形外科 対比地加奈子
電話 (0467)46-1717

受付日 : 2014 年 3 月 31 日

図 1. ISS と SI に相関はない($r=0.282$, $p=0.243$)

4 例と同側脛骨骨折 2 例であった。

検討項目は、①外傷重症度スコアと搬送時バイタルサイン、②搬入時ヘモグロビン値(以下 Hb 値)、24 時間以内に検査した 2 回目 Hb、およびその間の Hb 減少量、③治療法と、手術を行った場合は手術までの日数、とした。なお、外傷重症度スコアには、複数個所の損傷を解剖学的な面から評価した Injury Severity Score(ISS)を使用し、バイタルサインは Shock Index(SI: 脈拍数/収縮期血圧)を用いて評価した。統計学的検定には、Mann Whitney U 検定、Pearson の相関係数を用い、 $P < 0.05$ を有意差ありとした。

結 果

① ISS と SI

ISS は、大腿骨骨折単独では 9.0、多発群では平均 19.5(10~27)となり、重症とされる ISS 16 以上の症例は 11 例中 7 例(18~27)あった。

SI は、多発群、単独群でいずれも平均値 1.0(多発群 0.6~1.8, 単独群 0.8~1.1)であった。20 例中 17 例が、出血性ショックのカットオフ値とされる 0.8 以上にあったが、ISS と SI の間に相関はなかった($r=0.282$, $p=0.243$) (図 1)。

② Hb 値

搬入直後(受傷 8 時間以内)の Hb 値は、多発群平均 12.6(10.1~16.7)g/dal, 単独群平均 12.0(8.6~14.5)g/dl, 2 回目 Hb 値(受傷 24 時間以内に採血)は、多発群平均 9.2(7.8~11.0)g/dl, 単独群平

表 2. ヘモグロビン(Hb)平均値(mg/dl)と輸血

	多発群	単独群
搬入直後(受傷8時間以内)	12.6	12
2回目(受傷24時間以内)	9.2	10.7
Hb減少量	3.4	1.3
輸血例	4	1

* $p=0.026$

表 3. 治療法と手術時期

	多発群(n=11)	単独群(n=9)
観血的整復固定術	9 (6歳<)	3 (11歳<) 1例~4歳
牽引	2 (5歳>)	6 (7歳>)
手術までの期間(日)	1.0(0~4)	4.6(0~9)

* $p=0.043$

均 10.7(7.7~11.6)g/dl であり、搬入直後(X)、2 回目(Y)ともに多発群と単独群で有意差はなかった。ただし、その減少量(X-Y)は、多発群平均 3.4(0.2~6.3)g/dl, 単独群平均 1.3(0~3.7)g/dl となり、有意に多発群で減少幅が大きかった($p=0.026$)。実際多発群では 11 例中 4 例に輸血を必要としたが、単独群では 1 例を除き輸血は不要だった(表 2)。

③ 治療法と手術時期

大腿骨骨折の治療について、多発群では 11 例中 9 例で内固定術を行い、全例 6 歳以上だった。単独群では 9 例中 3 例に内固定術を行い、1 例は 4 歳、2 例はともに 14 歳だった。保存療法は全例牽引療法とし、多発群では 5 歳以下の 2 例、単独群では 7 歳以下の 6 例に行った。手術までの期間は多発群で平均 1.0 日(0~4 日)、単独群で平均 4.6 日(0~9 日)であり、有意に多発群で短かった($p=0.046$) (表 3)。

症例供覧

症 例: 8 歳, 男児。自転車乗車中、乗用車にはねられ受傷。搬送時、脈拍 128 回/分、血圧

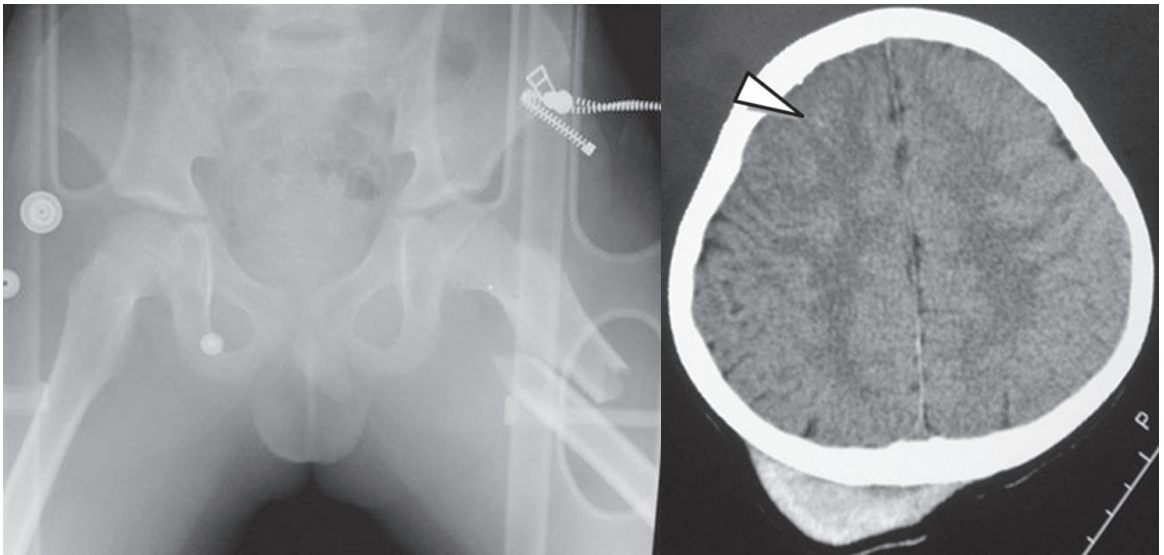


図2. 症例：8歳，男児 受傷時
a：左大腿骨骨幹部骨折 b：頭部CT，脳挫傷(矢印)

89/65 mmHg, SI 1.4, GCS 7, 診断は左大腿骨骨幹部骨折，脳挫傷となり，ISS 18点であった(図2)．継時的な頭部の精査を行うために下肢の牽引は不適當と考え，緊急で大腿骨の内固定術を行った．Ender 釘により良好な固定が得られ，受傷2日後には精査のための頭部MRIも容易に撮影できた．搬入時のHb値は13.1g/dl，2回目Hb値(術後)9.4g/dl，減少量3.7g/dlであり，最低値は受傷4日目の7.3g/dlであったが，輸血は行っていない．受傷後1か月は不穏状態が続いたが，受傷後3年の現在骨癒合良好で，下肢長差は患側－4 mm，学校生活も受傷前と同様の状態で過ごしている(図3)．

考 察

多発外傷の小児が搬送されてきた場合，まず行うべきは救命処置であるが，その後速やかに，損傷部位の適切な評価と後遺障害を残さない治療プランの立案が必要である．

搬送時に重症度を判断する指標として，収縮期血圧と脈拍を用いたSIは，簡便でわかりやすいが，小児多発外傷においては，予後予測の感度が低いという報告がある⁶⁾．Ottらは，小児多発外傷261例について11のtrauma scoreと生存率や

ICU滞在期間等の関連を調べ，そのうちSIのみ有意差がなかったと報告した⁶⁾．その理由として小児はもともと脈拍数が高く，血圧が低いためではないかと考察している．また，意識障害を合併していれば，痛みによる脈拍数上昇も起こりづらくなるため，多発外傷ではさらに注意が必要である．実際，当院の結果でもSIとISSに相関はなく，多発例の方がSIにばらつきが大きかった．搬送時に循環動態が安定していても経時的に全身状態が悪化する可能性を念頭に入れなければならない．

交通事故による小児大腿骨骨折患者のうち，58%に合併損傷があったという過去の報告²⁾同様，自験例でも55%に合併損傷が存在していたが，頭部損傷や四肢骨折による局所の強い疼痛は，初期に他の損傷を見逃す要因になる．Lettsらの報告では，149人の小児多発外傷患者において，損傷部位の見逃しが13例(9%)に存在し，受傷後平均5日で判明している(四肢脊椎骨折5例，腹部外傷4例，動脈瘤2例，頭部外傷1例，顔面骨折1例)³⁾．このような他部位損傷の見逃しをなくすためにSecondary survey, tertiary surveyを漏れなく行うことが重要であるが，診断の助けになるものとして，小児大腿骨骨折例ではHb値

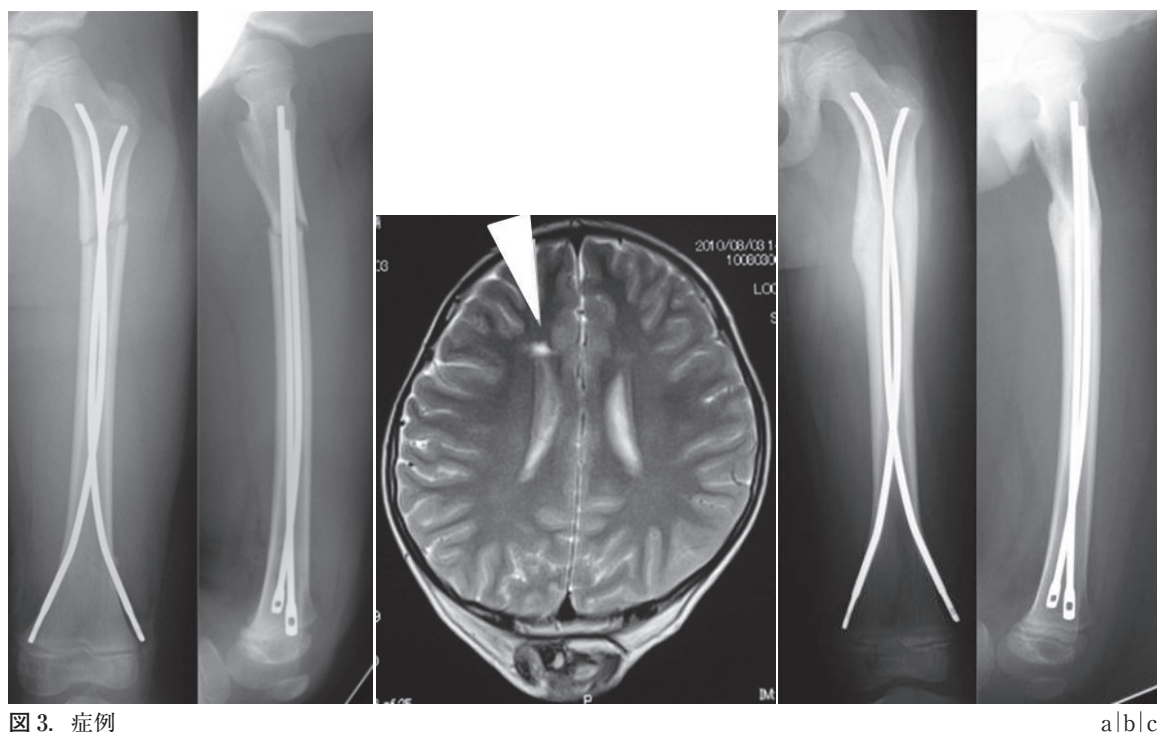


図3. 症例

a: 術直後 b: 受傷2日頭部CT 脳挫傷が顕在化(矢印) c: 術後6か月

の明らかな低下が良い指標になるとした報告⁸⁾がある。これは本調査の多発群で有意にHb値の減少幅が大きかったことと同様である。

治療については、小児多発外傷の骨折に対する保存治療は、7歳以上、ISS高値例で有意に合併症が増加すると報告されている⁵⁾。本調査では、6歳以上の多発外傷症例では全例手術を行っていた。さらに、単独例に比較し有意に手術待機期間が短かったのは、供覧症例にあげたように、合併損傷の検査や治療を行いやすくするということが理由の一つとしてあげられる。小児大腿骨骨折も、成人同様早期の手術が推奨されている^{4,5)}が、小児は成人に比して呼吸器合併症がまれであるため、手術に際しては全身状態が十分安定してからが賢明という報告⁷⁾もあり、小児多発外傷に伴った骨折手術時期は、受傷24から72時間がよいともいわれている⁵⁾。当院では過半数(6/9例)で受傷当日(24時間以内)に手術を行っており、高エネルギー損傷ではより慎重さが求められると考える。

結 語

1) 高エネルギー損傷による小児大腿骨骨折の注意点として、以下をあげる。

- ①重症度とバイタルサインが関連しづらい
- ②貧血の進行は他部位の合併損傷の存在を示唆する

2) 多発外傷を合併した小児大腿骨骨折では、合併症の検査や治療のため単独例よりも手術の必要性が高く、また手術を早期に行う傾向にあった。

文献

- 1) Buckley SL, Gotschall C, Robertson W Jr et al: The relationships of skeletal injuries with trauma score, injury severity score, length of hospital stay, hospital charges, and mortality in children admitted to a regional pediatric trauma center. J Pediatr Orthop 14(4): 449-453, 1994.
- 2) Jawadi AH, Letts M: Injuries associated with fracture of the femur secondary to motor vehicle accidents in children. Am J Orthop 32

- (9) : 459-462, 2003.
- 3) Letts M, Davidson D, Lapner P: Multiple trauma in children: predicting outcome and long-term results. *Can J Surg* **45**(2) : 126-131, 2002.
 - 4) Loder RT. Pediatric polytrauma: Orthopaedic care and hospital course. *J Orthop Trauma* **1** (1) : 48-54, 1987.
 - 5) Loder RT, Gullahorn LJ, Yian EH et al: Factors predictive of immobilization complications in pediatric polytrauma. *J Orthop Trauma* **15** : 338-341, 2001.
 - 6) Ott R, Kramer R, Martus P et al: Prognostic value of trauma scores in pediatric patients with multiple injuries. *J Trauma* **49**(4) : 729-736, 2000.
 - 7) Robert MK, David LS. Pediatric polytrauma management. *J Pediatr Orthop* **26** : 268-277, 2006.
 - 8) Unal VS, Gulcek M, Unveren Z et al: Blood loss evaluation in children under the age of 11 with femoral shaft fractures patients with isolated versus multiple injuries. *J Trauma* **60** : 224-226, 2006.

Abstract

Management for Pediatric Femoral Fracture with Multiple Co-Injuries

Kanako Tsuihiji, M. D., et al.

Shonan Kamakura General Hospital

We report the management for a femoral fracture in 11 cases with multiple co-injuries(Group M, mean age 9 years 8 months), compared with management for an isolated femoral fracture in 9 cases(Group I, mean age 6 years 4 months). We compared the Injury Severity Score(ISS), vital signs on admission, hemoglobin(Hb)level, treatment method, and delay until operation. The mean ISS was significantly higher in Group M at 19.5, compared to Group I at 9.0. There was no correlation between ISS and vital signs on admission. There was no significant change in Hb level between on admission and at 24 hours later. There was significant difference in treatment method with internal fixation performed in 9 cases(81%)of Group M, and in 3 cases(33%)of Group I. Traction was used in all other cases not receiving internal fixation. There was a significantly shorter delay until surgery in Group M at 1 day, compared to Group I at 4.6 days. Overall stabilization after a femoral fracture was the top priority. All cases with multiple co-injuries, of Group M, received early surgical care and close follow-up for any complication.

脳性麻痺股関節亜脱臼, 脱臼に対する 整形外科的選択的痙性コントロール手術の中期成績

松 尾 篤¹⁾・松 尾 隆¹⁾・相 川 淳²⁾・岩 瀬 大²⁾

1) 南多摩整形外科病院 整形外科

2) 北里大学医学部 整形外科

要 旨 脳性麻痺股関節亜脱臼, 脱臼に対する股関節周囲筋解離術の適応と限界を明らかにする目的で, 2003 年から 2008 年に当院で股関節整形外科的選択的痙性コントロール手術を単独で行った中で, 術前股関節単純 X 線で Migration Percentage(以下, MP)が 25%以上の亜脱臼, 脱臼を呈しており, 術後 5 年以上経過観察しえた 47 例, 83 股を調査した. 手術時年齢は平均 6 歳 11 か月, 術後経過観察期間は平均 6 年 8 か月であった. 術前 MP を 25~39%, 40~59%, 60~99% の 3 群に分類し, 最終 MP 25%未満を good, 25~39%を fair, 40%以上を poor として, 術後成績を調査した. 術前 MP 60%未満であれば約 90%が fair 以上であり, 術前 MP60%以上では約 90%が poor であった. 術前 MP 60%未満の症例については, 筋解離術単独では亜脱臼を改善することが可能と思われる. 術前 MP 60%以上の症例の中にも, 筋解離術単独で改善するものも存在するが, 改善してこない場合は漫然と経過観察せず, 追加手術の適切な時期を逸しないよう注意する必要がある.

序 文

脳性麻痺の股関節周囲筋の過緊張を軽減し, より正常に近い筋バランスを得る目的で股関節周囲筋解離術が用いられる. また, 股関節周囲筋の過緊張により引き起こされる軽度の亜脱臼については筋解離術を行うことにより改善が得られることも多く, 同時に日常生活動作, 運動機能が改善することも経験する. しかしながら, 脱臼が放置され高位脱臼に進展してしまっている症例, 亜脱臼の程度が強い症例などにおいては, 筋解離術単独で亜脱臼を改善できるか否かについては議論の分かれるところである. 今回我々は, 当院における脳性麻痺股関節脱臼, 亜脱臼に対する股関節周囲筋解離手術の適応と限界を明らかにする目的で, 股関節整形外科的選択的痙性コントロール手術

(Orthopaedic Selective Spasticity-Control Surgery: 以下, OSSCS)⁵⁾の中期成績を検討したので報告する.

対象と方法

2003 年から 2008 年までの間, 脳性麻痺児の股関節に対して, 当院で OSSCS を行った症例のうち, 術前股関節単純 X 線で Migration Percentage(以下, MP)⁸⁾が 25%以上の亜脱臼, 脱臼を呈しており, 術後 5 年以上経過観察しえた 47 例 83 股を対象とした. 男性 35 例 62 股, 女性 12 例 21 股, 麻痺型は, 痙直型両麻痺 8 例, アテトーゼ型四肢麻痺 1 例, 痙直型四肢麻痺 38 例, 混合型四肢麻痺 5 例, 手術時重症度は粗大運動能力分類システム (Gross Motor Function Classification System: 以下, GMFCS)で, レベル II 2 例, レベル

Key words : cerebral palsy(脳性麻痺), dislocation/subluxation of the hip(股関節脱臼・亜脱臼), surgical treatment(手術療法), soft-tissue release(軟部組織解離術)

連絡先 : 〒195-0064 東京都町田市小野路町 11-1 南多摩整形外科病院 松尾 篤 電話(042)735-3731

受付日 : 2014 年 3 月 27 日

表 1. 改定版-松尾の 16 段階評価

すべて外力からのセッティングや助力のない状態でレベルを決定

段 階	注
1 寝返り 不可	仰臥位が初発肢位
2 寝返り 腹這い位まで	仰臥位から腹臥位. 1 側からだけでよい.
3 腹這い 1 側のみ屈曲	1 側だけ屈伸し, 他側はのびした状態.
4 腹這い 交互	両側が交互に屈曲・伸展. おしりは空間にあがらない.
5 手つき割り坐 上肢支持, または 回旋横坐りのどちらか	上半身は空間に浮き, 下半身は床についている.
6 四つ這い 対称性(バニーホッピング)	両側手つき, 両肘ののびし状態で下半身全体は床についた状態 で前進する. 上半身四つ這い, 下半身腹這いでの移動レベル
7 四つ這い 肢位へ上がれる	おしりが浮き上がり, 立体感のある四つ這い肢位を自分で とれる.
8 四つ這い 交互	お尻が空間に保たれた肢位で両手つき, 両膝つきで前進で きる.
9 つかまり立ち 床から立ち上がれる(回旋不可)	平行棒につかまって膝立ちし, さらに立ち上がれる.
10 平行棒内で床から立ち上がり, 歩ける	車椅子の自分で乗れるという前提.
11 歩行器 床から自分で立ち上がって移動出来る	車椅子に自分で乗れるという前提.
12 両ロフトランド杖 歩行実用	車椅子に自分で乗れるという前提.
13 片ロフトランド杖 歩行実用 あるいは 立ち止まる事は出来ない, バタバタ と独歩	
14 室内独歩実用(かがみ肢位)	(-)
15 社会生活独歩(かがみ肢位)	(-)
16 社会生活独歩(かがみ肢位なし)	股関節トルク 6.0 以下, 60Hz(正常トルク 4.0 平均)といった レベル. 分析器未使用の場合は検者が判断.

Ⅲ 10 例, レベルⅣ 16 例, レベルⅤ 19 例であった. 手術時年齢は 3 歳 2 か月から 16 歳 3 か月, 平均 6 歳 11 か月, 経過観察期間は, 5 年から 10 年 3 か月, 平均 6 年 8 か月であった. 術前 MP を Miller ら⁶⁾の方法に従って, 1 群: 25~39%, 2 群: 40~59%, 3 群: 60~99% の 3 群に分類し, 最終経過観察時 MP25% 未満を Good, 25~39% を Fair, 40% 以上を Poor として術前亜脱臼の程度と術後成績を検討した. なお, 股関節観血的整復術(Open Reduction: 以下, OR), 大腿骨減捻内反短縮骨切り術(Femoral Derotational Varus Osteotomy: 以下, FDVO)を追加したものは, 追加手術の前までの MP を用いた成績とした. 手術時年齢, 手術方法, 術前 GMFCS, 骨頭上方化と術後成績との関連を検討, さらに重症度別の

術後運動機能変化を改定版-松尾の 16 段階評価で行った(表 1).

手術時年齢と術後成績との関連では, 主に歩行改善を目的に手術を行った術前 GMFCS レベルⅡ, Ⅲの症例を除き, 亜脱臼・脱臼の改善を目的に手術を行った術前 GMFCS レベルⅣ, Ⅴの症例の手術時年齢と術後成績を検討した. 手術方法と術後成績との関連では, 術前 MP で分類した各群においてハムストリング近位全切離群と延長群とで術後成績を検討した. 骨頭上方化と術後成績との関連では, 骨頭上方化の指標として Shenton 線の乱れを用い, 術前の Shenton 線の乱れと術後成績を検討した. Shenton 線の乱れは, 両側の閉鎖孔上端を結んだ線を基準に, 大腿骨頸部内側が上方に偏位した距離とした.

	術前MP 術後MP	25%未満 Good	25~39% Fair	40%以上 Poor
1群	25~39% 31股	22	8	1
2群	40~59% 33股	13	14	6
3群	60~99% 19股	0	2	17

図 1. 術前亜脱臼の程度と術後成績

検 定

術前亜脱臼の程度，手術方法，術前 GMFCS と術後成績には χ^2 乗検定を，手術時年齢，骨頭上方化と術後成績には一元配置分散分析および Scheffe 法による多重比較検定を用いた。

手術術式

両股関節に股関節 OSSCS を用いた。

伸 筋：半膜様筋近位側でのスライド延長もしくは切離，半膜様筋腱，大腿二頭筋近位側でのフラクショナル延長もしくは切離

屈 筋：大腰筋腱の延長もしくは切離，腸骨筋フラクショナル延長，大腿直筋腱 Z 状延長

内転筋：薄筋近位側での切離，長内転筋近位側で温存もしくはフラクショナル延長，大内転筋遠位側での顆部腱切離を用いた。

寝返りレベル以下の症例では主として切離を，つかまり立ちレベル以上の症例では主として延長術を選択した。

結 果

術前亜脱臼の程度と術後成績は，1 群では Good 22 股，Fair 8 股，Poor 1 股，2 群では Good 13 股，Fair 14 股，Poor 6 股，3 群では Good 0 股，Fair 2 股，Poor 17 股であった。術前 MP が 60% 未満の群で Good，Fair の割合が有意に多い傾向であった。Poor の症例のうち，2 群の 6 股中 4 股，3 群の 17 股中 11 股には OR，

FDVO を追加しており，術後の求心位は良好，残りの 2 股は OR，FDVO 予定で，6 股は整復を望んでいない症例であった(図 1)。

手術時年齢と術後成績との関連では，手術時年齢は，Good 群で平均 75 か月，Fair 群で平均 65 か月，Poor 群で平均 84 か月であり，各群に有意差は認めなかった。

手術方法と術後成績との関連では，1 群，2 群ともに有意差は認めなかったが，3 群で有意差を認め，全切離群に Poor が多い傾向であった(図 2)。全切離群の 17 股中 7 股は，筋解離術後の OR，FDVO を行う前までの成績を含んでおり，術前 MP は全切離群で平均 93%，延長群は平均 69%であった。

術前 GMFCS と術後成績との関連では，GMFCS レベルⅣ，Ⅴ群に，有意差を認め，術前 GMFCS レベルⅤ群で Poor が多い傾向であった(図 3)。

骨頭上方化と術後成績との関連では，術前の Shenton の乱れは，Good 群で平均 4.8 mm，Fair 群で平均 2.5 mm，Poor 群で平均 32.5 mm であり，Good 群，Fair 群のそれぞれに比べ，Poor 群で術前の骨頭上方化が有意に大きい傾向があった($p < 0.05$ ，図 4)。

重症度別の術後運動機能の変化では，1 段階以上の改善を認めた症例は GMFCS レベルⅡからⅤで，それぞれ 2 例，7 例，12 例，6 例であり，レベルⅤで運動機能の伸びは少ない傾向であった(図 5)。

症例提示

症例 1：10 歳，男児，痙直型四肢麻痺。GMFCS レベルⅢ。両股関節に加え膝，足，体幹の OSSCS を行った。術前のレントゲンでは両側Ⅰ群で，術後成績は両側 Good であった。術前歩行器歩行レベルであったが，最終観察時に室内独歩実用となった(図 6)。

症例 2：3 歳，男児，痙直型四肢麻痺。GMFCS レベルⅢ。両股関節に加え，足部 OSSCS を行った。術前のレントゲンでは両側Ⅱ群で，術後成績

1群	25~39%	31股	
	Good	Fair	Poor
延長群	18	7	1
全切離群	4	1	0

3群	60~99%	19股	
	Good	Fair	Poor
延長群	0	2	0
全切離群	0	0	17

2群	40~59%	33股	
	Good	Fair	Poor
延長群	8	9	3
全切離群	5	5	3

図2. 手術方法と術後成績との関連

	25%未満 Good (35股)	25~39% Fair (24股)	40%以上 Poor (24股)
Ⅱ	2	1	
Ⅲ	12	4	1
Ⅳ	16	9	3
V	5	10	20

図3. 術前 GMFCS と術後成績との関連

は右側 Good，左側 Fair であった。術前歩行器歩行レベルであったが，最終観察時に室内独歩実用となった(図7)。

症例3：5歳，男児，痙直型四肢麻痺。GMFCS レベルV。両股関節に加え，両肩肘 OSSCS を行った。術前のレントゲンでは右Ⅱ群，左Ⅲ群であった。術後5年8か月経過，術後成績は両側 Poor，術後6年5か月で左股関節観血的整復術，

左大腿骨減捻内反短縮骨切り術を行い，術後の求心位は良好である。術前四つ這いレベルであっ

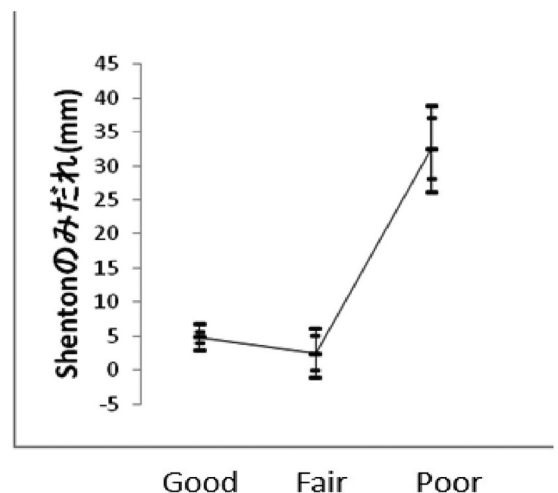


図4. 術前の骨頭上方化と術後成績との関連

たが，最終観察時に四つ這い位保持可能となった(図8)。

考 察

麻痺性股関節に対する筋解離手術の目的としては，股関節周囲の筋緊張を軽減し，より正常に近

	改善例数	改善の割合
Ⅱ	2 / 2例	100%
Ⅲ	7 / 10例	70%
Ⅳ	12 / 16例	75%
Ⅴ	6 / 19例	32%

図5. 重症度別の術後運動機能変化

い筋バランスを得る，寝返りや座位，立位，歩行などの基本的な運動機能の改善，過緊張や亜脱臼に伴う疼痛の改善，亜脱臼の改善などを得るという視点で取り組んでいるが，今回は筋解離術の麻

痺性股関節脱臼，亜脱臼に対する効果に焦点をあて検討を行った。

軽度の亜脱臼については筋解離術単独により改善が得られることも多いが，特に，脱臼が放置され高位脱臼に進展してしまっている症例，亜脱臼の程度が強い症例などにおいては，筋解離術単独で脱臼，亜脱臼を改善できるか否かについては議論の分かれるところである。

術前の亜脱臼度が軽度から中等度の症例に関して，我々の検討では，術前 MP 60% 未満であれば約 90% が Fair 以上であった。河田，中寺ら³⁷⁾は術前 MP 50～60% 未満が筋解離術単独での適応と述べており，今回の結果も緒家の報告と同等



a | b

図6. 症例1 a: 術前 右 MP33% 左 MP33% b: 術後5年5か月 右 MP14% 左 MP17%



a | b

図7. 症例2 a: 術前 右 MP40% 左 MP40% b: 術後5年 右 MP20% 左 MP29%

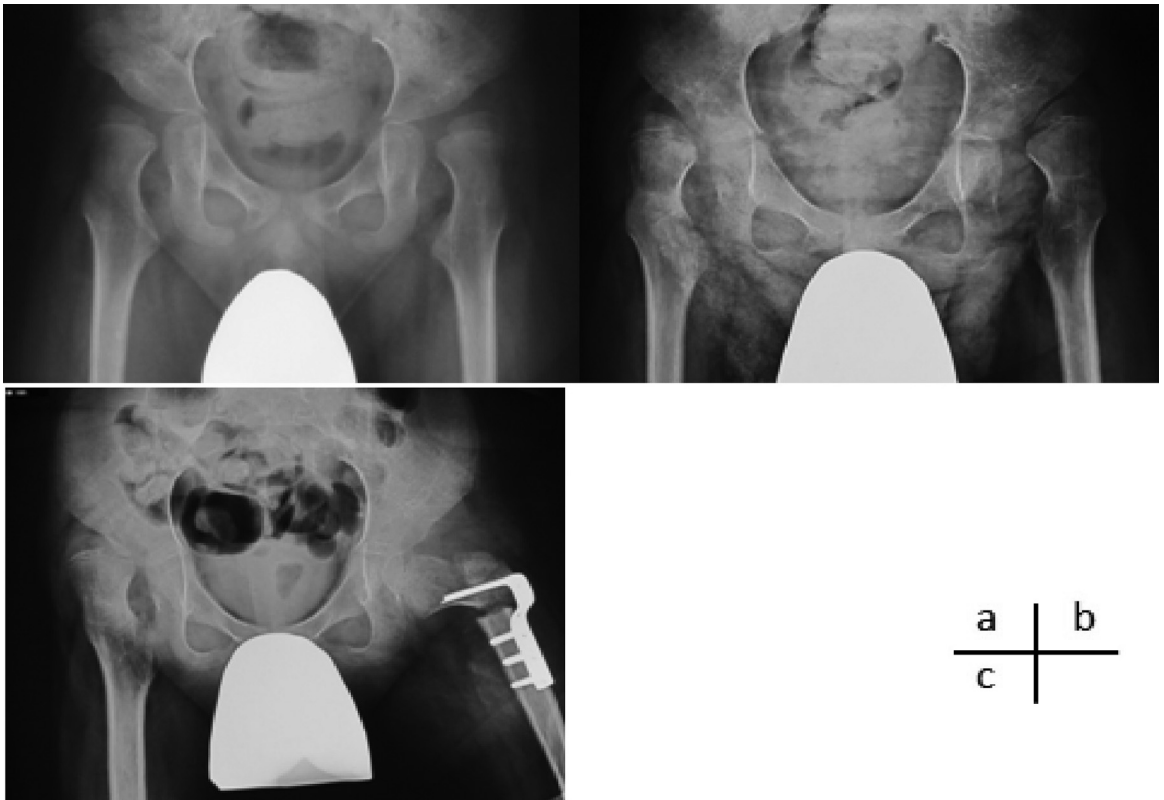


図8. 症例3 a:術前 右MP56% 左MP76% b:術後5年8か月 右MP100% 左MP100% c:術後6年5か月

の結果であり，筋緊張緩和，運動能力向上，亜脱臼改善を考えていく上で，できるだけ早期，亜脱臼が軽度な時期に股関節周囲筋解離を行うことが重要と思われる。

MP以外の術後成績に関連する因子には，手術方法，術前運動機能，手術時年齢，後療法，臼蓋角，骨頭上方化，術後MPの経過などが挙げられる。朝貝ら¹⁾は，術後の運動機能の改善，術後機能訓練の違い，手術方法，手術時年齢などが重要な要素であると述べている。今回の我々の検討では，手術時年齢，手術方法との関連は明らかにならなかったが，術前GMFCSレベルが高い方が，改善傾向にあり，また，術前の骨頭の位置も改善の重要な要素である可能性があった。

術前の亜脱臼度の強い症例に関しては，術前MP 60%以上の19股ではPoorが17股であった。しかし，この結果のほとんどはOSSCSの術直後，もしくは引き続き行うOR，FDVOを行う前まで

の短期の成績である。つまり，筋解離単独で長期観察し得たケースが少なく，これだけで術前MP 60%以上の症例に対する中長期の成績を論じることが難しい。朝貝，Miller¹⁾⁶⁾らは今回と同じ項目での5年以上の経過観察を検討しており，術前MP 60%以上でもそれぞれ約47%,33%がGoodであり，術前MP 100%の脱臼例でも15関節中5関節は術後MP30%未満になったと報告，良好な成績を示している¹⁾。また，櫻吉ら⁹⁾も，術後平均10年の経過観察で，術前MPが50%以上の症例であっても，33股中25股(76%)で中長期的にMPが50%以下に維持されていたと報告している。一方で，朝貝，Miller¹⁾⁶⁾らにもそれぞれ約37%,44%にpoorの症例が存在している。

我々は，過去の報告，結果を参考とし，原則として術前MP60%以上の場合は，OSSCSを行った後にOR，FDVOを行い，亜脱臼，脱臼の整備を得ることとするが，自経例の中にも術前MP

が60%以上でも筋解離術単独で良好な求心位を獲得する症例を少なからず経験するため, 筋解離術後に数年経過観察しても追加手術の時期を逸することがない3~4歳前後の症例, 比較的術前の運動能力が高いもの, Shenton 線の乱れの少ないもの, 骨頭変形のないものなどについては, 症例を絞って経過観察を行うという選択肢もあり得るのではないかと考えた。しかし, 経過の中で, MPが改善しないもの, 疼痛の出現, 骨頭上方化, 骨頭変形, 臼蓋外側縁の急峻化などには十分注意を払い, 追加手術の適切な時期を逸しないよう注意する必要がある。

文献

- 1) 朝貝芳美, 渡邊泰央, 山本謙吾: 痙直型脳性麻痺股関節求心位異常に対する筋解離術の長期成績. 日小会誌 15: 15-19, 2006.
- 2) Bowen RE, Kehl DK: Radiographic outcome of soft-tissue surgery for hip subluxation in nonambulatory children with cerebral palsy. J Pediatr Orthop B 15: 109-112, 2006.
- 3) 河田典久, 松尾 隆, 池田啓一: 脳性麻痺股関節

脱臼の治療. 脳性麻痺の外科研究会誌 6: 15-18, 1996.

- 4) 的野浩士, 福岡真二, 武田真幸ほか: 脳性麻痺股関節脱臼・亜脱臼に対する整形外科的選択的痙性コントロール手術・観血的整復術・大腿骨減捻内反骨切り術合併手術の治療成績. 脳性麻痺の外科研究会誌 15: 25-29, 2005.
- 5) Matsuo T: Cerebral Palsy. Spasticity-control and Orthopaedics. An Introduction to Orthopaedic Selective Spasticity-control Surgery (OSSCS). Soufusha, Tokyo, 2002.
- 6) Miller F, Dias RC, Dabney e KW et al: Soft-tissue release for spastic hip subluxation in cerebral palsy. J Pediatr Orthop 17: 571-584, 1997.
- 7) 中寺尚志, 星野弘太郎: 脳性麻痺の股関節脱臼, 亜脱臼に対する整形外科的選択的痙性コントロール手術 (OSSCS) 単独の治療成績. 脳性麻痺の外科研究会誌 22: 93-100, 2012.
- 8) Reimers J: The stability of the hip in the children. Acta Orthop Scand Suppl 184: 12-19, 1980.
- 9) 櫻吉啓介, 池淵香瑞美, 西村一志ほか: 脳性麻痺児に対する股関節周囲筋痙性コントロール手術単独の治療成績. 日小会誌 17: 101-105, 2008.

Abstract

Mid-Term Results after Orthopaedic Selective Spasticity-Control Surgery for Dislocation or Subluxation of the Hip in Cerebral Palsy

Atsushi Matsuo, M. D., et al.

Department of Orthopaedic Surgery, Hifumi Foundation Minamitama Orthopaedic Hospital

We report the mid-term results after soft-tissue release in 83 cases of dislocation or subluxation of the hip involving 47 patients with cerebral palsy. The mean age at operation was 6 years 10 months. The mean follow-up duration was 6 years 8 months, ranging from 5 to 10 years. In all cases the initial Migration Percentage (MP) was $>25\%$. We evaluated the results according to initial preoperative MP, in three groups as MP 25-39%, 40-59%, and 60-99%. At most recent follow-up, the clinical results were evaluate as good (MP $<25\%$), fair (MP 25-39%), or poor (MP $\geq 40\%$). In the two groups with initial MP $<60\%$, nearly 90% had good or fair results. In the other group with initial MP $\geq 60\%$, nearly 90% had poor results. These findings suggest that in those cases with initial MP $<60\%$, then selective spasticity-control surgery was effective to improve hip subluxation in cerebral palsy. In those with initial MP $\geq 60\%$, then this procedure is effective in only some cases. Additional surgery may be needed in cases showing no improvement, so close mid-term follow-up is recommended.

小児橈骨頭単独脱臼骨折の1例

鶴崎 翠子¹⁾・長尾 聡哉¹⁾・平良 勝章²⁾・角野 菜穂²⁾
山口 太平³⁾・石垣 乾貴³⁾・山田 賢鎬³⁾・徳橋 泰明³⁾

1) 駿河台日本大学病院整形外科

2) 埼玉県立小児医療センター整形外科

3) 日本大学医学部整形外科学系整形外科分野

要 旨 小児の外傷性橈骨頭単独脱臼骨折の1例を経験したので報告する。症例は6歳女児、転倒した際に左肘を縁石に強打して受傷した。単純X線像およびCTにて橈骨頭の前・尺側への脱臼および橈骨頭外側に遊離骨片を認めた。受傷6日目に全身麻酔下観血的整復固定術を施行した。術後6か月の現在、肘関節の可動域に制限はなく、日常生活に支障はない。小児における外傷性橈骨頭脱臼の大部分は、Monteggia骨折または尺骨急性塑性変形に合併するとされている。それに対して、橈骨頭単独脱臼の報告例は少ない。また、小児橈骨頭骨折の頻度は過去の報告より約0.07%とされている。以上より、小児における橈骨頭単独脱臼骨折は、非常にまれであると推察される。小児橈骨頭骨折の受傷肢位としては、肘関節伸展位での軸圧によるものが一般的だが、自験例は肘部への直達外力によるものであり、受傷機転としても非常にまれと思われた。

はじめに

外傷性橈骨頭脱臼は、尺骨骨折を伴う Monteggia骨折として発症することが多く、尺骨骨折を伴わない場合でも高率に尺骨の急性塑性変形を合併するとされている。それに対して、尺骨の骨傷を伴わない橈骨頭単独脱臼はまれである¹⁰⁾。今回われわれは、尺骨骨折および尺骨急性塑性変形を伴わない小児の外傷性橈骨頭単独脱臼骨折の1例を経験したので報告する。

症 例

症 例：6歳、女児

主 訴：左肘関節部痛・腫脹

既往歴：特記事項なし

現病歴：道路のボールを馬跳びした際にバラ

スを崩して転倒、左肘を縁石に強打して受傷した。受傷当日近医を受診するも、異常を指摘されず、外固定にて帰宅した。その後も疼痛は改善せず、同日に前医の救急外来を受診した。X線にて橈骨頭骨折を指摘されたため、受傷後4日で当科紹介初診となった。

初診時現症：左肘外側部に圧痛・腫脹を認めたが、明らかな挫創は認めなかった。前腕・手部に明らかな麻痺・血流障害は認められなかった。可動域は伸展-60°、屈曲90°で、疼痛のため回内外はできなかった。

画像所見：X線像にて橈骨頭の前・尺側への脱臼および橈骨頭外側に遊離骨片を認めた(図1 a,b)。3D-CT像では橈骨頭外側の遊離骨片がよりはっきりと確認できた(図2)。

手術所見：受傷後6日で、全身麻酔下観血的整

Key words : radial head(橈骨頭), fracture(骨折), dislocation(脱臼), Monteggia fracture(モンテジヤ骨折), acute plastic bowing deformity(急性塑性変形)

連絡先：〒101-8309 東京都千代田区神田駿河台1-6 日本大学病院整形外科 鶴崎翠子 電話(03)3293-1711 FAX(03)3293-2880

受付日：2014年2月23日

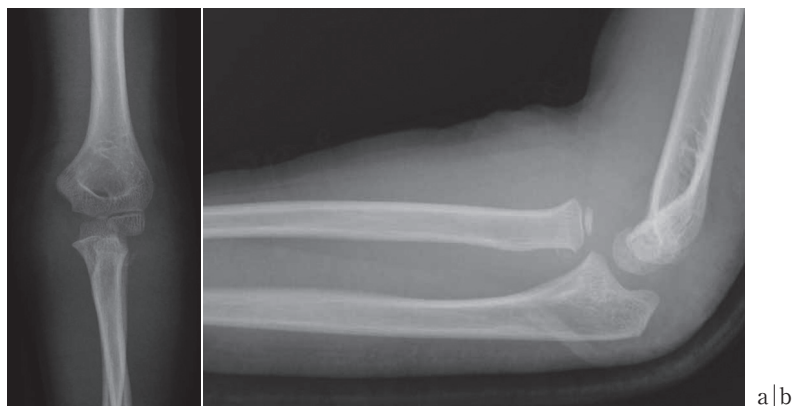


図1. 初診時肘関節単純X線像

a) 正面像

b) 側面像

橈骨頭の前方・尺側への脱臼および橈骨頭外側に遊離骨片を認めた。



図2. 初診時3D-CT像

橈骨頭の外側に遊離骨片を確認できる。

復固定術を施行した。

外側進入，Köcher approach にて展開した。輪状靱帯の前方部分には明らかな損傷は認めなかった。輪状靱帯を切開すると，橈骨頭全周の1/3を占める骨折が確認できた。Salter-Harris IV型の骨端線損傷と思われる(図3)。また，橈骨頭は前方・尺側へ脱臼していた。脱臼は比較的容易に整復が可能であり，橈骨頭骨折は骨端線を避けて PLLA ピン3本で固定した。

術後経過：術後はギプスシーネ固定とし，2週

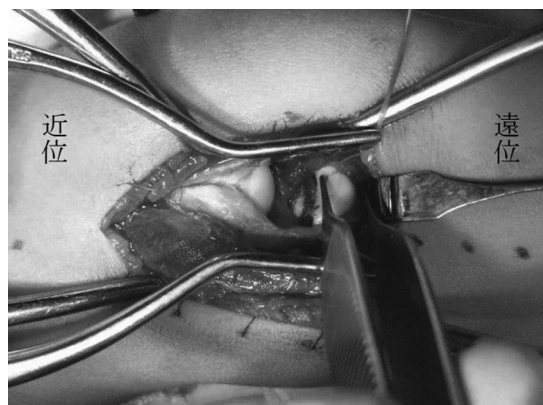


図3. 術中写真

橈骨頭全周の1/3を占める Salter-Harris IV型の骨端線損傷と思われる骨折が確認できた。

でシリンダーギプス固定へ変更して前腕回内外のみ可動域訓練を開始した。術後5週で外固定を除去し，肘関節伸展屈曲可動域訓練を追加した。術後6か月の現在，肘関節伸展0°屈曲140°，回内90°回外90°であり，日常生活に支障はない。また，術後6か月現在の肘関節X線像では PLLA ピンの軽度の逸脱が認められてはいるが，骨片の転位はなく骨癒合は良好であり，橈骨頭の再脱臼も認めていない。また，側面像では橈骨頭前方に骨硬化像を認めるが，異所性骨化と考えており，可動域に問題なく疼痛も認めないため経過観察を行っている(図4-a,b)。



図4. 術後6か月 肘関節単純X線像

a)正面像

b)側面像

骨折部の固定性は良好であり，橈骨頭の再脱臼は認めない。

考 察

小児における外傷性橈骨頭脱臼の大部分は Monteggia 骨折に，それ以外では尺骨の急性塑性変形に合併するとされている⁵⁾．それに対して，尺骨骨折を伴わない橈骨頭単独脱臼の報告例は少ない。

小児の Monteggia 骨折は，上肢骨折全体の5%²⁾，小児肘関節周辺骨折・前腕骨折の約1%とされている⁷⁾．一方，小児橈骨近位端骨折は小児全骨折の1%であり，小児肘関節周辺骨折の5～10%とされている¹⁾．さらに，小児橈骨頸部骨折は小児肘関節周辺骨折の4～14.5%であり，加えて小児橈骨頭骨折は，小児橈骨近位端骨折の7%とされている⁴⁾．以上の頻度を考慮すると，自験例のような小児橈骨頭単独脱臼骨折の頻度は，非常にまれであると推察される。

自験例において，術前の前腕X線側面像にて尺骨骨折は認めず，maximum ulnar bowは1 mm以下で左右差はなく，bowingの定義は満たさなかった．前腕単純X線側面像では，橈骨頭の延長線が上腕骨小頭より近位に位置し，橈骨頭

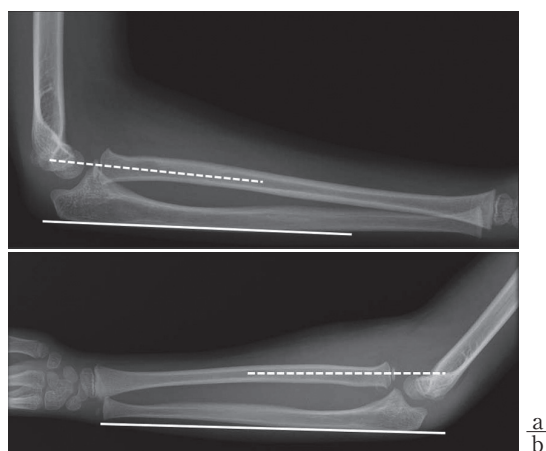


図5. 初診時前腕単純X線側面像

a)右側(健側)

b)左側(患側)

両側の尺骨にbowingは認めない(実線)．それに対して，左側では橈骨骨軸の延長線が上腕骨小頭より前方に位置し，橈骨頭の前脱臼が確認できる(点線)。

の前脱臼が確認された(図5-a,b)．さらに，X線およびCTにて橈骨頭外側に遊離骨片を認めた．以上の画像所見より，自験例は橈骨頭単独脱臼骨折と診断した．

小児橈骨頭骨折の受傷肢位としては，肘関節伸展位での軸圧によるものが一般的である³⁾．肘関

節伸展位にて手掌をつくように転落受傷すると、橈骨頭には地面からの長軸方向への軸圧がかかる。肘関節は生理的に外反していることから、上腕骨小頭と橈骨頭が衝突し、橈骨頭骨折をきたす⁷⁾。それに対して、自験例では肘関節が屈曲した状態で転倒し、縁石が肘関節外側に衝突した。その際の外力によって、肘関節に直接的に外反力が加わり、上腕骨小頭と橈骨頭が接触した状態で橈骨に尺側からの外力が加わった結果、橈骨頭のみが骨折・脱臼したものと推察された。

自験例と同様の小児橈骨頭単独脱臼骨折の報告例は、自験例を含めて4例のみであった⁶⁾⁹⁾¹⁰⁾。しかし、自験例以外の3例とも受傷メカニズムは、肘関節伸展位での軸圧によるものと考察しており、自験例と同様の直達外力による報告例はわれわれが調べた限りではなかった。

橈骨近位端骨折の合併症において重篤なものとして橈尺癒合症が挙げられる。そのため、自験例では術後2週より回内外の可動域訓練を開始した。その他の合併症として、橈骨頭の肥大や無腐性壊死、骨端線の早期閉鎖が報告されている⁷⁾。自験例も、今後長期的な経過観察が必要と考えられる。

まとめ

1) まれな小児の外傷性橈骨頭単独脱臼骨折の1例を経験した。

2) 観血的整復固定術によって、短期ではあるが良好な成績が得られた。

文献

1) Fuentes-Salguero L, Downey-Carmona FJ,

Tatay-Diaz Á et al: Radial head and neck fractures in children. *Rev Esp Cir Ortop Traumatol* **56** : 300-305, 2012.

2) Guven M, Eren A, Kadioglu B et al: The result of treatment in pediatric Monteggia equivalent lesions. *Acta Orthop Traumatol Turc* **42** : 90-96, 2008.

3) Jeffery CC: Fractures of the head of the radius in children. *J Bone Joint Surg* **32-B** : 314-324, 1950.

4) Leung Anthony G et al: Fractures of the proximal radial head and neck in children with emphasis on those that involve the articular cartilage. *J Pediatr Orthop* **20** : 7-14, 2000.

5) Lincoln TL, Mubarak SJ: "Isolated" traumatic radial-head dislocation. *J Pediatr Orthop* **14** : 454-457, 1994.

6) Mandar VA, Ashwin S, Alaric JA: Convergent radioulnar translocation with radial head fracture in a child : A case report and review of the literature. *J Ortho Trauma* **26** : 36-39, 2012.

7) Mark E, Steven F: Fractures of the Proximal Radius and Ulna. ROCKWOOD AND WILKINS' FRACTURES IN CHILDREN 7th ed., Lippincott Williams & Wilkins, Philadelphia, 2006.

8) Murray RC: Fractures of the head and neck of the radius. *British Journal of Surgery* **28** : 106-118, 1940.

9) Nathan LVZ et al: Intra-articular radial head fracture in the skeletally immature patient : progressive radial head subluxation and rapid radiocapitellar degeneration. *J Pediatr Orthop* **31** : 124-129, 2011.

10) 利光哲也, 秦立比古, 江口正雄ほか: 橈骨頭単独脱臼骨折の一例. *整形外科と災害外科* **38** : 1491-1494, 1990.

Abstract

Isolated Fracture-Dislocation of the Radial Head in a Child : A Case Report

Midori Tsurusaki, M. D., et al.

Department of Orthopaedic Surgery, Surugadai Hospital, Nihon University School of Medicine

A case of isolated fracture-dislocation of the radial head in a child is reported. A 6-year-old girl hit her left elbow on a curbstone when she fell down. Plain radiograph and Computed Tomography revealed fracture and anterior-dislocation of the radial head without fracture of the ulna. Open reduction and internal fixation of the radial head fracture was achieved 6 days after injury. 6 months later, the range of motion of the elbow joint was not limited with, no functional complaint. The radial head dislocation in children is usually associated with Monteggia fracture or acute plastic bowing deformity of the ulna. In contrast, there are several reported cases of isolated traumatic radial head dislocation. Otherwise, the radial head fracture represent 0.07% of childhood fractures overall from past reports. It is speculated that the isolated fracture-dislocation of the radial head is extremely rare. The injury mechanism in fracture of the radial head is commonly an axial compression fracture by a fall on the outstretched the elbow joint. However, this case is direct blow on the elbow, and it was considered that our case was also extremely rare.

大腿骨に発生した Focal Fibrocartilagenous Dysplasia の一例

自治医科大学とちぎ子ども医療センター 小児整形外科

村 山 瑛・渡 邊 英 明・萩 原 佳 代・吉 川 一 郎

要 旨 大腿骨に発生した Focal Fibrocartilagenous Dysplasia(以下, FFCD)の骨変形と脚長差に対し, 軟部組織切除術と成長抑制術を行った1例を経験したので報告する. 症例は生後11か月の女児で, 左大腿骨遠位骨幹部内側に発生したFFCDに対して, 1歳時にFibrous band切除術を行った. 術後, 成長とともに内反変形は矯正されたが, 脚長差が残存したため, 8歳時に右大腿骨遠位骨端線の成長抑制術を行った. 再手術後1年経過し, 脚長差は徐々に改善してきている. 大腿骨のFFCDによる骨変形や脚長差の治療では, 比較的侵襲の少ない軟部組織切除術と健側の成長抑制術も選択肢のひとつと考えられた.

はじめに

Focal Fibrocartilagenous Dysplasia(以下, FFCD)は, 幼児期の長幹骨に発生するまれな疾患で, 骨皮質上にFibrous bandが形成され, 成長に伴い骨変形や脚長差が問題になる. 大腿骨に発生したFFCDの骨変形や脚長差の治療は, 軟部組織切除術に加えて, 骨切り術や創外固定器による骨延長術が行われている. 今回, 大腿骨FFCDに対し, 比較的侵襲の少ない軟部組織切除術と成長抑制術の2期的手術で, 骨変形と脚長差の矯正を行った1例を経験したので報告する.

症例呈示

症 例 : 生後11か月の女児.

家族歴, 既往歴 : 特記すべきことなし.

主 訴 : 左大腿の変形・短縮.

現病歴 : 両親が左大腿の内反変形に気づき近医を受診し, 当院へ紹介となった. 身体所見では, 左大腿の内反変形と健側に比し約20 mmの短縮がみられたが, 左股・膝・足関節の関節可動域は

正常であった. 血液生化学的検査に異常はなく, 単純X線検査では左大腿骨遠位骨幹部内側に骨皮質の肥厚と骨透亮像が見られ, 大腿骨の内反変形が認められた(図1). FFCDと診断し, 経過観察としたが徐々に大腿骨の内反変形が進行したため, 1歳2か月時に手術を行った. 手術は大腿骨遠位内側より侵入し, 大腿骨遠位部を展開し, Fibrous bandを確認して, 切除し, 病理組織検査に提出した(図2). 病理組織学的に, Fibrous bandは硝子化した線維性間質からなる組織で, 骨片の断片組織が含まれるが, 骨膜成分はなかった. 術後3年で, 大腿骨の内反変形は徐々に改善したが(図3), 20 mmの脚長差は改善しなかったため(図4), 8歳時に健側の大腿骨に対し, Stapleによる成長抑制術を行った(図5). 成長抑制術後1年経過し, 脚長差は15 mmまで改善してきているが, 引き続き経過観察中である.

考 察

大腿骨発生のFFCDはまれで, 我々が渉猟し得た限りでは, 17例の報告があるのみであった¹⁾⁴⁾

Key words : focal fibrocartilagenous dysplasia(focal fibrocartilagenous dysplasia), femur(大腿骨), child(小児)

連絡先 : 〒 329-0498 栃木県下野市薬師寺 3311-1 自治医科大学とちぎ子ども医療センター 小児整形外科 村山 瑛 電話 (0285)58-7374

受付日 : 2014年6月23日

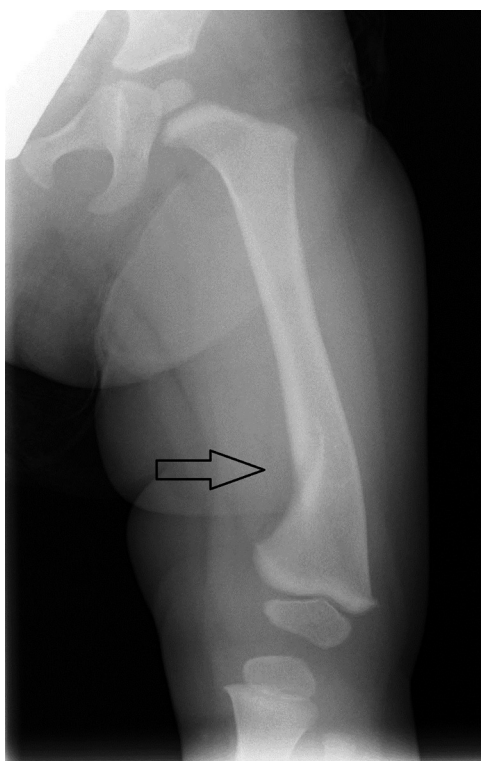


図 1. 初診時単純 X 線(生後 11 か月)

(表 1). Choi らは²⁾, 脛骨に発生した FFCD の 45%が保存的治療で軽快したが, 大腿骨と上腕骨に発生した症例は, 保存的治療では重度の変形と短縮を起こすと報告している^{2)~4)}. 大腿骨の FFCD に対しては, ほとんどの症例で手術療法が選択され, 保存的治療を行った報告は 1 例のみであった¹⁾.

大腿骨の FFCD に対しては, Fibrous band 周囲の搔爬術, 骨膜剥離術, 軟部組織切除のみを行う手術や, 軟部組織切除に, 骨切り術を追加する方法がとられていたが, 全例大腿骨の変形は改善したと報告している¹⁾⁴⁾. このことから, 自験例では, 患児の負担を少なくするため, 軟部組織切除術のみを行い, 成長にしたがい大腿骨の内反変形は矯正された.

Ahmed ら¹⁾は, 大腿骨の FFCD の自然経過において, 内反変形は消失したが大腿骨の短縮が 10 mm 残存したと報告している. また, Poul ら⁵⁾は病変部の搔爬術を行ったが, 10 mm の短縮が

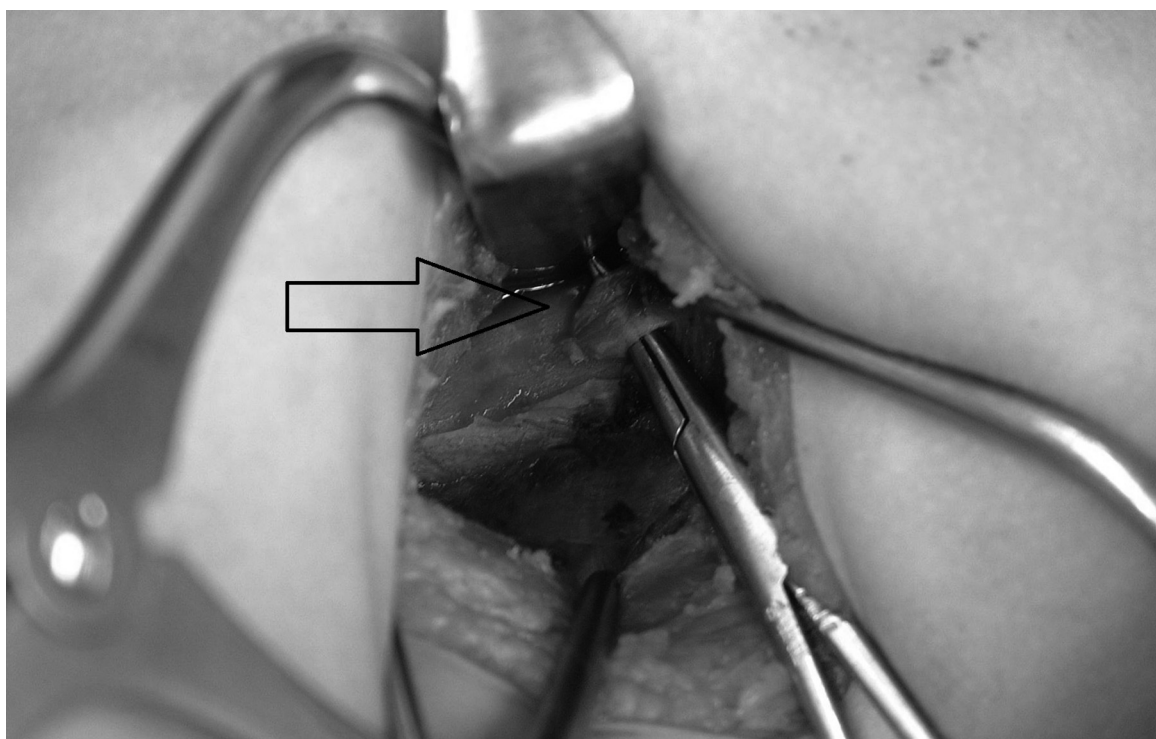


図 2. 手術時所見
病変部に Fibrou bind が見られ, これを切除した.

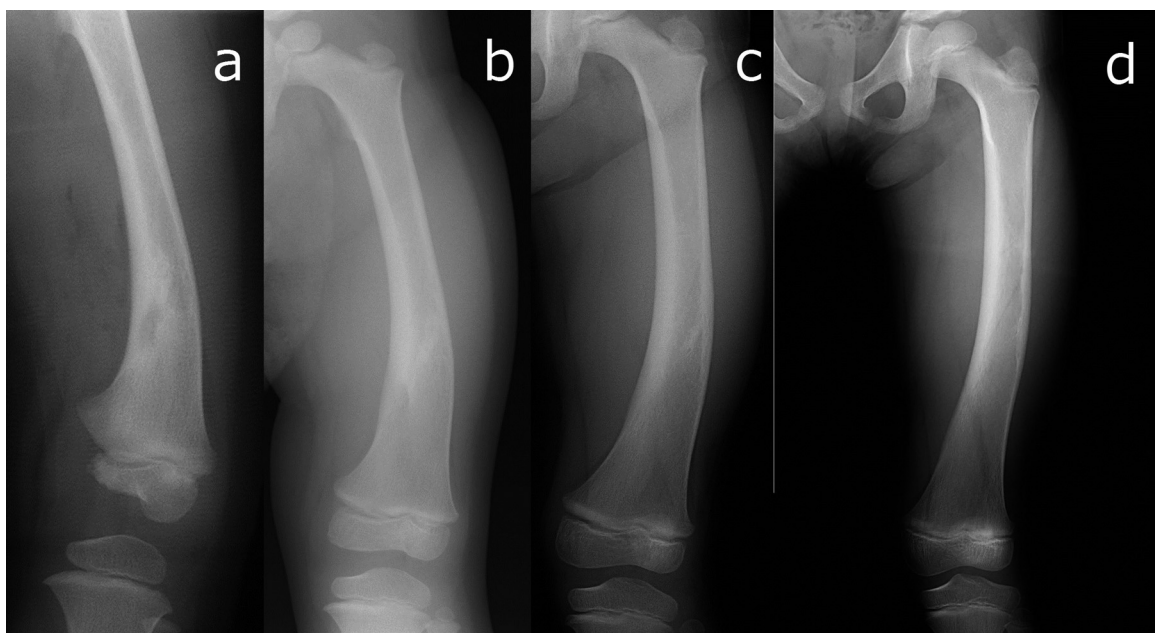


図3. 術後単純 X 線(左より術直後, 術後1年, 術後2年, 術後3年)
徐々に大腿骨の内反変形が改善してきている.

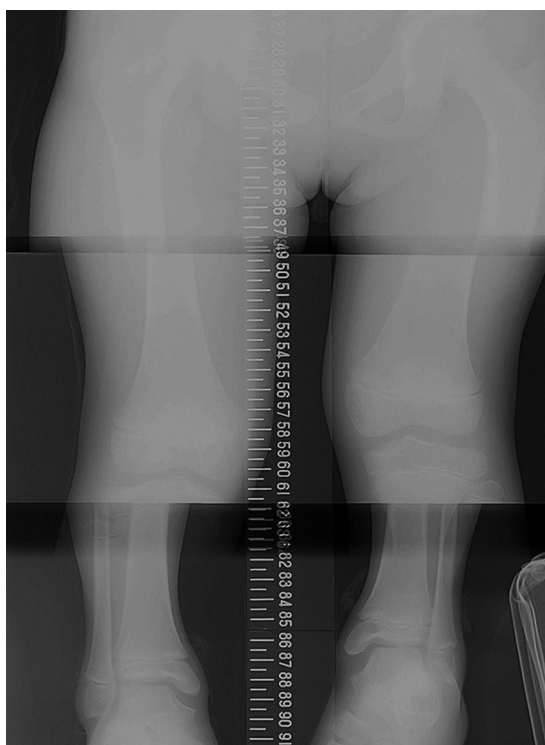


図4. 単純 X 線(オルソ撮影)
術後6年で20 mmの脚長差が残存した.

残存したと報告している. 自験例も6年以上の経過で大腿骨の内反変形は改善したが, 20 mm の



図5. 成長抑制術後単純 X 線
健側の Stapling を行った.

短縮は残存した. そこで, 我々は, 侵襲の少ない健側の成長抑制術を行い, 術後1年経過し, 脚長差が15 mmと少しずつ改善してきた. 現在経過観察中ではあるが, 大腿骨のFFCDによる骨変

表 1. 過去の大腿骨 FFCD の治療と経過(参考文献 4)より引用・改変)

著者	症例数	診断時期 (月齢)	左右	性別	変形	治療	手術時期	結果
Beaty and Barrett 1989	4	30	右	M	外反	骨切り術+軟部切除	54	治癒
		42	右	M	内反	骨切り術+軟部切除	69	治癒
		13	右	F	内反	骨切り術+軟部切除	?	患肢短縮 (詳細不明)
		9	左	M	外反	骨切り術+軟部切除	?	治癒
Vallcanera et al. 1994	1	13	右	M	内反	骨切り術+搔爬術	24	?
Albinana et al. 1997	1	16	左	F	内反	生検+骨膜剥離	?	治癒
Amillo et al. 1998	1	12	右	M	外反	骨切り術×3	44	治癒
Macnicol et al. 1999	2	24	左	M	内反	骨切り術	?	治癒
		14	左	M	内反	骨切り術	?	治癒
Berson et al. 1999	2	15	左	M	内反	搔爬+骨切り術	45	11度内反
		16	右	F	内反	搔爬+骨切り術	29	治癒
Choi et al. 2000	2	17	右	M	内反	骨切り術+イリザロフ	33	治癒
		15	左	F	外反	骨切り術+イリザロフ	25	治癒
Poul and Straka 2003	1	11	左	M	内反	搔爬術	13	10 mm 短縮
Ruchelsman et al 2004	1	20	左	F	外反	搔爬術	27	治癒
Ando et al. 2008	1	2	左	M	内反	組織切除, 骨切り術+搔爬術	24	治癒
Ahmed et al. 2010	1	18	左	F	内反	経過観察		10 mm 短縮
自験例	1	10	左	F	内反	軟部組織切除	14	20 mm 短縮

形と脚長差の矯正手術治療は、比較的侵襲の少ない軟部組織切除術と健側大腿骨の成長抑制術で、治療は可能であると思われた。

まとめ

大腿骨の FFCD による骨変形や脚長差の手術治療は、軟部組織切除術に加えて、変形矯正のための骨切り術や脚長差治療のための創外固定器による骨延長術を行わずとも、比較的侵襲の少ない軟部組織切除術と健側の成長抑制術で治療が可能であると思われた。

文献

1) Ahmed M T, Mohan V B, John E H:

Spontaneous resolution of anglar deformity of the distal femur in focal fibrocartilaginous dysplasia : a case report J Pediatr Orthop **19** : 161-163, 2010.

2) Choi I H, Kim C J, Cho T J et al: Focal fibrocartilaginous dysplasia of long bone : report of eight additional cases and literature review. J Pediatr Orthop **20** : 421-427, 2000.

3) Eren A, Cakar M, Erol B et al: Focal fibrocartilaginous dysplasia in the humerus. J Pediatr Orthop **B15** : 449-452, 2006.

4) Jorve J L, Kohler R, Mubarak, S J et al: Focal fibrocartilaginous dysplasia ("fibrous periosteal inclusion") : an additional series of eleven cases and literature review. J Pediatr Orthop **27** : 75-84, 2007.

5) Poul J, Straka M: Periosteal tethering of growth

plates in long bones (focal fibrocartilaginous dysplasia). Acta Chir Orthop Traumatol

Cechoslov 7 : 182-186, 2003.

Abstract

A Case of Focal Fibrocartilaginous Dysplasia in the Femur

Akira Murayama, M. D., et al.

Department of Pediatric Orthopedic Surgery, Jichi Medical Children's Center, Tochigi.

We treated a patient with bone deformity and leg length discrepancy due to femoral focal fibrocartilaginous dysplasia (FFCD) with relatively less-invasive soft tissue resection and surgical growth inhibition, and a favorable outcome was achieved. The patient was a girl 11 months of age. At the age of 1 year, fibrous band resection was applied for FFCD that developed in the medial side of the left distal femoral diaphysis. Varus deformity was corrected with growth after surgery, but leg length discrepancy remained, for which epiphyseal closure to inhibit bone growth was applied to the right distal femur. As of one year after surgery, leg length discrepancy has been slowly improving. Bone deformity and leg length discrepancy due to femoral FFCD may be treated by relatively less-invasive soft tissue resection and bone growth inhibition on the healthy side.

Gorham 病による大腿骨病的骨折の 1 例

松 村 宣 政¹⁾・大 野 一 幸²⁾・吉 川 秀 樹³⁾

1) 八尾市立病院

2) 大阪みなと中央病院

3) 大阪大学医学系研究科器官制御外科学

要 旨 Gorham 病は、血管腫やリンパ管腫による骨組織の進行性溶解を特徴とする、きわめてまれで治療方法が確立されていない難治性の疾患である。我々は Gorham 病による大腿骨病的骨折の 1 例に対して手術を行ったが、骨癒合が得られなかった症例を経験したので報告する。12 歳男児、5 歳時に跛行を主訴に近医を受診し、右踵骨の骨溶解像を指摘された。右踵骨部の生検でリンパ管腫を認めたため、Gorham 病の確定診断を受け、以降は経口ステロイド製剤と経口ビスホスホネート製剤で保存加療されており、日常生活動作の制限はなかった。今回、階段昇降時に明らかな誘因なく疼痛が出現し、右大腿骨病的骨折と診断された。Ilizarov 創外固定器による固定に加えて、pamidronate の投与を併用した治療を行った。術後 11 か月で仮骨形成を確認し、抜釘術を施行したが同部位で骨折が生じた。

はじめに

Gorham 病とは、血管腫やリンパ管腫による局所的な骨組織の進行性溶解を特徴とする、きわめてまれで、治療方法が確立されていない難治性の疾患である。Gorham 病は Gorham-Stout syndrome, Massive osteolysis, Vanishing bone disease などの名で呼ばれることもある。病理組織では、洞様毛細状や海綿状に発達した壁の薄い血管やリンパ管が骨内に浸潤し、骨組織は血流の豊富な線維性組織で置換されていると報告されている⁸⁾。Heffez²⁾の診断基準では、①生検で血管腫やリンパ管腫が証明され、②悪性所見は認めず、③骨芽細胞の反応がほとんどなく、④変性壊死した石灰化を認めず、⑤進行性の骨吸収があり、⑥内臓に浸潤傾向を認めず、⑦遺伝素因、代謝性疾患、腫瘍、免疫疾患や感染がないことが挙げられている。疾患の病態は、近年の研究で Gorham 病の

患者では血中の Interleukin-6(IL-6)値が上昇しており、IL-6 が破骨細胞の活動を活性化するばかりか、さらに破骨細胞前駆細胞の Interleukin-1, Tumor necrosis factor に対する感受性を高めるために局所での骨溶解が亢進していると報告されているが⁴⁾、組織学的に破骨細胞が確認できない場合もあり、まだ統一した見解がない。病的骨折した際の治療は手術に加えて、放射線治療、ビスホスホネート製剤やインターフェロンの投与などの併用治療が行われることが多いが、骨癒合が得られず、治療に難渋する場合もある。今回、Gorham 病による大腿骨病的骨折の 1 例に対して Ilizarov 創外固定器による固定とビスホスホネート製剤の経静脈投与による加療を行ったが、骨癒合が得られなかった症例を経験したので報告する。

Key words : Gorham disease(Gorham 病), femur(大腿骨), pathological fracture(病的骨折)

連絡先 : 〒 581-0069 大阪府八尾市龍華町 1-3-1 八尾市立病院 松村宣政 電話(072)922-0881

受付日 : 2014 年 4 月 13 日

症 例

12 歳，男児．5 歳時に跛行を主訴に近医を受診し，単純レントゲン画像で右踵骨の骨溶解像を指摘された．踵骨の病理組織学的検査でリンパ管腫が証明され，Gorham 病と確定診断された．それ以降，経口ステロイド製剤と経口ビスホスホネート製剤投与による保存加療を継続されていた．特に症状もなく，スポーツ活動も可能であった．今回，階段を昇る際に誘因なく右大腿部に疼痛が出現し，単純レントゲン画像で右大腿骨病的骨折と診断され当院に紹介となった．単純レントゲン画像で右大腿骨骨幹部に AO 分類 32-A1 の螺旋骨折を認めた．大腿骨骨幹部から遠位骨端部まで虫食い状の骨萎縮像を認めた(図 1)．リンパ管腫による骨溶解像は，大腿骨だけではなく，中足骨，足根骨，腓骨，脛骨，骨盤まで右下肢全体に広がっていた(図 2-a～c)．骨折受傷前の MRI 画像にても大腿内側から骨内の広範囲にリンパ管腫を認めた(図 3)．右下肢全体がリンパ浮腫の状態であり，内固定を行うと皮膚切開部からリンパ液の漏出が危惧されることや骨質が不良で固定性に不安があったため，侵襲の少ない Ilizarov 創外固定器による固定を選択した．手術後に大腿内側のリンパ管腫を貫いているワイヤーからのリンパ液流出が止まらずに，総蛋白値が術前の 8.2 g/dL から 4.1 g/dL まで低下して低蛋白血症となったため，ワイヤーを抜去して血管腫のない外側からのハーフピンに入れ替えた(図 4)．その後は速やかな総蛋白値の回復を認めた．初診時血液生化学検査において尿中 I 型コラーゲン架橋 N-テロペプチド(NTx)が 1924 nmol BCE/mmol Cr(成人男性の正常値：13.0～66.2 nmol BCE/mmol Cr)と高値であり，小児の正常値は不明であるが，骨折の影響や小児であることも考慮しても骨吸収が亢進した状態であると考えられたことと，これまでの症例報告では Gorham 病による大腿骨の病的骨折の症例で，手術だけで骨癒合が得られた例が少ないため，骨吸収を抑制する目的で，ビタミン D とカルシウムを補充の上で，pamidronate 30 mg，



図 1. 初診時単純レントゲン画像
右大腿骨骨幹部骨折 AO 分類 32-A1 大腿骨骨幹部から遠位骨幹端部まで虫食い状の骨萎縮像を認める．

3 日間の点滴を手術後 25 日目から 4 か月に 1 度，計 3 回施行した．Gorham 病に対する pamidronate の投与量のガイドラインがないため，骨形成不全症の 3 歳以上の症例に対するガイドラインのプロトコルを参考にして投与した．Gorham 病は本剤の適応疾患ではないので保護者から同意を得て，病院の倫理委員会の承認を受けた．Pamidronate の投与による発熱，けいれん，低カルシウム血症の出現はなかった．NTx 値はその後順調に低下し，投与後 8 か月で 291 nmol BCE/mmol Cr になった(図 5)．単純レントゲン画像で骨折部に仮骨形成があり，創外固定器のロッドを除去しても疼痛や骨折部の変形が生じないことを確認して，術後 11 か月で抜釘を行い(図 6)，体幹から足部までの装具を着用してリハビリテーションを行った．しかし，骨癒合が得られておらず，抜釘後 3 か月で骨折が生じた．再骨折部に対して逆行性髄内釘固定と骨移植を行い，現在経過観察中である．

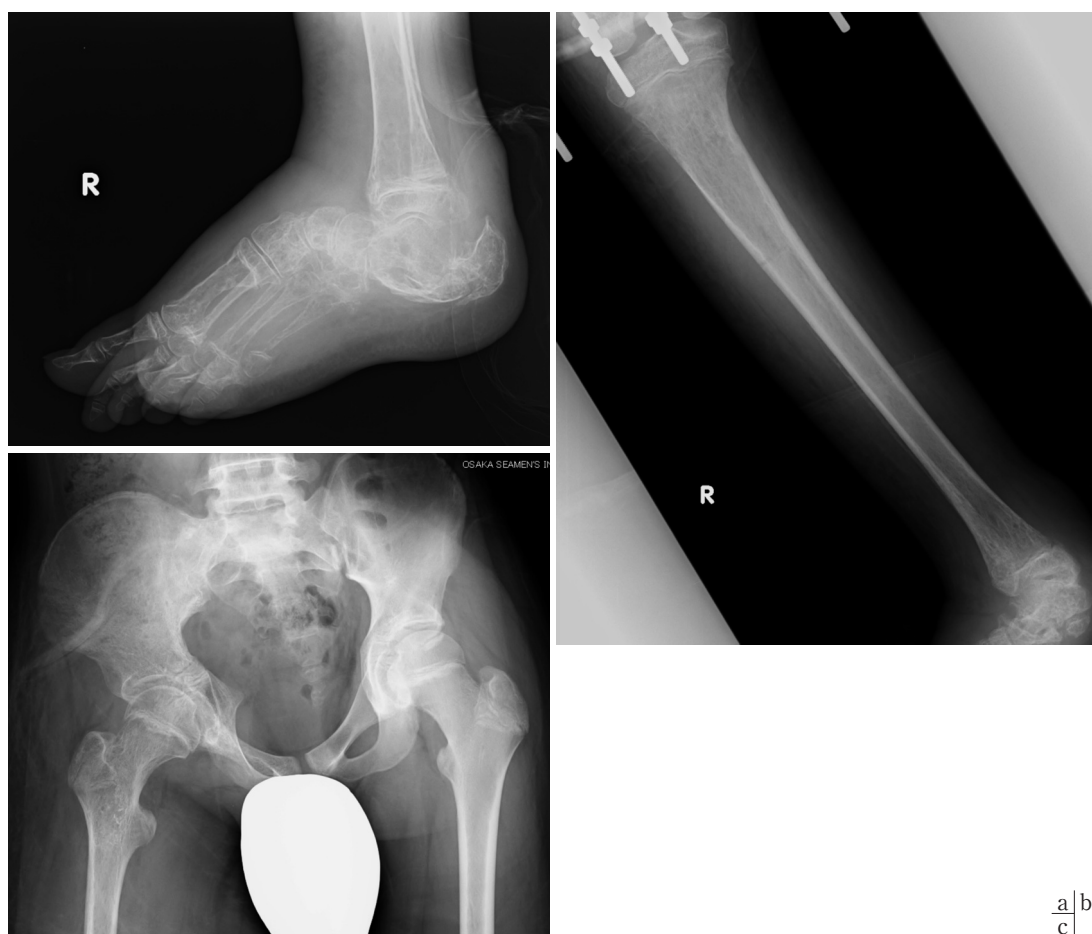


図 2. 初診時単純レントゲン画像

a: 右中足骨や足根骨に骨溶解を認める. b: 右腓骨は近位と遠位の一部を残してほぼ全長消失している. c: 右骨盤にも骨溶解が及んでいる.

考 察

Gorham 病は、全身のいずれの骨にも発生すると報告されているが、本例のように大腿骨に罹患した報告は比較的少ない. Henrica ら³⁾は、大腿骨に罹患した Gorham 病 22 症例についてまとめて報告している. 男性 10 例、女性 12 例、年齢は 5 歳から 77 歳で平均年齢 24.2 歳. 罹患部位は大腿骨近位が 14 例、骨幹部が 6 例、遠位が 2 例であった. 初診時に骨折を認めたものが 19 例、なかったものが 2 例、不明が 1 例であった. Angle plate を用いた内固定に加えて自家脛骨と自家腸骨骨移植を行い、放射線治療を併用した 1 例での

み骨癒合が得られた. それ以外の 21 例においては、最終的には 6 例で大腿離断か股関節離断を、7 例で人工関節置換術を、8 例は装具治療や無治療で経過観察をしたと記載されており、治療には難渋する場合が多い. 一方 Ruggieri ら⁹⁾は、1968 年から 2008 年までの 13 例の Gorham 病の報告の中で、大腿骨 Gorham 病の 8 例に対して手術、放射線治療、ビスホスホネート製剤、インターフェロン、カルシトニン、TAE で治療を行い、経過観察可能であった 5 例中 4 例で平均観察期間 18.5 年において病変部は安定して進行せず、残りの 1 例では治癒したと報告している. この報告でも 2 例では関節を越えて隣接する脛骨や坐骨に病

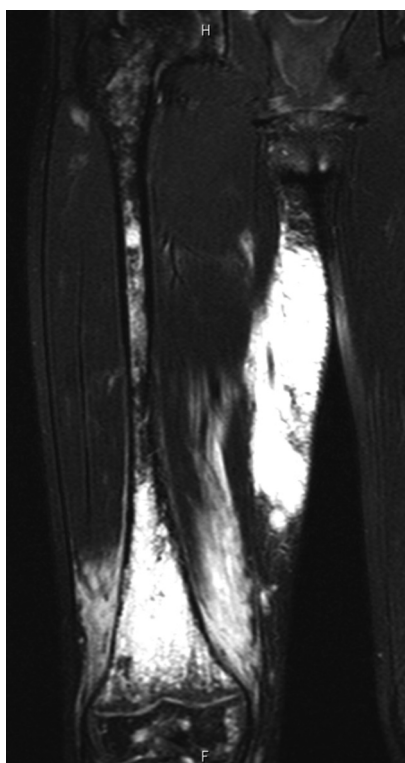


図 3. 骨折受傷前右大腿 MRI 画像
大腿内側から骨内にかけて広範囲にリンパ管腫を認める。

変が生じており、Gorham 病は単骨性或多骨性の例があり、発生部位や範囲によって単骨性ではその部分を人工関節に置換することで対応可能であるが、本例のような広範囲で多骨性の場合には、人工関節置換術は適応とならず、治療は困難となることが多い。

Gorham 病の大腿骨病的骨折の手術固定方法は、髓内釘やプレートであり、創外固定器の使用報告はないが、リンパ管腫に浸潤され脆弱化している骨に手術侵襲を加えることは骨癒合を遷延させると本例では考え、Ilizarov 創外固定器による経皮的な固定を選択した。脆弱化した骨でも、多方向からワイヤーで固定することで、十分な固定性は得られた。ただ、大腿内側にリンパ管腫があり、そこを貫く Ilizarov ワイヤーからのリンパ漏が生じ、低蛋白血症が生じたために、外側からのハーフピンに変更した。変更後はリンパ漏が止まり、感染も生じなかった。Henrica ら³⁾は、大腿骨

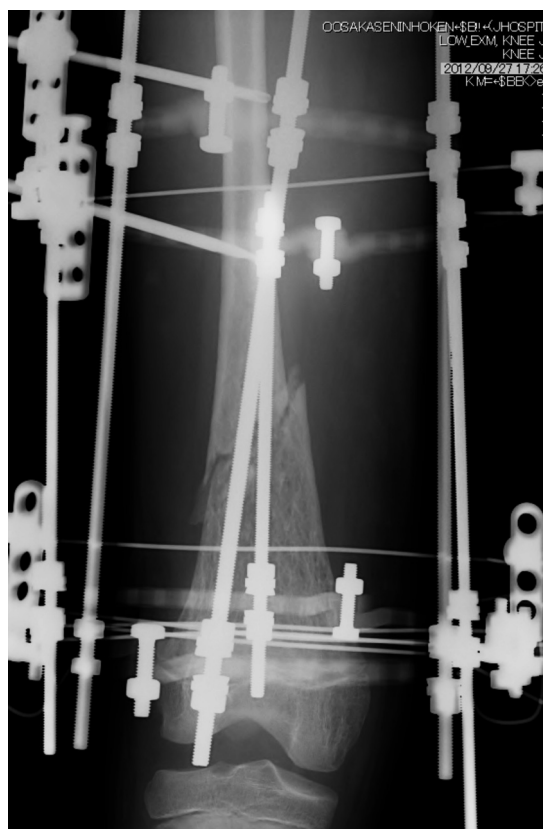


図 4. 手術後単純レントゲン画像
ハーフピンとワイヤーにより良好な固定性をえた。

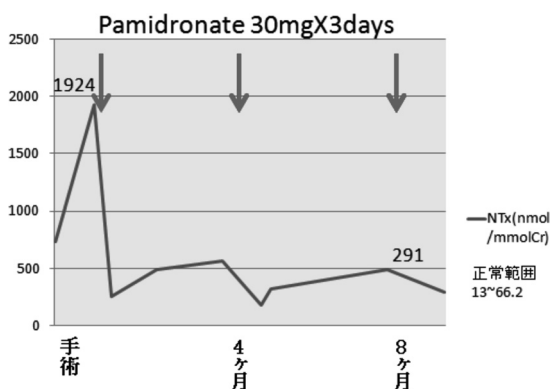


図 5. NTx の推移
pamidronate の経静脈投与後は順調に低下した

Gorham 病 19 症例中 3 症例で仮骨の形成が確認されたが、その後に仮骨が吸収されたと述べており、本例でも通常の小児大腿骨骨折後に観察されるような旺盛な仮骨形成がなく、骨膜性の仮骨が認められるのみであった。Gorham 病では、正常



図 6. a, b: 抜釘時単純レントゲン画像 骨膜性の仮骨形成が確認できた。大腿骨遠位, 脛骨近位の成長軟骨帯に pamidronate 投与による石灰化像を認める。

な骨癒合過程が障害されていることが示唆される。

Gorham 病による病的骨折の報告で、内固定を行っても病勢のコントロールができないと骨溶解が進行し、固定力が低下し内固定が破綻することから手術後の補助療法として放射線治療、ビスホスホネート製剤やインターフェロンの投与が単独であるいは組み合わせて施行されている。放射線治療に関して Kai ら⁵⁾は、計 40～45 Gy の照射が適切で、骨溶解の進行が止まっただけでなく、吸収された骨の骨化が観察されたと述べている。ビスホスホネート製剤に関して Hammer ら¹⁾は 45 歳女性の左 9～11 肋骨に発生した Gorham 病に対して pamidronate 30 mg を 3 か月ごとに経静脈投与して疼痛は消失し、骨溶解の進行も停止し、2 年経過しても骨溶解の進行は認めないため、ビスホスホネート製剤単独での治療でも骨溶解の進行を抑制できると報告している。インターフェロンの有効性については Shimizu ら⁸⁾が、中手骨に発生した Gorham 病に対して interferon- α を毎日 1,500,000 units/1 vial を 2 週間筋肉内注射し、単純レントゲン画像で溶解して消失した中手骨が再度骨化して出現し、病理組織でも骨芽細胞

に囲まれた骨の再形成が確認できたと報告している。Kuriyama ら⁷⁾は、16 歳女性の胸郭に罹患した Gorham 病で乳び胸を呈した症例に対して、zoledronate の経静脈投与と peg-interferon-2b の皮下投与を行い、投与後 7 か月で胸水が消失し、2 年経過しても骨溶解の進行や胸水の再発を認めなかった自験例と、その報告以外にこれまでの 43 症例をまとめており、放射線治療、手術、ビスホスホネート製剤、インターフェロン、ステロイド、カルシトニンなどをさまざまに組み合わせて加療した報告があるが、骨溶解が進行した例も寛解した例もあり、罹患部位も異なるためどの治療法が最善であるかは決定できないと述べている。一方で、無治療で経過観察したところ骨溶解が停止した症例も 43 例中 5 例報告されており⁹⁾、骨溶解が自然寛解することもある。本症例では保護者が若年であることから、二次性の悪性腫瘍の出現を危惧して放射線治療を希望されず、ビスホスホネート製剤の経静脈投与を選択した。Gorham 病に対する投与量についての報告やガイドラインがないため、用法用量はガイドラインがある骨形成不全症のものを参考にし、1.0 mg/kg を

3日間で、4か月ごとに投与した。骨吸収マーカーは投与後速やかに減少して骨吸収に関しては投与効果があったと考えたが、リンパ管腫の抑制効果はなく骨癒合は得られなかった。

大腿骨骨幹部骨折に対して受傷後短期間におけるビスホスホネート製剤投与例の報告はなく、骨折治癒過程における薬剤の影響が危惧されたが、Kiely ら⁶⁾は仮骨延長後に仮骨形成が不良であった7例のうち3例に対して pamidronate を、4例に対して zoledronate を投与し、6例で骨形成が促進したと報告していることから、ビスホスホネート製剤は骨吸収が亢進した特殊な状況下では骨形成を阻害しないと考えられる。

まとめ

Gorham 病による大腿骨病的骨折に対して、創外固定器による固定とビスホスホネート製剤の経静脈投与で加療を行ったが、骨癒合が得られなかった。

文献

- 1) Hammer F, Kenn W, Wesselmann U et al: Gorham-Stout disease-Stabilization during bisphosphonate treatment. J Bone Miner Res 20 : 350-353, 2005.
- 2) Heffez L, Doku HC, Carter BL et al: Perspectives on massive osteolysis : report of a

case and review of the literature. Oral Surg Oral Med Oral Pathol 55 : 331-343, 1983.

- 3) Henrica MJ, Linden Z, Gerard JO et al: Massive osteolysis (Gorham's disease) affecting the femur. Acta Orthop Belg 72 : 261-268, 2007.
- 4) Hirayama T, Sabokbar A, Itonaga I et al: Cellular and humoral mechanisms of osteoclast formation and bone resorption in Gorham-Stout disease. J Pathol 195 : 624-630, 2001.
- 5) Kai B, Ryan A, Munk PL et al: Gorham disease of bone: three cases and review of radiological features. Clin Radiol 61 : 1058-1064, 2006.
- 6) Kiely P, Ward K, Bellemore MC et al: Bisphosphonate rescue in distraction osteogenesis. J Pediatr Orthop 27 : 467-471, 2007.
- 7) Kuriyama DK, McElligott SC, Glaser DW et al: Treatment of Gorham-Stout disease with zoledronic acid and interferon- α : A case report and literature review. J Pediatr Hematol Oncol 32 : 579-584, 2010.
- 8) Patel DV: Gorham's disease or massive osteolysis. Clin Med Res 3 : 65-74, 2005.
- 9) Ruggieri P, Montalti M, Angelini A et al: Gorham-Stout disease: the experience of the Rizzoli institute and review of the literature. Skeletal Radiol 40 : 1391-1397, 2011.
- 10) Shimizu T, Sato K, Yoshida T et al: A case report of Gorham-Stout syndrome remission. J Orthop Sci 17 : 199-204, 2012.

Abstract

Pathological Fracture in the Femur caused by Gorham Disease

Nobumasa Matsumura, M. D., et al.

Department of Orthopaedic Surgery, Yao Municipal Hospital

We report the incidence of a difficult case of a pathological fracture in the femur in a 12-year-old boy with Gorham disease that had been diagnosed at 5 years old. Gorham disease is extremely rare and is characterised by progressive osteolysis due to angioma and/or lymphangioma invasion. In our case diagnosis was confirmed histologically from biopsy specimens from the right calcaneus absorbed due to lymphangioma. There is no recognised treatment. At 12 years old, the patient suffered a femoral fracture. This was treated using Ilizarov external fixation together with intravenous pamidronate. After 11 months, the external fixation was removed but bony union was not achieved.

第2趾多趾症の治療経験

神谷 庸成¹⁾・堀井 恵美子²⁾・服部 義³⁾
北小路 隆彦³⁾・岩田 浩志³⁾・北村 暁子³⁾

1) 東栄町国民健康保険東栄病院整形外科

2) 名古屋第一赤十字病院整形外科

3) あいち小児保健医療総合センター整形外科

要 旨 多趾症の多くは軸後性で、第2趾多趾症は軸前性と同様に頻度が少なく、第2趾多趾症の臨床像をまとめた報告はほとんどない。我々が経験し、手術した第2趾多趾症15例15足について、臨床像を検討した。性別は男児9例、女児6例、罹患側は左6例、右9例で全例片側罹患であった。四肢合併症および家族歴は全例で認められなかった。多趾は中節骨以遠でV字形に分岐したタイプが13例と、典型像を示した。手術時平均年齢は3歳4か月で、全例腓骨側を切除し、軟部組織の形成を行い、脛骨側を中央化した。術後平均観察期間は2年2か月で、長期経過観察例の中には、爪の外観上の異常が改善された症例もあり、再手術を必要とした症例はなかった。歩行や靴の着脱などでの障害の訴えも見られなかった。さらなる症例の蓄積が必要ではあるが、第2趾多趾症は他の多趾症および手指の中央列多指症とも異なる、特異的な発生形態の疾患と考えられた。

序 文

多趾症は出生1万人当たり5~6人程度と比較的発生頻度の高い先天異常であるが、中央列多趾症は多趾症のうち6~8%と報告されておりまれである²⁾³⁾⁵⁾。中央列の中では第2趾に発生することが多いとされているが、渉猟し得た限りでは第2趾多趾症として症例をまとめた報告はなく、その特徴は明らかにされていない。我々が経験した第2趾多趾症において、特徴的な臨床像を認めたため報告する。

対象・方法

対象は当科関連施設において第2趾多趾症と登録され、手術を行った15例15足である。裂手裂足症および四肢多指症に合併する症例は除外し

た。診療記録および単純X線像から、性別、罹患側、手術時年齢、合併症、家族歴、切除側、術後成績を調査した。

結 果

性別は男児9例、女児6例と男児が多かった。罹患側は左6例、右9例と右に多く、全例片側罹患で両側例はなかった。四肢合併症および家族歴は全例で認められなかった。手術時年齢は3か月から12歳4か月の平均3歳4か月であった。多くは1歳前後で手術したが、初診時年齢がすでに高かった3例と、両親が全身麻酔に同意されず、局所麻酔が可能となる年齢まで待機した1例が含まれている。

多趾は中節骨以遠でV字形に分岐したタイプ(図1)が13例と、典型的な臨床像を示した。ほ

Key words : polydactyly(多趾症), congenital anomaly(先天異常), treatment(治療), foot(足), second toe(第2趾)

連絡先 : 〒449-0216 愛知県北設楽郡東栄町大字三輪字上栗5 東栄町国民健康保険東栄病院 神谷庸成

電話 (0536) 79-3311

受付日 : 2014年4月1日



図1. 長期観察症例

a: 初診時肉眼所見

b: 初診時 X 線像 第2趾は末節骨高位で V 字形に分岐している典型像を呈していた。重複趾の爪は第3趾から第5趾と比較し低形成であった。

c: 術後5年時肉眼所見 偏心性ではあるが、他趾との爪の大きさの差は成長に伴い改善してきている。

a|b|c

かに、腓骨側に非常に小さな重複趾が存在した例と、第2～3合趾を形成していた症例が各1例あった。全例腓骨側を切除し、軟部組織の形成を行い、脛骨側を中央化した。

術後平均観察期間は2年2か月で、長期経過観察し得た症例の中には、爪の外観上の異常が改善された症例もあったが、再手術を必要とした症例はなかった。歩行や靴の着脱などでの障害を訴えることはなかった。

考 察

「多趾症」としての臨床報告は散見されるが、第2趾多趾症の臨床像についてまとめた報告は渉猟し得た限りなかった。発生頻度に関して見ると、軸後性が最も多く、第2趾多趾症を含む中央列多趾症は、軸前性と同様に頻度が低い。我々の関連施設においても、1990年以來の23年間で、第2趾多趾症は15例しかなかった。家族歴、合併症に関して見ると、軸前性では家族歴を13.6～28.6%、四肢合併症を26.9～71.4%と、他の多趾症と比較し高率に認めることが報告されている³⁾⁴⁾⁷⁾。我々の経験でも、軸前性では家族歴が32.5%、四肢合併症が52.5%と高率であるのと比較して、第2趾多趾症では、軸後性と同様にいずれもまれであった¹⁾。「多趾症」では一般的には手術的再建が行われるが、再手術率を見ると、軸前

性では22%と高率であったが¹⁾、第2趾多趾症では、軸後性と同様、初回に適切な手術を行えば術後合併症や再手術例はなかった。

中央列多趾症として10例以上をまとめた報告は非常に少ないが、それらの比較を表1に示す³⁾⁶⁾⁷⁾。我々は、裂手裂足症・四肢多指症を除外したが、これらの報告では除外していないため、対象は若干異なっている。報告された中央列多趾症の多くは第2趾多趾症であった。Watanabeらの報告および今野らの報告では、ともに90%以上が片側罹患であったものの、少数の両側例を認めていた。詳細の記載はなかったものの、四肢多指症の症例を含んでいることが、我々との差を生じた原因と考えられた。そのような背景を踏まえた上でも、家族歴はいずれの報告でも少なかった。合併症の存在した割合は20%程度と報告されており、前述した軸前性より少ないものの、我々の症例群より多かった。さらに、Watanabeらの報告では、対側の軸前または軸後性多趾を合併症としては含めておらず、実際にはさらに多かったと考えられる。この原因として、対象が異なることも一因ではあると思われるが、詳細の記載が乏しく、それ以上の検討は困難であった。分岐高位については、Phelpsらの報告を除けば、遠位が多いと言える。

手指の多指症と形態異常に関して比較してみる

表1. 中央列多趾症についての報告

報告者	Watanabe et al ⁵⁾	今野ほか ²⁾	Phelps et al ¹⁾
症例数(第2趾)	15例(14例)	26例(24例)	12例(-)
全多趾症中の割合	6%	8%	6%
性別	-	男15例, 女11例	-
患側	片側14例 両側1例	右17例, 左7例 両側2例	-
家族歴	なし	2例(7.6%)	-
合併症	3例(20%)	6例(23%)	-
分岐高位	末節骨 38%	30%	25%
	中節骨 31%	35%	0%
	基節骨 13%	20%	0%
	中足骨 6%	15%	75%

- : 記載なし

と, 日本手外科学会分類で, 母指多指症の2型は末節骨高位での分岐型で, 我々の経験した典型的な第2趾多趾症と類似していた。しかし, 手指においても中央列多指症は, 合指症に合併する症例が大多数で, 独立した多指症としての報告は見られなかった。

以上より, 第2趾多趾症は遠位でV字形の特徴的な分岐を呈し, 軸後性と異なり頻度がまれで, 軸前性と異なり家族歴や合併異常はまれで, 多くの症例が片側罹患であるという, 他の多趾症と異なる特徴を持っていると言える。また, その臨床像は手指の中央列多指症とも異なっていた。症例数が少ないので, さらなる症例の蓄積が必要ではあるが, 第2趾多趾症は特異的な発生形態の

疾患と考えられた。

結 論

中央列多趾の中に, 第2趾多趾症として, 他の多趾症と異なる臨床像を呈する症例群を報告した。家族歴はなく, 合併異常を伴わず, 片側罹患であり, 遠位でV字形の分岐形態を示した。

文献

- 1) 神谷庸成, 堀井恵美子, 鬼頭浩史ほか: 軸前性多趾症の臨床像について. 日小整会誌 21 : 45-48, 2012.
- 2) 鴨原 康, 今野宗昭: 足先天異常の疫学的検討. 日小整会誌 9 : 93-96, 2000.
- 3) 今野みどり, 平瀬雄一: 足多趾症の臨床像および小趾列多趾症の術後成績と手術方法の検討. 日形会誌 17 : 211-225, 1997.
- 4) Masada K, Tsuyuguchi Y, Kawabata H et al : Treatment of preaxial polydactyly of the foot. Plast Reconstr Surg 79 : 251-258, 1987.
- 5) 岡 一郎, 秋山正博, 上野治彦ほか: 多趾症の臨床像の検討. 形成外科 24 : 303-313, 1981.
- 6) Phelps DA, Grogan DP : Polydactyly of the foot. J Pediatr Orthop 5 : 446-451, 1985.
- 7) Watanabe H, Fujita S, Oka I : Polydactyly of the foot : An analysis of 265 cases and a morphological classification. Plast Reconstr Surg 89 : 856-877, 1992.

Abstract

Polydactyly of the Second Toe

Yasunari Kamiya, M. D., et al.

Department of Orthopaedic Surgery, Toei Hospital

Polydactyly in the second toe is a rare condition with few reports on the clinical presentation. Here we report the clinical presentation in 15 unilateral cases (left side in 6 cases, and right side in the other 9 cases) involving 9 boys and 6 girls. There was no complication in the extremities, and no familial history, in all cases. In 13 cases, duplication presented a V-shape at the level of the distal or middle phalanx. Their mean age at operation was 3 years 4 months. Surgery involved resecting the fibular-side duplication, and making the tibial side central, in all cases. The mean follow-up duration was 2 years 2 months. The preoperative hypoplastic nail of the duplicated toe was improved postoperatively in the long term. At most recent follow-up, there was no complaint for gait or shoes. Although further cases should be accumulated for review, the present findings show that the clinical presentation of polydactyly in the second toe was different from other polydactyly in the foot and different from central polydactyly in the hand.

当センターにおけるボツリヌス治療の現状

平 島 淑 子¹⁾・二 見 徹²⁾

1) 滋賀県立小児保健医療センター リハビリテーション科

2) 滋賀県立小児保健医療センター 整形外科

要 旨 当センターでは2006年からボツリヌス治療(Botulinum Toxin:以下, BTX)を行っている。今回その現状と問題点について検討した。BTXを受けた191例を対象に、疾患、粗大運動機能分類システムによる重症度、開始時年齢、施注回数、使用量、施注箇所および部位、リハビリテーション(以下、リハ)通院歴、転帰について調査した。疾患は脳性麻痺が145例、粗大運動機能分類システムはレベルⅤが最も多かった。開始年齢は平均9歳9か月、施注回数は平均4回、使用量は平均130.1単位/回であった。施注部位は股関節周囲が最も多く、また、全体の約87%がリハを併用していた。転帰は継続が115例、中止が64例、終了が12例であった。BTX治療は比較的安全で有効性が高く、年々増加傾向にある。麻痺性尖足に対しては術後歩容の予測や手術時期の延期など手術成績向上の可能性がある。重症心身障害児に対しても筋緊張の低下や姿勢の改善がみられるが、従来の経口筋弛緩薬、リハや整形外科・機能神経外科治療との連携が大切である。

はじめに

当センターでは、滋賀県内外の小児および成人の痙縮患者を対象に2006年からA型ボツリヌス毒素(Botulinum Toxin Type A: 以下, BTX-A)治療を行っている。今回その現状と問題点について報告する。

対象と方法

当センターにてBTX-A治療を受けた191例(平均9歳9か月、男性102例、女性89例)を対象とした。疾患の内訳は脳性麻痺145例、後天性疾患(外傷・炎症等)14例、神経筋疾患9例、染色体異常7例、骨関節疾患5例、先天奇形6例、その他5例であった。調査項目としては、①粗大運動機能分類システム³⁾(Gross Motor Function Classification System: 以下, GMFCS)による重

症度、②BTX-A治療開始時年齢、③BTX-A施注回数、④1回当たりのBTX-A使用量、⑤BTX-A施注部位、⑥リハビリテーション(以下、リハ)通院歴、⑦転帰の7項目について検討した。

結 果

① GMFCSによる重症度

レベルⅤの重症心身障害患者が112例と最も多く、レベルⅣ以上の重症心身障害患者が全体の約78%を占めた。また、レベルⅢのこらうじて歩行維持可能な症例が4例と最も少なかった(図1)。

② BTX-A治療開始時年齢

開始年齢は4か月～43歳6か月と幅広く2歳未満も12例存在した。就学時期に相当する7歳頃、第二次成長期に相当する14歳前後、および成人期に増加傾向を認めた(図2)。

Key words : botulinum toxin(ボツリヌス毒素製剤), gross motor function classification(粗大運動能力分類システム), cerebral palsy(脳性麻痺)

連絡先 : 〒524-0022 滋賀県守山市守山5-7-30 滋賀県立小児保健医療センター 平島淑子 電話(077)582-6200

受付日 : 2014年5月8日

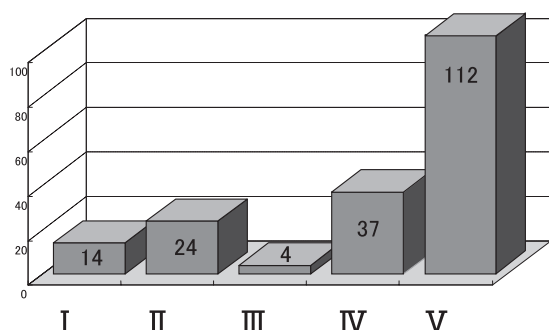


図1. GMFCSによる疾患重症度
レベルVの重症心身障害児が112名と最も多かった。

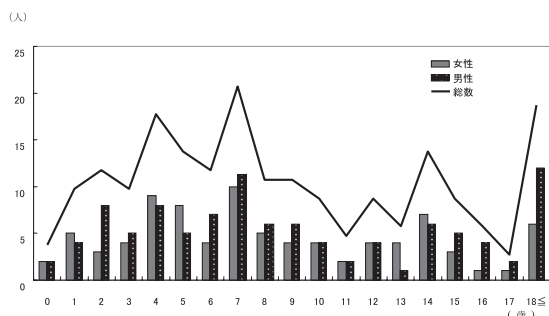


図2. BTX 治療開始時年齢
第一次・第二次性徴期および成人期に増加傾向を示し、2歳未満での投与例も12例存在した。

③ BTX-A 施注回数

施注回数は平均4回(1~19回)で、レベルVが平均5回と最も多く、レベルIが平均3回と最も少なかった。レベルIに関しては、1回投与のみで長期間効果が持続する症例が多く、重症例ほど効果が持続しにくく、施注回数が増加する傾向を認めた(図3)。

④ 1回当たりのBTX-A使用量と希釈濃度

1回当たりの使用量は51~100単位が最も多く、平均130.1単位(30~300単位)であった。重症化するほど施注量も増加する傾向を認めた(図4)。希釈濃度は平均19.2単位/ml(12.5u~50u/ml)であった。

⑤ BTX-A 施注部位

施注部位は耳下腺1例、頸部26例、肩関節周囲17例、上腕部32例、前腕部27例、手指(母指中心)8例、胸背部20例、腰背部37例、股関節周囲87例、大腿部80例、下腿部63例であり、股関節周囲が約40%を占めていた。

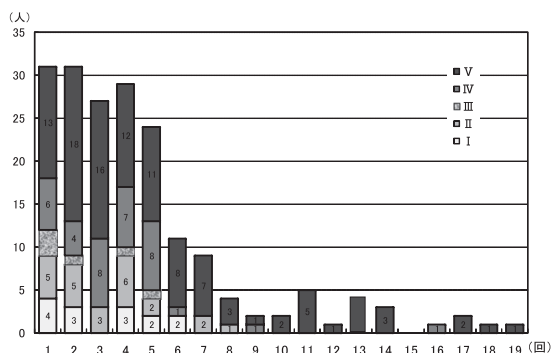


図3. BTX 施注回数
レベルVが平均5回と最も多く、重症例ほど施注回数も増加傾向にあった。

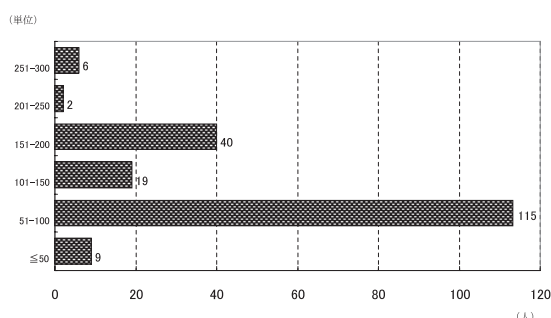


図4. 1回当たりのBTX 使用量
平均130.1単位(30~300単位)であった。

⑥ リハ通院歴

リハとの併用に関しては、当センター利用が145例、他施設利用が22例であり、約87%がリハを併用していた。

⑦ 転帰

継続症例が115例で、その内訳としては単独維持が82例、装具または集中リハ併用が28例、効果減弱が5例であった。中止症例は64例で、その内訳はコントロール不良が27例、整形外科的手術への移行が27例、パクロフェン留置への移行が10例であった。終了症例は12例で、転居や死亡、経済上の問題等物理的理由によるものであった。なお、死亡例の直接死因は窒息によるものであり、BTX-A との因果関係は認めなかった。

考 察

重症度別に見た場合、GMFCS レベルⅢの4例はBTX-A 投与後に全例移動能力が低下してい

表 1. GMFCS レベルⅢ症例の詳細

疾患	性別	開始年齢	リハ通院	施注回数	単位	投与部位	転帰
CP	女	7 歳	当科	1 回	100	下腿	無効にて筋解離術施行
CP	男	9 歳	当科	2 回	100	下腿	歩行不安定となり中止
CP	女	10 歳	当科	5 回	300	股, 大腿	集中リハ併用するも維持困難
CP	女	13 歳	当科	4 回	300	股, 大腿, 上腕, 前腕	集中リハ併用するも維持困難

※全例, 痙性減弱にて移動能力の低下を認めた.

表 2. 2 歳未満の投与例の詳細

疾患	性別	開始年齢	施注回数	GMFCS	単位	投与部位	転帰
CP	男	0 歳 5 か月	2 回	V	100	首, 肩, 股, 大腿	単独維持
CP	女	0 歳 6 か月	3 回	V	100	上腕, 大腿, 下腿	単独維持
頭部外傷後遺症	男	1 歳 8 か月	2 回	V	150	首, 上腕, 胸, 腰, 大腿	単独維持
CP	女	1 歳 0 か月	5 回	V	100	股, 大腿	単独維持
CP	女	1 歳 0 か月	8 回	V	100	腰, 大腿, 下腿	単独維持
CP	男	1 歳 1 か月	8 回	V	200	脊椎, 股, 大腿	単独維持
CP	男	1 歳 10 か月	2 回	V	100	股, 大腿	リハ併用で維持
CP	女	1 歳 1 か月	1 回	IV	100	大腿, 下腿	装具併用で維持
下腿形成不全症	男	1 歳 9 か月	1 回	II	50	下腿	リハ併用で維持
多発奇形	女	0 歳 7 か月	1 回	V	50	大腿, 下腿	整形外科手術へ移行
神経変性疾患	女	1 歳 3 か月	1 回	V	50	首, 胸背部, 腰	転居にて終了
18 トリソミー	女	1 歳 2 か月	1 回	V	30	股	心疾患にて死亡

※ 2 歳未満の投与においても明らかな有害事象を認めず, 一定の効果を確認した.

た(表 1). 痙性歩行の児は, 習慣的に痙縮筋を多用して歩行しているために, BTX-A 治療による筋弛緩によってかえって歩行機能が一過性に低下する場合があるため, 治療と併せて拮抗筋への運動療法が強化されなければ歩行容姿は改善せず⁵⁾, 痙性を利用した移動を行っている症例の BTX-A 投与には慎重を要する. 開始時期に関しては 2 歳未満でも明らかな有害事象を認めず, リハや装具との併用によって歩容の改善を認める症例も経験しており, 必要症例に対しては治療を検討してもよいと考えた(表 2). また, 施注部位として股関節周囲が最も多いことは, 近年レベル IV 以上の重度障害者の股関節脱臼予防として開始する症例が増加していることが主要因と考えられた. 痙縮部位への施注によって股関節手術期の回避⁶⁾や手術により期待できる効果を医療側だけでなく患者側にも確認できるため, 診断の一助としても有効である²⁾.

今回の結果から, 重症例ほど継続期間が長期化し, コントロールに難渋することが判明した. レベル V の患者には治療を行わないとの考えもあるが¹⁾, 当センターのようにレベル V の投与例が多い場合, 随意的自発運動が乏しいため BTX-A 施注によって関節可動域には変化が得られにくい, 同じ可動域内での動きの容易さ, 柔軟性など他動的な関節運動性は変化するため, 介護負担の軽減や疼痛の除去など日常生活動作上や介助においては有効である. その一方, Tsui scale や Ashworth scale 等の痙性評価や Barthel Index や Functional Independence Measure(FIM: 機能的自立度評価表)等の日常生活動作の評価法では日常生活動作の改善程度と相関せず, 単独で十分な効果判定ができる評価ツールがないため⁴⁾, 効果判定が難しい. 今後の課題として, 症例ごとに障害部位や筋緊張パターンの慎重な評価, 姿勢の変化を適切に評価できる方法の検討, 介護者の

負担軽減等，姿勢改善以外の視点からの個別の質的な効果を考慮した適切なツールの開発が求められる。また，今後 GMFCS レベル V の症例に関しては，より安定した筋緊張のコントロールが可能なバクロフェン髄腔内投与療法などの機能神経外科治療への移行や併用症例も増加していくことが予想される。痙縮の評価方法や効果判定および治療後の目標設定においては，医師や看護師等の医療従事者のみでなく，介護職種やリハスタッフを含む多職種間での連携が今後も重要であると考えられる。

文献

- 1) Graham HK, Reddihough D: Botulinum neurotoxin

A: an unusual systemic effect. J Paediatr Child Health 43(6) : 499-501, 2007.

- 2) 伊藤弘紀，矢崎 進，高嶺由二ほか：脳性麻痺児の下肢に対する A 型ボツリヌス毒素製剤の投与経験. 日小整会誌 17(1) : 127-130, 2008.
- 3) 近藤和泉：脳性麻痺のリハビリテーションに対する近年の考え方と評価的尺度. リハ医学 37(4) : 230-241, 2000.
- 4) 向井洋平，梶 龍児：痙縮のボツリヌス治療. Brain and Nerve 60(12) : 1421-1426, 2008.
- 5) 根津敦夫：小児脳性麻痺のボツリヌス毒素治療. 日本小児科学会雑誌 114(7) : 1033-1040, 2010.
- 6) Sussman DM, Aiona DM: Treatment of spastic diplegia in patients with cerebral palsy. J Pediatr Orthop B-13 : S1-S12, 2004.

Abstract

Botulinum Toxin Type-A Usage in Shiga Medical Center for Children

Toshiko Hirashima, M. D., et al.

Shiga Medical Center for Children, Department of Rehabilitation

We report the usage of botulinum toxin type-A (BTX) for intramuscular injections in 191 children in Shiga Medical Center. Among these, 145 cases involved cerebral palsy, and the majority of these patients presented a gross motor function classification system (GMFCS) level V. Among the 191 patients, 167 also received rehabilitation. The youngest patient to receive BTX was 9-years-old. The overall average number of injections per patient was 4 injections, and the average total dosage per patient was 130.1 units. The most frequent site of injection was the femur. The BTX treatment has been completed in 12 cases, is continuing in 115 cases, and was discontinued in the other 12 cases. BTX treatment can delay the need for surgery, and can improve gait postoperatively for those with equinus foot. In some cases with severe physical handicap, the BTX treatment can improve posture, and improve muscle tone. Our experience suggests that BTX is simple and effective treatment, and can be used in combination with peroral muscle relaxants, rehabilitation, orthopaedic surgery, and functional neurosurgery.

58 歳で人工股関節置換術を施行されたペルテス病の 1 例

志 賀 康 浩¹⁾・小 泉 渉¹⁾・齋 藤 正 仁¹⁾・板 橋 孝¹⁾
喜 多 恒 次¹⁾・川 口 佳 邦¹⁾・林 浩 一¹⁾・亀ヶ谷 真 琴²⁾

1) 成田赤十字病院 整形外科

2) 千葉こどもとおとなの整形外科

要 旨 我々は、10 歳でペルテス病を発症し、保存加療されたものの壮年期に変形性股関節症 (Osteoarthritis: 以下, OA) となり、58 歳で人工股関節置換術 (THA) を施行された 1 例を経験した。長期にわたり画像フォローをし得た症例のため報告する。症例は 58 歳男性、10 歳時に右股関節痛および跛行を主訴に医療機関受診しペルテス病の診断を受けた。初診時の Lateral Pillar 分類 group C, Catterall 分類 Class IV であり保存的加療にて経過観察され、成長終了時の Stulberg 分類 Class IV であった。58 歳時に右股関節痛が出現。徐々に症状が増悪し OA の診断で THA を施行された。経過は良好であり現在は社会復帰を果たしている。ペルテス病の高年齢発症や広範囲壊死症例は予後不良と言われ、二次性 OA に至る可能性が高い。Stulberg 分類で Class III/IV/V は将来の OA リスクである。本症例では THA 後の経過は良好であったが、ペルテス病後の THA 回避のために的確な予後予測と細かい経時的評価をしながら、Stulberg 分類で Class I/II に抑えることが求められる。

はじめに

我々は、10 歳でペルテス病を発症し、保存加療されたものの壮年期に変形性股関節症 (Osteoarthritis: 以下, OA) となり、58 歳で人工股関節置換術 (Total Hip Arthroplasty: 以下, THA) を施行された 1 例を経験した。長期にわたる画像経過とともに報告する。

症 例

58 歳、男性。10 歳時、右股関節痛および跛行を主訴に医療機関受診。画像上、骨端核全体に及ぶ圧塊像、骨頭亜脱臼所見 (病期分類: 壊死期) を認め、ペルテス病の診断を受けた (図 1~2)。初診時、lateral pillar 分類では group C, Catterall

分類では Class IV であった。保存的加療の方針となり、牽引療法、約 2 年間の装具療法を施行された。発症 1 年後の 11 歳時の画像所見では、骨頭は分節状に変形している所見がみられた (図 3)。

発症 22 年後、32 歳の画像所見では骨修復は完成されていた。骨頭扁平化、骨頭亜脱臼、大転子高位がみられ、Stulberg 分類では Class IV であった (図 4)。この段階では特に症状はなく、日常生活に支障はなかった。その後も定期的にフォローされていたが、58 歳時に右股関節痛が出現。約 6 か月間、近医で経過観察されていたが、徐々に症状が増悪し生活に支障をきたすようになったため当院受診した。股関節の可動域制限を認め、画像上は、著明な骨頭変形と大転子部高位および臼蓋形成不全、そして関節裂隙消失の所見を認め、右

Key words : Legg-Calve-Perthes disease (ペルテス病), total hip arthroplasty (人工股関節置換術), hip osteoarthritis (変形性股関節症), Stulberg classification (スタルバーグ分類)

連絡先 : 〒 260-0821 千葉県千葉市中央区若草 1-3 ロイヤルコート京葉蘇我参番館 1206 千葉県こども病院 志賀康浩
電話 (090) 7560-7463

受付日 : 2014 年 5 月 23 日



図1. 股関節単純X線正面像 関節造影(10歳：発症時)
骨端核全体に及ぶ圧潰像および骨頭亜脱臼を認める(第2期)
Lateral Pillar 分類で Group C

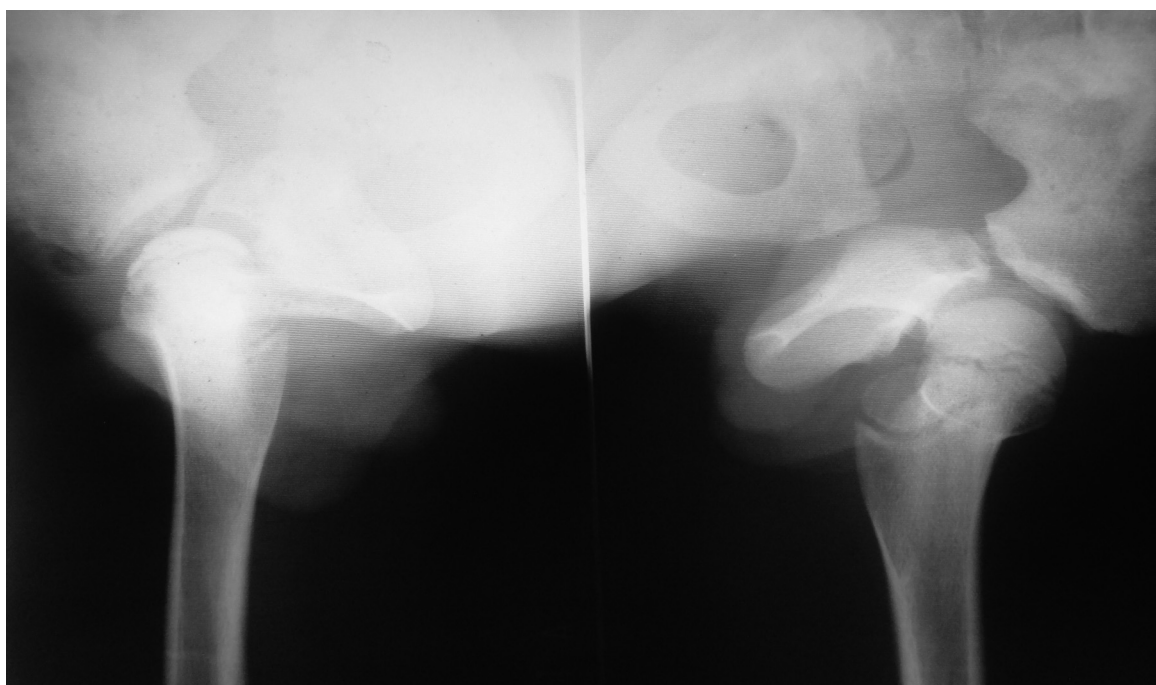


図2. 股関節単純X線側面像(10歳：発症時)
Catterall 分類で Group IV



図 3. 股関節単純 X 線正面像(11 歳：発症 1 年後)
骨頭は分節状に変形している(分節期)



図 4. 股関節単純 X 線正面像(32 歳：発症 22 年後)
骨修復は完成されている。骨頭扁平化、骨頭亜脱臼、
大転子高位がみられる
Stulberg 分類で Class IV

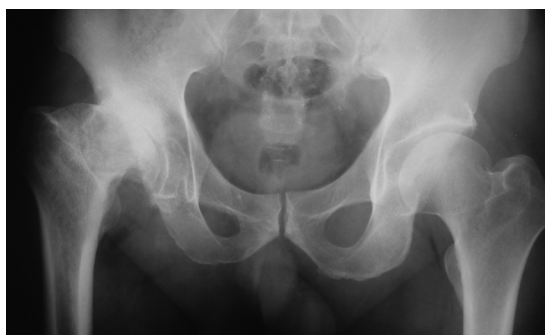


図 5. 股関節単純 X 線正面像(58 歳：発症 48 年後)
関節裂隙の狭小化を認める

変形性股関節症の診断となった(図 5~6)。来院時 JOA score : 66 点で疼痛により日常生活に支障があるため、手術目的に入院となり THA を施行した(図 7)。術中・術後に有意な合併症はなかった。術後リハビリの結果、一本杖歩行が可能となり入院後約 3 週間で退院した。現在は杖なしでの

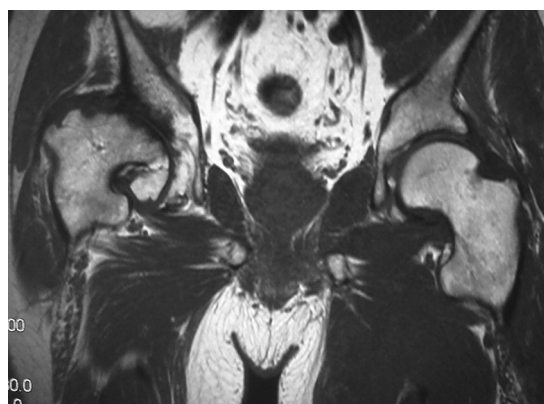


図 6. 股関節 MRI 面像(58 歳：発症 48 年後)
T1 強調画像で骨棘は高信号、軟骨下嚢胞は低信号を示す



図 7. 術後股関節単純 X 線正面像
有意な術後合併症はない

自力歩行が可能であり、社会復帰を果たしている。

考 察

ペルテス病は、大腿骨近位骨端部の栄養血管途絶により、骨髓組織が阻血性壊死に陥ることが主因であると言われている。大半の症例では自己修復が期待でき、そのため、侵襲的な手術療法をせずに、保存治療で良好な成績を得ている症例も多い。しかし、重症例では続発症をきたす可能性があり、特に高年齢発症や広範囲壊死症例は予後不良と言われ、二次性の OA に至る可能性が高い。

ペルテス病は長期経過観察を必要とする疾患であるが長期成績を検討した文献は少ない。Froberg らは、ペルテス病患者(非手術例)を平均 47 年間フォローした結果として、control 群に比

べ、有意にOAになりやすく、結果としてTHAの適応となりやすいと報告している²⁾。また、WeinsteinやLecuieらは、ベルテス病は一時的な治癒の後、多くは40～50歳以降の壮年期に疼痛が出現し、特に50歳以降にTHA等の手術を要する症例が増加していくと報告している⁴⁾⁹⁾。Onishiらも、日本人67人のベルテス病患者を平均36年の期間フォローした。JOA score等、股関節の機能は40歳以降で低下し、OAの重症度は年齢に相関して40～50歳以降に悪化しており、ベルテス病由来の二次性OAは中年以降に加速するのではないかと述べている⁷⁾。本症例でも青年期には症状なく経過し、50代後半に生活に支障をきたすほどの進行OAとなり、THAを施行した。ベルテス病患者の二次性OAに対するTHAに関しては、2011年にTrainaらが報告をしており、ベルテス病の既往があり、後にTHAを施行された患者の平均手術年齢は37.8歳であった。合併症は全32例中2例(12.5%)であり、いずれも坐骨神経麻痺であった。Harris hip scoreは術前50.1からTHA後87.5と改善し、ベルテス病後のTHAは、解剖学的複雑性のため手技的に困難であるが、万全な術前準備により現実的に考慮される治療法であると述べている⁹⁾。この報告は比較的若年者に対するTHAの検討であるが、一方でLehmannらは、40歳前の若年成人におけるTHAは、その後の患者のQOLを有意に低下させると報告している⁵⁾。

なるべくOAの発症を遅らせ、なおかつ将来のTHAを回避できるような幼少期青年期の治療が望まれる。壮年期の症状出現には骨頭の球面性が大きく関与すると言われ、「ベルテス病発症後にいかに骨頭の球面性を再獲得するか」が将来の予後に関わる。Froberg.らの報告では、ベルテス病患者が将来OAになり、THA適応となるリスクは、Stulberg分類でClass I/II群よりもClass III/IV/V群で有意に高く、Class I/IIに抑える治療を目指す必要があると述べられている²⁾。本症例もStulberg分類ではclass IVであり、将来のOA、そしてTHA適応となるリスクは高

かった。Stulberg分類で、Class I/IIに抑えるためには、早期予後予測、適切な治療介入と段階に応じた治療法の確認、軌道修正が必要であると思われる。現在、有力な予後因子として発症年齢と壊死範囲がある。発症年齢では8歳以上、壊死範囲については、Catterall分類type III型とIV型、および骨端外側部分の圧潰度に着目したHerringのLateral Pillar分類によるtype B/CborderとCが予後不良の目安とされている。これらは主に分節期で判定され、最終成績であるStulberg分類と良好に相関しているため、有用な予後予測法と認められている。しかし、二見らは、通常分節期において最も圧塊が進んだ時期に判定するLateral Pillar分類には問題点があり十分ではないと指摘する。検者間・検者内誤差の問題と、発症初期の治療開始時には判定困難という点である。そのため、より客観的な指標として%Lateral Pillar(%LP)の測定を推奨している。最も減少したMin.%LPが重要であり、発症年齢により維持すべき%LPがあり(発症年齢×5+20)これを治療の目標の目安としている³⁾。

本症例では、10歳発症、Catterall分類Class IV、Lateral Pillar分類Group Cであり、さらに、二見らのMin.LP%は目標である70には達せず41と低値であり、予後不良症例と言える。

ベルテス病の治療に関しては、現在までさまざまな検討がなされてきた。保存療法と手術療法では治療成績に有意差はなかったとする報告がある中で¹⁾⁸⁾、装具療法についても、否定的な意見が多く、Herringや2008年ノルウェーでのScottish Rite Braceによる装具療法は、効果がないとの結果であった。

予後不良の重症例に対しては手術が検討されるが、西須らは、重症例に対する大腿骨内反骨切り術の約半数は、亀ヶ谷の判定基準において成績不良と評価され、成績向上のためにはより積極的な白蓋側の合併手術が必要と述べている⁶⁾。

重症例に対して、壮年期に入ってからTHAを良しとするか、学童期に侵襲的な手術をしてしまうかは難しい問題である。手術療法の治療成績

が保存療法と比較して有意に良好という報告が少ないだけに治療選択に、については慎重であるべきと考える。いずれにせよ、早期発見、治療介入が重要であり、的確な予後予測と細かい経時的評価をしながら治療の質を上げていくことが重要であると思われる。

文献

- 1) Arkader A, Sankar WN, Amorim RM : Conservative versus surgical treatment of late-onset Legg-Calvé-Perthes disease : a radiographic comparison at skeletal maturity. J Child Orthop Feb ; 3(1) : 21-25, 2009.
- 2) Froberg L, Christensen F, Pedersen NW et al : The need for total hip arthroplasty in Perthes disease : a long-term study. Clin Orthop Relat Res 469(4) : 1134-40, 2010.
- 3) 二見 徹 : Perthes 病における定量的 lateral pillar 分類. 日整会誌 84 : 1034-1039, 2010.
- 4) Lecuire F : The long-term outcome of primary osteochondritis of the hip (Legg-Calvé-Perthes' disease). J Bone Joint Surg Br 84(5) : 636-640, 2002.
- 5) Lehmann TG, Engesaeter IØ, Laborie LB et al : Total hip arthroplasty in young adults, with focus on Perthes' disease and slipped capital femoral epiphysis : follow-up of 540 subjects reported to the Norwegian Arthroplasty Register during 1987-2007. Acta Orthop 83(2) : 159-164, 2011.
- 6) 西須 孝, 亀ヶ谷真琴 : Perthes 病に対する大腿骨内反骨切り術の治療成績. 日整会誌 84 : 1056-1060, 2010.
- 7) Onishi E, Ikeda N, Ueo T et al : Degenerative osteoarthritis after Perthes' disease : a 36-year follow-up. Arch Orthop Trauma Surg 131(5) : 701-707, 2011.
- 8) Pietrzak K, Strzyzewski W, Pucher A et al : Total hip replacement after Legg-Calvé-Perthes disease. Chir Narzadow Ruchu Ortop Pol 76(3) : 129-33, 2011.
- 9) Traina F, De Fine M, Sudanese A et al : A Long-term results of total hip replacement in patients with Legg-Calvé-Perthes disease. J Bone Joint Surg Am 6 : 93(7) : 1-7, 2011.
- 10) Weinstein SL : Bristol-Myers Squibb/Zimmer award for distinguished achievement in orthopaedic research. Long-term follow-up of pediatric orthopaedic conditions. Natural history and outcomes of treatment. J Bone Joint Surg Am 82-A(7) : 980-990, 2000.

Abstract

Total Hip Arthroplasty in a 58-Year-Old Patient with Legg-Calvé-Perthes Disease

Yasuhiro Shiga, M. D., et al.

Department of Orthopedic Surgery, Narita Red Cross Hospital

We report a case of Legg-Calvé-Perthes disease in a patient diagnosed at 10 years old and treated conservatively who developed pain and required total hip arthroplasty at 58 years old. At first examination at 10 years old, he presented pain in the right hip with claudication on radiographs. He was diagnosed with Legg-Calvé-Perthes disease in Group C on the Lateral Pillar Classification and in Caterall Class IV. He received conservative treatment, and after the growth phase his condition was at Stulberg Class IV. At 58 years old he was admitted presenting pain again in the right hip, with hip osteoarthritis on radiographs. He was then treated with total hip arthroplasty, with an uneventful course leading to full activities for daily life. Reports suggest that poor prognostic factors in Legg-Calvé-Perthes disease include high age at onset, and wide extent of femoral head necrosis. Reports also suggest that those at Stulberg Class III, IV, or V are at high risk to secondary OA and/or requiring THA. The present case indicates the need for timely early accurate diagnosis with appropriate therapy at each stage of the disease.

Atlanto-Axial Rotatory Fixation in Children : Comparison of Clinical Findings and Outcomes by Etiology

Kiyotaka Ohtani,¹ Noriko Matsumoto,¹ Mayu Fujimoto,¹ Hitomi Inagaki,¹
Kazuteru Kitsuda,¹ Miho Kaida,¹ Masako Kitsunezaki,¹ Yukifumi Yokota²

¹Department of Pediatrics, Sagamihara Kyodo Hospital, Sagamihara, Kanagawa, Japan

²Yokota Kodomo Clinic, Sagamihara, Kanagawa, Japan

Abstract : Background: Atlantoaxial rotatory fixation (AARF) is an uncommon cause of childhood torticollis and is generally associated with trauma or inflammation of the upper respiratory tract and neck. We aimed to clarify the clinical findings and outcomes of AARF by etiology to provide pediatricians with valuable for effective treatment.

Methods: Sixteen patients, admitted to our hospital from 2005 to 2013 with AARF, were assigned to 2 groups according to etiology; traumatic ($n = 10$, age 6.8 ± 0.6 years) or atraumatic ($n = 6$, age 6.3 ± 0.4 years). Patient backgrounds, treatment, and prognosis were evaluated retrospectively and compared between the two groups.

Results: The median length of persistent torticollis and time from the initiation of treatment to remission were longer (but not significant) in the atraumatic group than in the traumatic group (16 days vs. 10.5 days; $p = 0.07$, 7.5 days vs. 5 days; $p = 0.09$). There was a significant correlation between the time to initiate Glisson traction and length of Glisson traction in only those who underwent Glisson traction ($r^2 = 0.45$, $p = 0.0001$).

Conclusions: Pediatricians should immediately refer AARF patients to surgeons who specialize in atlantoaxial junction surgery.

Introduction

Atlantoaxial rotatory fixation (AARF) is an uncommon cause of childhood torticollis and is generally associated with trauma or inflammation of the upper respiratory tract and neck. Children with torticollis present with asymmetrical ("cock-robin") head position and restricted movement.

Since Bell (1830) reported the first case of rotation deformity of the atlantoaxial joint, produced after pharyngeal ulceration in a patient with torticollis, many cases have been reported¹⁾. The term *rotatory fixation* was used for the first time by Wortzman et al. (1968) as *rotatory fixation of the atlantoaxial joint*¹⁰⁾. In addition, this clinical condition has been described using multiple terms such as rotatory subluxation, ro-

Key words : atlantoaxial rotatory fixation, childhood torticollis, Fielding classification, Glisson traction

Corresponding author : Kiyotaka Ohtani

Department of Pediatrics, Sagamihara Kyodo Hospital, 2-8-18 Hashimoto, Midori-ku, Sagamihara, Kanagawa 252-5188, Japan

TEL: +81-42-772-4291 FAX: +81-42-771-6709

e-mail : k-ohtani@sagamiharahp.com

tatory dislocation, spontaneous hyperemic dislocation, inflammatory torticollis (named after its etiology), and Grisel's syndrome.^{3,6)} The term AARF, coined by Fielding and Hawkins in 1977, is preferred because fixation of the axis (C2) may not occur with subluxation or dislocation³⁾. The etiology may be trauma; however, upper respiratory tract infections and cervical lymphadenitis as well as inflammatory diseases of the neck, including rheumatoid arthritis and cervical lymphadenopathy due to Kawasaki disease, may trigger AARF⁸⁾. Many studies have addressed AARF in the field of orthopedics. However, in pediatrics, only few authors have reported about AARF, and none have compared cases with different etiologies.

The diagnosis of AARF is generally based on cervical CT, particularly 3-dimensional (3D)-CT, whereas MRI can identify ligamentous damage⁸⁾. Repositioning is possible using an elastic cervical orthosis and Glisson traction. However, in recurrent cases or those in which repositioning may be impossible, operative treatment may be required²⁾. Unfortunately, delayed treatment may lead to neurological complications, requiring elaborate operative intervention⁷⁾. Subach et al. (1998) reported a relationship between the initiation of primary care and treatment success, recurrence, complications, and prognosis. Therefore, early diagnosis and treatment of AARF are essential⁹⁾.

While AARF is a childhood disease, pediatricians do not have the necessary information and educational tools to diagnose the disease. This ability is generally restricted to orthopedic specialists. Therefore, the present study aimed to investigate and compare clinical findings and outcomes of AARF patients by etiology to provide pediatricians with valuable information for effective treatment.

METHODS

Cases of AARF

From January 2005 to December 2013, 16 cases of AARF were diagnosed at Sagami Hospital, Kanagawa, Japan. Patients were retrospectively divided into traumatic and atraumatic groups according to etiology and clinical findings of AARF in the medical records. AARF was diagnosed on the basis of painful torticollis and CT or 3D-CT scans through C1-C2 in patients with clinically diagnosed AARF who demonstrated rotatory subluxation of C1 on C2. Outpatients and patients with a bone fracture or congenital deformity were excluded. Traumatic factors were defined as an external injury, for example, sudden rotation or fall. Atraumatic factors were defined as medical conditions or diseases such as inflammation or cervical lymphadenopathy.

Clinical Assessment and Treatment Parameters

Patient backgrounds and clinical symptoms (age, gender, history, height and weight on admission, torticollis direction, and rotation direction), cervical CT findings [atlantodental interval (ADI) and rotation angle], Fielding classification, duration of treatment (time to initiate treatment, persistence of torticollis, and time from the initiation of treatment to the remission of torticollis), therapeutic modality (compliance with and duration of Glisson traction, initiation of use of an elastic harness, and operative treatment), and prognosis (recurrence and complications) were examined. The outcomes for each parameter were compared between the groups. Moreover, the patients were evaluated for disease severity using Fielding classification. The rotation angle was determined to be right or left

from the neutral position of the C1-C2 joint on cervical CT.

The time to initiate treatment was defined as the time from the onset of torticollis to the application of an elastic harness or the initiation of Glisson traction. The persistence of torticollis was defined as the time from the onset to the remission of torticollis. The time from the initiation of treatment to the remission of torticollis was defined as the time from the application of an elastic harness or the initiation of Glisson traction to the remission of torticollis.

We examined the correlation between the time to initiate treatment and persistence of torticollis in all the patients and examined the correlation between the time to initiate Glisson traction and duration of Glisson traction in only those who underwent Glisson traction. We defined remission as the time when AARF resolved and persistence when there was no remission.

Fielding Classification

AARF is classified into 4 types: (i) type I, rotatory fixation without anterior displacement of the atlas; (ii) type II, rotatory fixation with anterior displacement of 3–5 mm; (iii) type III, rotatory fixation with anterior displacement of more than 5 mm; and (iv) type IV, rotatory fixation with posterior displacement³⁾.

Statistical Analysis

Data were analyzed using graphpad prism 5 for windows (GraphPad Software, La Jolla, CA, USA). Data are presented as the mean \pm standard error of mean (SEM) or as the median and range. Parameters between the groups were compared using Fisher's exact test and Mann-Whitney U-test. Non-continuous variables were compared using Spearman rank correlation coef-

ficients. A p value less than 0.05 indicated statistical significance.

Results

Sixteen patients were assigned to a traumatic (n = 10, age 6.8 ± 0.6 years) or an atraumatic (n = 6, age 6.3 ± 0.4 years) group. In the traumatic group, AARF was caused by sudden rotation (n = 5), neck sprain (n = 4), or fall (n = 1). In the atraumatic group, torticollis was caused by acute upper respiratory infection (n = 2), parapharyngeal abscess (n = 1), cervical lymphadenitis (n = 1), or Kawasaki disease (n = 2) and AARF occurred secondarily (Table 1). In the traumatic and atraumatic groups, 4 (40%) and 4 (67%) patients were males, respectively. All the patients had no neurological complication during treatment. The direction of torticollis was toward the right in 8 (80%) and 4 (67%) patients in the traumatic and atraumatic groups, respectively (Table 2). There were no significant differences in other aspects of patient profiles or clinical findings between the groups. Because 1 patient had a medical history of attention deficit/hyperactivity disorder, this patient could not undergo Grison traction.

There were no significant differences in ADI (traumatic group, 3.5 ± 0.3 mm; atraumatic group, 2.7 ± 0.2 mm) or the angle of rotation on cervical CT (traumatic group, $21.5 \pm 3.4^\circ$; atraumatic group, $17.7 \pm 43.8^\circ$; Table 2) between the groups. Moreover, there were no significant differences in Fielding classification (type I, II, III: 2, 7, 1 patients in the traumatic group and 3, 2, 0 patients in the atraumatic group). There were no patients with Fielding type IV, and none required operative treatment. The use of 3D-CT imaging for AARF diagnosis has increased in the last few years (Table 1), and for example we present 3D-CT findings for cases 13 (Figure.

Table 1. Patient background

Patient No.	Age (years)	Gender	Etiology	3D-CT	Fielding classification	ADI (mm)	Rotation angle (°)	Time to initiation of treatment (days)	Glisson traction
1	5.4	Male	Kawasaki disease	No	—	—	—	19	No
2	5.7	Female	Sudden rotation	No	II	3.7	5.4	2	Yes
3	5.2	Male	Fall	No	II	3.2	—	6	Yes
4	4.2	Male	Neck sprain	No	II	3.9	—	9	Yes
5	5	Female	Fall	No	I	2.3	17.7	1	Yes
6	9.8	Male	Neck sprain	No	II	4.5	11.1	3	Yes
7	5	Female	Sudden rotation	No	I	2.5	21.1	2	Yes
8	6.5	Male	URI	Yes	II	3.6	25.4	10	Yes
9	7.6	Female	URI	No	II	2.8	23	5	Yes
10	6	Male	Parapharyngeal abscess	No	I	2.2	6.64	3	No
11	8.8	Female	Neck sprain	Yes	II	3.5	32	4	Yes
12	7.2	Female	Sudden rotation	Yes	I	2.4	24.5	9	Yes
13	6	Female	Kawasaki disease	Yes	I	2.7	28.3	11	Yes
14	8.4	Female	Sudden rotation	Yes	I	2.3	30.8	12	Yes
15	3.6	Male	Cervical lymphadenitis	No	I	2.3	12.4	3	No
16	6.5	Male	Sudden rotation	Yes	III	5.5	29.5	5	Yes

Traumatic group(n=10), atraumatic group(n=6)

ADI, atlantodental interval ; URI, Upper respiratory tract infection

1a)and 16(Figure. 1b).

The median time to initiate treatment was greater in the atraumatic group(7.5 days, range 3–19 days)than in the traumatic group(4.5 days, range 1–12 days; $p = 0.09$; Figure. 2a). The median length of persistence of torticollis was longer in the atraumatic group(16 days, range 7–47 days)than in the traumatic group(10.5 days, range 5–30 days; $p = 0.07$; Figure. 2b). The median time from the initiation of treatment to the remission of torticollis in the atraumatic group was 7.5 days(range 4–28 days)and was longer

than that in the traumatic group(5 days, range 3–51 days; $p = 0.09$; Figure. 2c). However, each interval was no significant differences between the groups(Figure. 2). Furthermore, no significant differences were observed for these intervals between the groups when compared by Fielding classification. In case of 14 patients in whom Fielding classification could be determined, the median time to initiate treatment was 3 days in type I(range 1–11 days)and 5 days in type II(range 2–12 days). The persistence of torticollis was 13 days in both type I

Table 2. Comparison of backgrounds, imaging, Fielding classification, and therapeutic modality between traumatic and atraumatic groups.

Variable	Traumatic group (n = 10)	Atraumatic group (n = 6)	<i>p</i>
Patient background/clinical symptoms			
Age (years)	6.6 ± 0.6	5.9 ± 0.5	ns
Gender: Male; n (%)	4 (40)	4 (67)	ns*
History; n (%)	1 (10)	0 (0)	—
Height (m)	1.2 ± 0.04	1.1 ± 0.03	ns
Body weight (kg)	19.8 ± 2.1	20.0 ± 1.1	ns
Torticollis direction (right); n (%)	6 (60)	3 (50)	ns*
Persistence of torticollis (days)	13 ± 2.8	21.2 ± 5.9	0.09
Imaging			
ADI (mm)	3.5 ± 0.3	2.7 ± 0.2	ns
rotation angle (°)	21.5 ± 3.4	17.7 ± 3.8	ns
Fielding classification			
type I; n (%)	2 (20)	3 (50)	ns
type II; n (%)	7 (70)	2 (33)	ns
type III; n (%)	1 (10)	0 (0)	—
Therapeutic method			
Glisson traction; n (%)	10 (100)	3 (50)	0.06*
Duration of Glisson traction (days)	7.4 ± 1.4	6.7 ± 0.8	ns
Elastic harness; n (%)	10 (100)	5 (83)	ns*
Surgery; n (%)	0 (0)	0 (0)	—
Complications; n (%)	0 (0)	0 (0)	—

Traumatic group (n = 10), atraumatic group (n = 6)

Mean ± standard error of the mean (SEM)

Mann-Whitney U-test : * Fisher's exact test; ns, not significant

ADI, atlantodental interval

(range 7–28 days) and type II (range 5–30 days). The median time from the initiation of treatment to the remission of torticollis was 6 days in type I (range 4–25 days) and 4 days in type II (range 3–24 days).

All the patients had complaints regarding wearing an elastic harness or regarding Glisson traction. There were no significant differences between the groups when compared for therapeutic modality (Table 2).

In all the patients, there was a significant correlation between the time to initiate treatment and persistence of torticollis ($r^2 = 0.60$, $p =$

0.0005). In addition, there was a significant correlation between the time to initiate Glisson traction and duration of Glisson traction in only those who underwent Glisson traction ($r^2 = 0.45$, $p = 0.0001$; Figure. 3).

Discussion

We retrospectively performed a medical record-based study to compare clinical findings and outcomes of 16 AARF cases by etiology. To the best of our knowledge, this is the first comparative study on pediatric AARF cases in Japan. We demonstrate that it is important for pe-

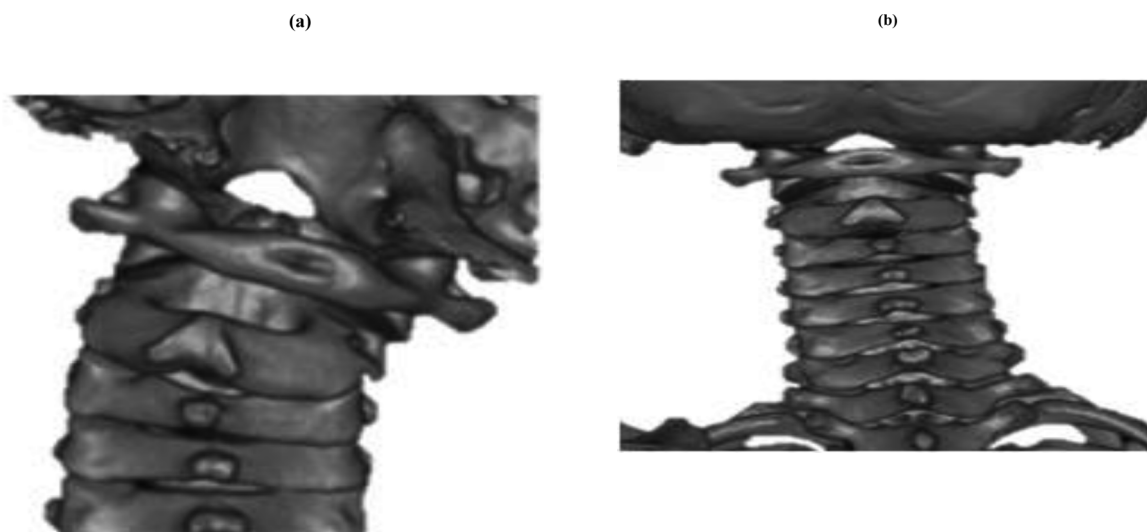


Fig. 1. 3D-CT images of cases 13 and 16.

Torticollis direction was toward the right on admission in case 13 and can also be observed from the front(a). In case 16, torticollis direction was toward the right on admission ; however, the neck was in the median position during remission(b ; back view).

diatricians to suspect AARF when a patient presents with painful torticollis so that early diagnosis can be made and treatment can be initiated as soon as possible.

Various conditions may lead to AARF development. In the present study, 6 of 16 cases developed AARF caused by cervical inflammatory diseases, such as inflammation of the upper respiratory tract or neck and Kawasaki disease. Hicazi et al.(2002)reported that 6 of 33 AARF cases were caused by upper respiratory tract and tonsil inflammation and that 18 cases developed from unknown causes and did not present with lymph node swelling⁴⁾. Thus, these independent studies have consistently suggested that AARF is caused by atraumatic conditions.

While various conditions may lead to AARF, the mechanisms underlying AARF have not been clearly identified till date. Fielding and Hawkins(1977)proposed possible clues to solve this problem³⁾. They hypothesized that early articular capsule injury, sustained muscle spasm, and synovial swelling could cause fixation of the

joint in a rotated orientation. Some pediatric diseases, particularly, those causing swelling of the lymph nodes, present with inflammation, articular capsule development, synovial inflammation, and swelling were developed AARF. It is assumed that atraumatic AARF is caused by such inflammatory conditions in conjunction with sustained movement restriction caused by cervical pain. However, some cases assessed in the present study did not present with lymph node swelling, suggesting that AARF was caused by another type of inflammation.

Patient backgrounds, clinical symptoms, and diagnostic imaging results were not significantly different between the traumatic and atraumatic groups. These findings indicated that the clinical state was not affected by etiology.

AARF diagnosis is necessary to evaluate rotatory subluxation of C1 on C2 by cervical CT, to assess the direction and range of rotation and migration of the atlantoaxial joint, as well as to diagnose severity on the basis of Fielding classification.

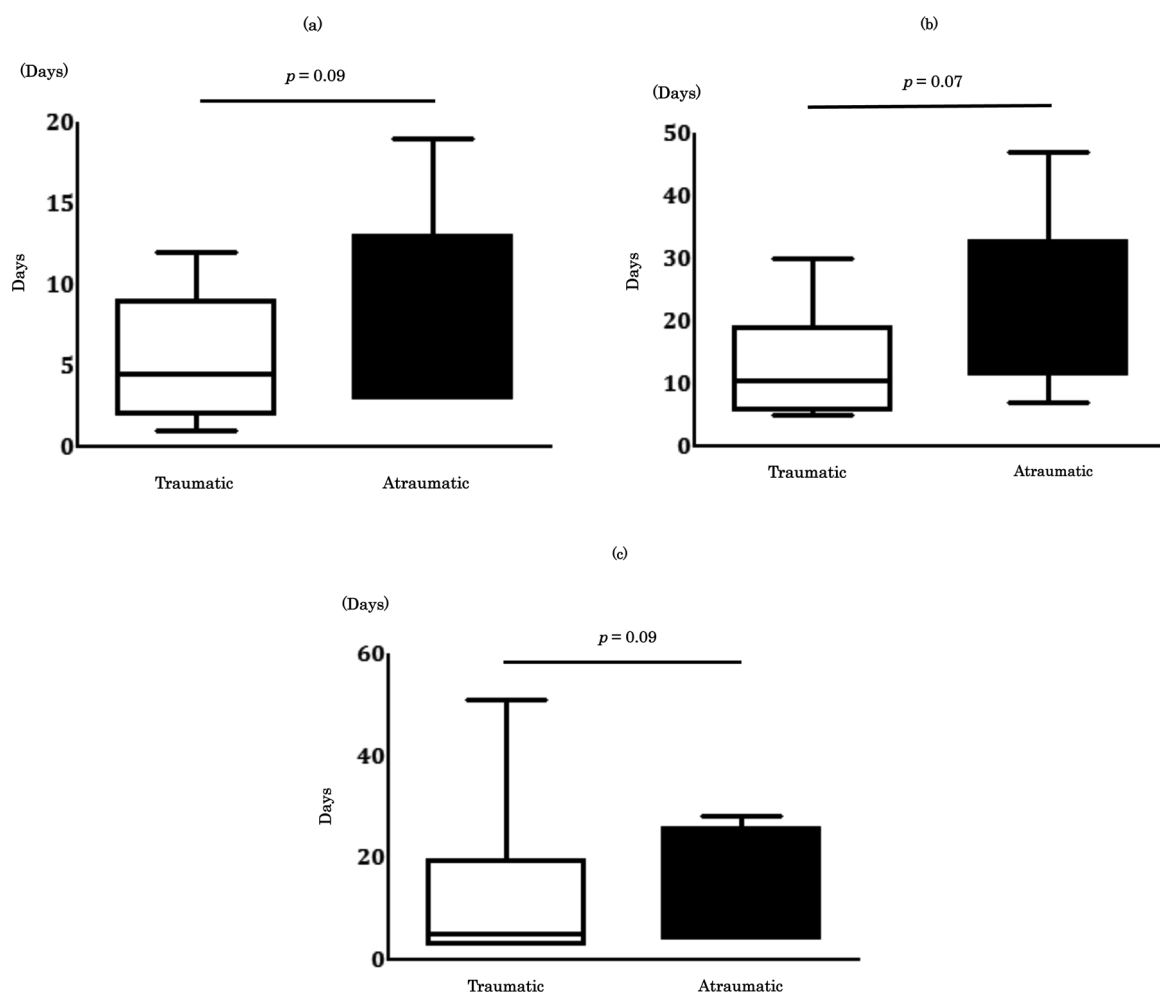


Fig. 2. Relationship of treatment and torticollis in traumatic ($n=10$) and atraumatic ($n=6$) groups. (a) Initiation of treatment: 3 days (5-11 days) vs. 10 days (3-19 days; $p=0.09$) ; (b) Persistence of torticollis: 7.5 days (5-30 days) vs. 18 days (13-47 days; $p=0.07$) ; (c) Time from the initiation of treatment to remission of torticollis: 4.5 days (3-24 days) vs. 8 days (4-28 days; $p=0.09$). Data are presented as median (range). Mann-Whitney U-test, $p < 0.05$.

The mean age of the patients in the present study was 6.6 ± 0.6 years in the traumatic group and 5.9 ± 0.5 years in the atraumatic group. This is similar to the median age of 6.5 years of patients in the study conducted by Mihara et al. (2001)⁵⁾ AARF is indeed observed more frequently in infants and school-age children; some reasons for this may include features pertaining to physical development and anatomy in children, such as (i) insufficient bony structural support; (ii) loose joint capsule and large

torsion angle as well as large proportion of soft tissue in the atlantoaxial joint and its susceptibility to inflammation; (iii) horizontal articular surfaces of the lower cervical spine; (iv) invaginated synovial walls with clear crescentic vasculature in the occiput, atlantoaxial joint, and outer atlantoaxial joint; and (v) direct connection of the pharyngeal lymph vessel to the venous plexus and the resultant susceptibility to inflammation.

Our results revealed that the duration of tor-

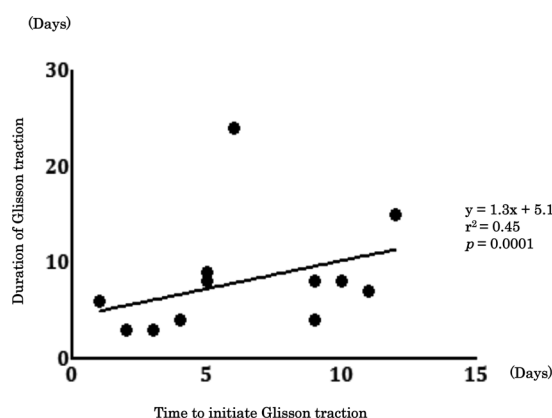


Fig. 3. Correlation between the time to initiate Glisson traction and duration of Glisson traction in only those who underwent Glisson traction ($n = 13$, $r^2 = 0.45$, $p = 0.0001$). Spearman rank correlation coefficient, $p < 0.05$.

ticollis in the atraumatic group tended to be longer than that in the traumatic group. This could be caused by delayed treatment in the atraumatic cases, wherein the primary disease is preferentially treated before treating AARF. Roche et al.(2001)demonstrated that the ease of treatment of AARF depends on the elapsed time from onset to diagnosis⁷⁾. When diagnosis is made within 1 week of disease onset, the case can be simply treated with an elastic cervical orthosis. When diagnosis takes over 1 week, traction is required, and when diagnosis takes over 3 months, surgical treatment is required. We therefore conclude that early diagnosis, including assessment for severity, is important.

Subach et al.(1998)reported that longer durations in initiating treatment resulted in lower rates of treatment success and higher rates of recurrence and complication(13.8 ± 12.1 days vs. 69.7 ± 52.4 days)⁹⁾. In the present study, we also observed a significant correlation between the time to initiate Glisson traction and remission of torticollis. In addition, in only those who underwent Glisson traction, we observed a significant correlation between the time to initiate

Glisson traction and duration of Glisson traction. Previous and current results consistently suggest the effectiveness of early treatment of AARF.

Conclusion

Pediatric AARF can be caused by traumatic as well as atraumatic events. We provide key diagnostic information to aid pediatricians in an early diagnosis of AARF in children presenting with painful torticollis so that treatment can be initiated as soon as possible. For effective treatment, we propose that pediatricians should immediately refer pediatric AARF patients to surgeons who specialize in atlantoaxial junction surgery.

Acknowledgements

We appreciate all of our co-workers in Sagami-hara Kyodo Hospital.

Conflict of Interest

The authors have no conflicts of interest.

REFERENCES

- 1) Bell C: Nervous system of the human body, embracing the papers delivered to the royal society of the subject of nerves, Case No.143. Longman, Rees, Orme, Brown and Green. London, 403, 1830.
- 2) Crossman JE, David K, Hayward R et al: Open reduction of pediatric atlantoaxial rotatory fixation: long-term outcome study with functional measurements. *J Neurosurg* **100** : 235-240, 2004.
- 3) Fielding JW, Hawkins RJ: Atlanto-axial rotatory fixation.(Fixed rotatory subluxation of the atlanto-axial joint). *J Bone Joint Surg Am* **59** : 37-44, 1977.
- 4) Hicazi A, Acaroglu E, Alanay A et al: Atlantoaxial rotatory fixation-subluxation revisited: a computed tomographic analysis of acute torticollis in pediatric patients. *Spine* **27** :

2771-2775, 2002.

- 5) Mihara H, Onari K, Hachiya M et al: Follow-up study of conservative treatment for atlantoaxial rotatory displacement. *J Spinal Disord* **14** : 494-499, 2001.
- 6) Nozaki F, Kusunoki T, Tomoda Y et al: Grisel syndrome as a complication of Kawasaki disease: a case report and review of the literature. *Eur J Pediatr* **172** : 119-121, 2013.
- 7) Roche CJ, O'Malley M, Dorgan JC et al: A pictorial review of atlanto-axial rotatory fixation: key points for the radiologist. *Clin Radiol* **56** : 947-958, 2001.
- 8) Scapinelli R: Three-dimensional computed tomography in infantile atlantoaxial rotatory fixation. *J Bone Joint Surg Br* **76** : 367-370, 1994.
- 9) Subach BR, McLaughlin MR, Albright AL et al: Current management of pediatric atlantoaxial rotatory subluxation. *Spine* **23** : 2174-2179, 1998.
- 10) Wortzman G, Dewar FP: Rotary fixation of the atlantoaxial joint: Rotational atlantoaxial subluxation. *Radiology* **90** : 479-487, 1968.

Is There Any Benefit to Using Botulinum Toxin Type A in the Treatment of Lower Limb Spasticity in Younger Age Children with Cerebral Palsy?

Ashok N Johari M.S., M.Ch.Orth.¹

Sidharth Vemuri BMed Sc^{1, 2}

Roslyn N Boyd PhD(Human Bioscience), MSc(Physiotherapy), PDip(Biomech)^{3, 4, 5, 6}

Ratna A Johari M.S, Dip(SICOT)¹

¹Children's Orthopaedic Centre, Mumbai, India

²Faculty of Medicine, Dentistry and Health Sciences, The University of Melbourne, Australia

³Department of Orthopaedics, Royal Children's Hospital, Melbourne, Australia

⁴Department of Rehabilitation, Critical Care and Neurosciences Theme, Murdoch Children's Research Institute, Melbourne, Australia

⁵School of Physiotherapy, La Trobe University, Australia

⁶Brain Research Institute, Melbourne, Australia

Abstract : This prospective comparative clinical trial examined the effectiveness of Botulinum toxin type A (BoNT-A) treatment for lower limb spasticity in younger age (< 3 years) children compared with older-age children (> 3 years) with cerebral palsy (CP) for improvements in spasticity, function, health-related quality of life (HRQOL), and parent perception of outcomes.

Method : Twenty-seven children with CP, ranging from 11 months to 8 years and 6 months, were grouped according to age and treatment- one younger age group treated with BoNT-A and physiotherapy ($n=9$, mean age = 2^{+3} years SD = 4 months), a second younger age group treated with physiotherapy alone ($n=9$, mean age = 2^{+8} years SD = 7 months), and a third group of older aged children (> 3 years) treated with BoNT-A and physiotherapy ($n=9$, mean age = 4^{+5} years, SD = 15.1 months). Outcomes were evaluated for - spasticity using the Modified Tardieu Scale, activity limitation using the Gross Motor Function Measure (GMFM), a condition specific Pediatric Quality of Life InventoryTM and a parental questionnaire of perceived satisfaction with their child's performance. These measures were administered once prior to injection (baseline), then at one, three and six months post-injection.

Results : There was a significant reduction in spasticity for the younger age children treated with BoNT-A compared to controls retained at 6 month follow up. However, this was not accompanied by greater improvements in gross motor function. For the primary outcome there were

Key words : cerebral palsy, spasticity, botulinum toxin type A, pre-school infants, gross motor function, health-related quality of life, controlled clinical trial

Corresponding author : Dr. Ashok N Johari, Children's Orthopaedic Centre, Bobby Apartment, 2nd Floor, Plot No. 295, TPS No. 3, L.J. Road, Mahim (West), Mumbai, India-400 016.

Email: drashokjohari@hotmail.com

Phone: +91 22 24365050 / +91 22 24374040 Fax: +91 22 24445599

significant gains in gross motor function (GMFM-66) for the younger age treated children compared to older children at one month follow up (difference in means = 7.27, 95% CI 0.05, 14.49, $p = 0.019$) and three months (difference in means = 7.86, 95% CI 1.04, 14.68, $p = 0.012$) post-injection. A relationship between younger age BoNT-A treatment and improved parental perceptions was identified, attaining significance at three ($p = 0.038$) and six months ($p = 0.029$) post-injection.

Conclusions : This controlled trial suggests that there were additional benefits in treating younger age patients with intramuscular BoNT-A. Injections were safe, well tolerated and provided additional functional benefits and improvements in health related quality of life, when spasticity was treated in this younger age group compared to older children with CP.

Clinical Significance : Botulinum toxin A may provide a useful window of opportunity to enhance functional gains, improve HRQOL and achieve functional independence when provided at infant age.

Introduction

Botulinum toxin type A (BoNT-A) has gained wider appreciation as a focal treatment of spasticity in children with cerebral palsy (CP), since the early 1990's. There is good evidence that intramuscular injections of BoNT-A may inhibit the pre-synaptic release of acetylcholine, the neurotransmitter responsible for muscle contraction, resulting in a reduction in spasticity and it has been proposed that this may provide an opportunity to facilitate effective motor training. The duration of effectiveness of BoNT-A appears to be limited to three-to-six months though repeated injections are possible without serious adverse effects⁴. The question concerning the optimum age for the best efficacy for use of BoNT-A in children with CP remains unresolved.

It is thought that younger children will benefit more from BoNT-A combined with physiotherapy than older children and that this combined treatment may reduce or delay the need for surgery in ambulatory children. Treating children with CP with BoNT-A, at younger ages, reflects the hypothesis that as the child matures, the incidence of muscle shortening increases, reducing the dynamic component of

spasticity. This may decrease the efficacy of BoNT-A as there is a direct correlation between the magnitude of response to treatment and the dynamic component of spasticity of the gastrosoleus¹⁰.

This study was performed at the Children's Orthopaedic Centre in Mumbai, India, where children were treated with BoNT-A at younger ages (from 11 months) since 1999. Subjective findings suggested improvements in gross motor function along with a reduction in spasticity. However, benefits of treating children with CP at a younger age with BoNT-A have not yet been quantified.

Methods

This open-label study, combines data collected from a prospective six-month follow-up of children with CP (younger and older groups) and a matched group of retrospectively studied children from the medical chart review of younger age children with CP who did not receive BoNT-A for the treatment of lower limb spasticity.

Participants

The list of inclusion and exclusion criteria are summarised in Table 1a and 1b. Two sets of children were studied : -

Table 1a : - List of inclusion criteria.

Inclusion Criteria
• Diagnosis of CP with spastic motor type impairing the lower limbs, made by two clinical professionals (orthopaedic surgeon and physiotherapist).
• Attended physiotherapy for at least three months prior to the recommendation of BoNT-A injection.

Table 1b : - List of exclusion criteria.

Exclusion Criteria
• Presence of severe fixed contractures.
• Generalised athetosis and/or dystonia
• Previous BoNT-A injection(s) to the upper extremity, trunk or lower limb.
• Previous surgery.
• Very low cognition confirmed through clinical observation and anecdotal information from parents, as this would impact on the ability to co operate with physiotherapy.

Table 1c : - Patient groups.

Patient group	Description
Younger age	Prospectively studied children with CP, younger than 3 years of age, who received BoNT-A treatment for their spastic lower limb (s).
Older age	Prospectively studied children with CP, older than 3 years of age, who received BoNT-A treatment for their spastic lower limb (s).
Physiotherapy only	Retrospectively studied children with CP, younger than 3 years of age, who were recommended but did not receive BoNT-A treatment for their spastic lower limb (s).

- (i) Prospective participants were younger than 10 years of age at the commencement of clinical treatment, which involved the use of BoNT-A. These children were then grouped into those younger than 3 years and those older than 3 years at first BoNT-A injection.
- (ii) The retrospective group of children with CP were younger than 3 years of age when recommended for BoNT-A injection.

However, their parents/caregivers decided not to opt for this treatment option and continued with physiotherapy alone.

Once informed consent was obtained, the medical records of the retrospective patients were accessed. The prospective patients completed a proforma and an appointment for baseline evaluation was made prior to the scheduled BoNT-A injection.

Study Protocol This study incorporated the domains specified in the International Classification of Functioning, Disability and Health¹³, namely body structure (muscle impairment including spasticity), activity limitation (function) and Health-Related Quality of Life (HRQOL).

Prospectively studied children were evaluated at baseline (pre-injection), and post-injection at one, three and six month intervals. Evaluations were standardised and conducted by experienced physiotherapists with at least three years experience working in the field. Each evaluation consisted of measures of impairment of the lower limb and functional abilities. At six months, the parental perception of the child's functional status over the study period was evaluated using a parental questionnaire.

These children were separated into two groups based on their age when receiving the BoNT-A injection to those younger than 3 years and those older than 3 years of age. Medical records of the retrospective group of children with CP younger than 3 years of age were examined. Data were collected over two time periods- baseline and at six months, and included measures of impairment and functional abilities. All groups were matched along similar parameters. The three groups are summarised in Table 1c.

Outcome Measures

At the level of body structure, the Modified

Tardieu Scale (MTS)⁵⁾ was used to assess dynamic spasticity by measuring the catch range of motion (R1) at fast velocity (Tardieu V3)⁵⁾. Acceptable inter-rater reliability¹²⁾ and validity⁶⁾ have been established.

At the level of activity limitation, the Gross Motor Function Measure-66 (GMFM-66), a Rasch analysed version specifically for children with CP, was used. The GMFM-66 contains selected items of the GMFM-88 to improve scalability²⁾ and is a valid and reliable measure of the achievement of motor activities¹⁸⁾. Health Related Quality of Life was measured using the toddler and young child versions of the CP module of the Pediatric Quality of Life Inventory^{TM 20)} (PedsQLTM, Varni et al. 2006). The parent-proxy report of the toddler version of the PedsQL CP module was administered as a questionnaire that considers daily activities, movement and balance, pain and hurt, fatigue and eating activities. The infant version additionally considers school activities, and parent report of the child's communication skills. Varni et al.²⁰⁾ reported strong reliability, validity and sensitivity of the PedsQLTM in CP.

A parental questionnaire was utilised to gather the parents' perception of change in their child's abilities following BoNT-A treatment. This was adapted from a questionnaire developed for a previous randomised controlled clinical trial by Wallen et al.²¹⁾, as there were no other relevant questionnaires that considered the functional movements and transitions of children with CP as young as 1 year of age.

Intervention

Intramuscular BoNT-A injections were administered, under mask anaesthesia, by a senior paediatric orthopaedic surgeon whose practice involves specifying BoNT-A doses at 1-3 U/kg of body weight of BOTOX[®] (Allergan, USA) for

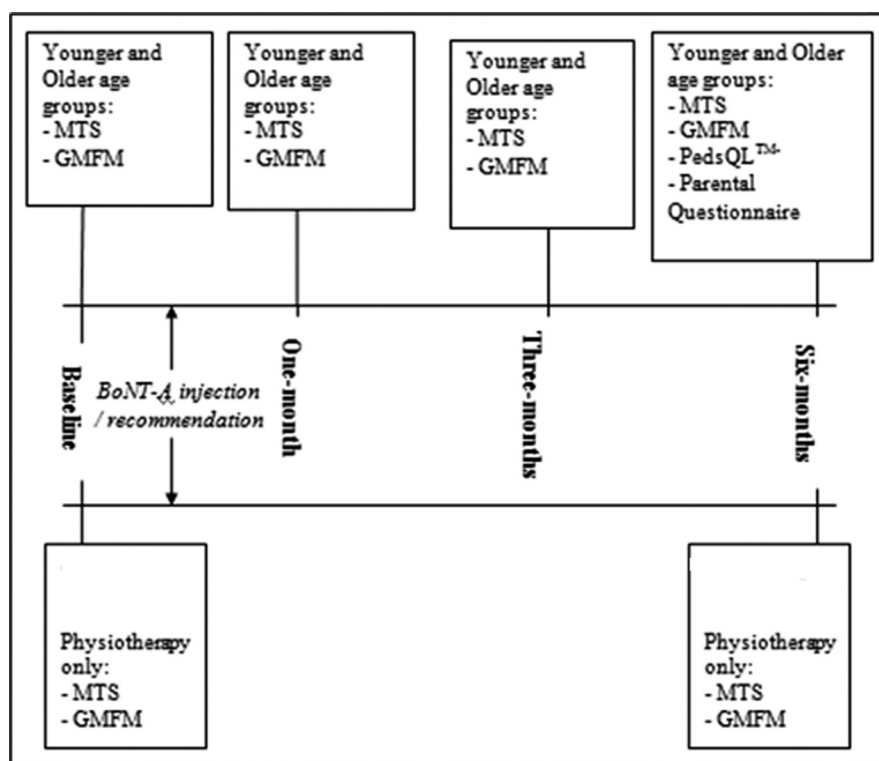
the gastro-soleus and 1-2 U/kg of body weight for other lower limb muscle groups. Correct needle placement was confirmed by observing needle motion during movement of the joint above or below the targeted muscle⁹⁾.

Both the retrospective and prospective groups continued with their physiotherapy regime, which was standardised based on good clinical practice. Each physiotherapy session consisted of passive stretching, followed by strength training and guided functional movements. Each child received at least one physiotherapy session per day for 30-45 minutes, 6 days per week, for 24 weeks duration post-injection/recommendation. The timing of outcome measures for the three sample groups is illustrated in Figure 1.

Analysis

The absolute amount of change was compared from baseline to each follow up interval in the total scores of the Tardieu R1, the GMFM-66, the PedsQLTM and parental questionnaire for the younger and older age groups. The absolute amount of change from baseline to follow up at six months was determined for the total R1 and GMFM-66 score for the physiotherapy alone group. The amount of change in spasticity (Tardieu R1), function (GMFM-66 score), HRQOL (PedsQLTM) and parental questionnaire scaled scores was averaged within each sample group and compared between groups.

As samples were independent and of small sizes, nonparametric tests were used to conduct statistical analysis, using Data Analysis Plus in Microsoft Excel (XP edition). The Wilcoxon Rank Sum test was used to determine (a) any differences in impairment and function between the younger age and physiotherapy only groups, and (b) difference in the amount of change in impairment, and HRQOL between the treated



Key : -

MTS = Modified Tardieu scale(Boyd and Graham 1999)

BoNT-A = Botulinum toxin A injections

GMFM = Gross Motor Function Measure

PedsQL™ = Pediatric Quality of Life Inventory(Cerebral Palsy module)

Fig. 1. Timing of outcome measures

younger and older age children. These comparisons were also used to test the hypothesis that younger age children with CP have greater changes in function compared to older children following treatment.

Confidence intervals for differences between two means were determined for the domains of impairment and function in younger age and physiotherapy only groups and the older age group, and HRQOL in younger and older age groups. Significance was set at a p-value of less than 0.05.

Results

Participant demographics

A total of 27 children with CP were entered

into three patient groups(nine in each group). Participant demographics are included in Table 2. The dosages of BoNT-A per muscle group per limb and per child by sample group are summarised in Table 3.

The results of changes in Spasticity(R1), Gross Motor Function, Health Related Quality of life and parent reporting of changes in function between baseline and each follow up interval are summarised in Table 4.

Discussion

The primary results of this comparative study demonstrated a reduction in spasticity in the BoNT-A group when combined with physiotherapy, compared to physiotherapy alone. At six

Table 2 : - Participant demographics

	Younger age group	Older age group	Physiotherapy only
Sample size	<i>n</i> = 9	<i>n</i> = 9	<i>n</i> = 9
Male/Female Ratio	M = 5 F = 4	M = 5 F = 4	M = 5 F = 4
Mean age (years)	2 ⁺³ SD = 0 ^{+4.23} (range 1 ⁺⁸ to 2 ⁺⁹)	4 ⁺⁶ SD = 1 ⁺³ (range 3 ⁺⁶ to 7 ⁺⁶)	2 ⁺¹ SD = 0 ^{+7.33} (range 0 ⁺¹¹ to 2 ⁺⁹)
Distribution of spastic motor type	7 : diplegia 2 : hemiplegia	8 : diplegia 1 : quadriplegia	6 : diplegia 2 : quadriplegia 1 : hemiplegia
Mean baseline R2 of hamstrings (degrees of extension, Popliteal angle)	152.5 SD = 30.11 (range 90 to 180)	124.38 SD = 31.30 (range 85 to 180)	142.94 SD = 33.54 (range 90 to 180)
Mean baseline R2 of gastro-soleus (degrees of dorsiflexion, knee extended)	8.25 SD = 6.34 (range 0 to 15)	6.07 SD = 5.61 (range -5 to 15)	9.80 SD = 5.40 (range 0 to 15)
Number of children with CP who received concomitant casting in addition to BoNT-A treatment	9	9	N/A
Limbs casted	Right only : 1 Left only : 1 Bilateral : 7	Right only : 2 Left only : 0 Bilateral : 7	N/A
Mean duration of casting (weeks)	2 ⁺¹ SD = 2.71 (range 1 ⁺⁵ to 2 ⁺⁶)	2 SD = 2.60 (range 1 ⁺⁴ to 2 ⁺⁴)	N/A
Mean hours of physiotherapy received per week	7.5 SD = 3.18 (range 4.5 to 13.5)	7.0 SD = 3.27 (range 4.5 to 13.5)	7.5 SD = 3.18 (range 4.5 to 13.5)
Number of children with CP taking anti-spasticity medication	5	5	5
Muscle groups targeted with spasticity treatment	16 : Gastro-soleus 12 : Hamstrings 3 : Gracilis 7 : Adductors 1 : Rectus Femoris	14 : Gastro-soleus 16 : Hamstrings 6 : Gracilis	12 : Gastro-soleus 15 : Hamstrings 5 : Gracilis 2 : Adductors
Number of children in each GMFCS level	Level I : 3 Level II : 4 Level III : 1 Level IV : 1 Level V : 0	Level I : 2 Level II : 3 Level III : 1 Level IV : 2 Level V : 1	Level I : 2 Level II : 0 Level III : 2 Level IV : 3 Level V : 2

months, this effect was greater in the hamstrings, in the younger age group, compared to controls. At one month post-injection, the older children had a greater reduction in spasticity compared to younger treated children. However, this difference between groups was not sustained at three and six months.

In the gastro-soleus muscle, at six months, there was no greater reduction in spasticity for the younger age group treated with BoNT-A compared to physiotherapy alone. However, the reduction in spasticity in the physiotherapy only treated group is thought to have occurred gradually over six months, while the BoNT-A treat-

Table 3 : - BoNT-A total dose and dosage ratio per muscle group per limb and per kilogram of body weight for each subject.

	Subject	Weight (kg)	Total dose administered (units)	Dosage ratio per muscle group (U/kg) per limb	Total dose per body weight (U/kg of bw)
Younger age group	1	10.0	60	3.0/ gastro-soleus	6
	2	10.0	100	2.0/ gastro-soleus 2.0/ hamstrings 1.0/ adductors	10
	3	8.0	100	3.0 gastro-soleus 2.0/ hamstrings	12.5
	4	10.0	100	3.0/ gastro-soleus 2.0/ hamstrings 1.0/ adductors	10
	5	7.0	100	3.0/ gastro-soleus 2.0/ hamstrings 1.0/ adductors 1.0/ gracilis	14.3
	6	10.0	130	3.0/ gastro-soleus 2.0/ hamstrings 1.0/ gracilis 1.0/ adductors 1.0/ rectus femoris	13.0
	7	12.0	60	3.0/ gastro-soleus 2.0/ hamstrings	5.0
	8	9.5	95	3.0/ gastro-soleus 2.0/ hamstrings	10.0
	9	10.0	30	3.0/ gastro-soleus	3.0
	<i>Mean</i>	<i>9.6</i> <i>SD = 1.4</i>	<i>86.1</i> <i>SD = 30.2</i>		<i>9.3</i> <i>SD = 3.9</i>
Older age group	1	10.0	100	2.0/ gastro-soleus 2.0/ hamstrings 1.0/ gracilis	10.0
	2	12.0	120	3.0/ gastro-soleus 2.0/ hamstrings	10.0
	3	20.0	140	1.5/ hamstrings 1.0/ gracilis 1.0/ adductors	7.0
	4	14.3	100	3.0/ gastro-soleus 2.0/ hamstrings	7.0
	5	10.0	100	3.0/ gastro-soleus 2.0/ hamstrings	10.0
	6	12.0	72	2.0/ hamstrings 1.0/ gracilis	6.0
	7	20.0	120	3.0/ gastro-soleus	6.0
	8	15.0	90	2.0/ hamstrings 1.0/ gastro-soleus	6.0
	9	10.0	100	3.0/ gastro-soleus 2.0/ hamstrings	10.0
	<i>Mean</i>	<i>13.7</i> <i>SD = 4.0</i>	<i>104.7</i> <i>SD = 19.7</i>		<i>8.0</i> <i>SD = 1.9</i>

Footnote : - Mean dosage ratio per muscle group (U/kg) per limb

	Younger age group	Older age group
Gastro-soleus	2.89, SD = 0.33	2.57, SD = 0.79
Hamstring	2.0, SD = 0.0	1.94, SD = 0.18

Table 4 : - Results of changes in Spasticity (R1), Gross Motor Function, Health Related Quality of life and parent report of changes in function between baseline and each follow up interval.

	Sample group	n	Baseline-One month			Baseline-Three months			Baseline-Six months		
			Mean change (SD)	Difference in means (95%CI)	p-value	Mean change (SD)	Difference in means (95%CI)	p-value	Mean change (SD)	Difference in means (95%CI)	p-value
R1 of Hamstrings	Older age	16	+ 36.88 (SD=25.36)	19.38 (3.67,35.09)	p=0.046	+ 28.13 (SD=28.22)	0.21 (- 19.03,19.45)	p=0.82	+ 24.38 (SD=30.65)	1.04 (- 20.94,23.02)	p=0.78
	Younger age	12	+ 17.5 (SD=11.38)			+ 27.92 (SD=17.9)			+ 25.42 (SD= 22.2)		
	Physiotherapy only	16							+ 5.94 (SD=26.35)	19.48 (- 0.74,39.7)	p=0.037
R1 of Gastro-soleus	Older age	13	+ 3.9 (SD=5.25)	0.2 (- 3.58,3.98)	p=0.90	+ 3.9 (SD=5.25)	2.0 (- 2.55,6.55)	p=0.48	+ 4.3 (SD=5.14)	3.0 (- 1.99,7.99)	p=0.26
	Younger age	16	+ 4.1 (SD=4.17)			+ 1.9 (SD=6.29)			+ 1.3 (SD=7.42)		
	Physiotherapy only	16							- 2.0 (SD=13.76)	3.3 (- 5.02,11.62)	p=0.37
GMFM-66	Older age	9	+ 5.28 (SD=5.76)	7.27 (0.05,14.49)	p=0.019	+ 4.24 (SD=4.46)	7.86 (1.04,14.68)	p=0.012	+ 9.29 (SD=9.76)	7.1 (- 5.12,19.32)	p=0.10
	Younger age	9	+ 12.55 (SD=7.39)			+ 12.06 (SD=7.65)			+ 16.39 (SD=12.52)		
	Physiotherapy only	9							+ 8.65 (SD=9.26)	7.74 (- 4.25,19.73)	p=0.086
PedsQL™	Older age	9	+ 3.87 (SD=8.63)	6.01 (- 7.42,19.44)	p=0.40	+ 7.09 (SD=7.67)	9.22 (- 4.99,23.43)	p=0.27	9.68 (SD=7.75)	11.00 (- 2.91,24.91)	p=0.10
	Younger age	9	+ 9.88 (SD=15.15)			+ 16.31 (SD=16.78)			20.68 (SD=16.32)		
	Physiotherapy only										
Parental Questionnaire	Older age	9	+ 8.95 (SD=11.98)	3.79 (- 8.97,16.55)	p=0.35	+ 10.25 (SD=10.53)	4.78 (1.32,28.24)	p=0.038	+ 8.59 (SD=14.77)	23.38 (4.59,42.17)	p=0.024
	Younger age	9	+ 12.74 (SD=11.45)			+ 25.03 (SD=13.96)			+ 31.97 (SD=19.42)		
	Physiotherapy only										

Key:-

R1 = Catch range of motion at fast velocity

GMFM-66 = Gross Motor Function Measure (66-item)

PedsQL™ = Pediatric Quality of Life Disability Inventory (Cerebral Palsy module)

ed group experienced the greatest reduction in spasticity at one-month, and this effect declined by six months. When comparing the groups treated with BoNT-A at younger and older ages, it was determined that children injected

after three years of age experienced a greater reduction in spasticity with the ankle joint becoming closer to neutral or in dorsiflexion range at one month, but this was not sustained at three and six months post-injection when it re-

turned to an equinus posture.

The results suggest that BoNT-A was useful, though its effect was limited in duration, in reducing dynamic spasticity. There were no differences in amount of reduction in spasticity according to age at initial injection. This partly supports the view that the effect on muscles is not limited by the patient's age⁽⁹⁾⁽¹⁶⁾. However, it does not provide strong evidence supporting this contention, as the age groups considered are younger than in those previous studies⁽¹⁶⁾⁽¹⁴⁾.

The younger age group had greater improvements in gross motor function compared to older children at one and three months post-injection but this was not sustained at six months. Furthermore, there were no additional benefits for gross motor function, at six months, for the younger group compared to the physiotherapy alone group. These findings confirm the results of another study in children with CP where single or two level injections did not result in functional gains at six months compared to therapy alone⁽¹⁷⁾. However, in this study, there is a new finding related to the enhanced outcome for younger age children with BoNT-A at one and three months. The reduction in spasticity enabled opportunities for enhanced motor outcomes when combined with a comprehensive physiotherapy program.

Systematic reviews⁽¹⁷⁾ and meta-analyses investigating gross motor function outcomes in response to BoNT-A with or without physiotherapy have conflicting findings with some reporting improved outcomes⁽¹⁵⁾⁽¹¹⁾ while others report no difference.⁽¹⁷⁾⁽¹⁾ Some studies suggest the GMFM-88 may not be sensitive to changes due to BoNT-A treatment as the effect of BoNT-A may be more on quality of movement or alignment of the task compared to attainment of the task⁽⁸⁾. This current study overcame some of

these issues by using the GMFM-66.

There were no differences between groups for improvements in the HRQOL according to the age of first injection. Varni et al.⁽²⁰⁾ suggested that disease-specific symptoms tested in the CP module of the PedsQLTM may be indicators of HRQOL. They reported a significant correlation between difficulties in gross motor function and lower HRQOL. However, in the present study, the younger age group had significantly greater improvements in gross motor function when compared to the older age group but did not demonstrate respective gains in HRQOL using the PedsQL-CP module. To date there are no studies that have reported changes in HRQOL due to BoNT-A nor reports of condition specific measures of HRQOL that have measured changes in HRQOL due to spasticity management.

In contrast to the HRQOL outcomes, parents reported there were greater improvements in their perception of their child's transitional movements, for the younger age group compared to the older age children. These results, however, may be biased by the lack of blinding of the parents to their child's treatment.

It is important to acknowledge the influence of parental expectations prior to commencing treatment when reporting the results of parent perceptions, in regard to clinical treatment. Setting realistic goals with parents prior to treatment, may be important, in order to ascertain their level of expectations and inform them of the potential effects that might be achieved. In doing this, more accurate data related through proxy reports, may be collected.

Quantification of severity and the distribution of lower limb spasticity in children with cerebral palsy who were younger than three years of age presented some methodological challeng-

es. The inclusion criteria, as far as possible, addressed certain confounds, by having two independent confirmations of the diagnosis of CP and the dosage and theoretical construct of the physiotherapy was standardised. However, there were limitations.

The exclusion criteria sought to ensure that initial BoNT-A treatment of spasticity was the main focus of the study by excluding other movement disorders (using Sanger's definitions¹⁹⁾), severe fixed contractures and previous BoNT-A injections. Importantly, some children with CP, included in this study, demonstrated some mild localised dystonia and mild to moderate fixed muscle contractures but dynamic spasticity appeared to be the main contributor to their clinical presentation.

Children in the present study received a substantial duration and intensity of physiotherapy, as compared with many western programmes. Participants had no major cognitive difficulties as these would impact on compliance with physiotherapy management, potentially confounding the impact of BoNT-A on the development of gross motor function.

The brevity of the recruitment time period meant that the number of eligible children was restricted and this small sample though matched on some key variables (age, gender) may lack statistical power. There may be a limitation in the potential reliability of some outcomes measures (spasticity and gross motor function) in younger age children due to compliance.

In the MTS, absolute changes in R1 were considered instead of proportional change, the difference between R1 and the muscle length at slow velocity (R2). Blair et al.³⁾ stated that the proportional change reflects the degree to which a pre-determined goal range of motion is

achieved rather than how much change in spasticity had actually occurred. The approach adopted in the current study focussed on change from a stable baseline. Inter-rater variability was minimised by having the child assessed by the same physiotherapist.

Conclusion

There are benefits to using BoNT-A in younger age children with CP to reduce spasticity and improve gross motor function. Intramuscular BoNT-A injections combined with a standardised, intensive physiotherapy regime greatly improves gross motor function at one and three months follow up compared to similar treatment in older aged children. It also reduces hamstring spasticity at six months compared to physiotherapy alone.

In this prospective study, the groups of older and younger children with CP were matched for key demographics and interventions were carefully controlled for intensity and duration between groups. This study provides some new data with promising findings that needs to be replicated in a larger clinical trial.

- 1) Ade-Hall RA, Moore AP: Botulinum toxin type A in the treatment of lower limb spasticity in cerebral palsy. (Cochrane Review) In: The Cochrane Library: Issue 1. John Wiley & Sons, Chichester, UK, 2004.
- 2) Avery, L.M, Russell, D, Rania, P et al: Rasch analysis of the gross motor function measure : validating the assumptions of the Rasch model to create an interval-level measure. Archives of Physical Medicine and Rehabilitation 84 : 697-705, 2003.
- 3) Blair EM, Love SC, Valentine JP: Proportional change: an additional method of reporting technical and functional outcomes following clinical interventions. European Journal of Neurology 8(suppl 5) : 178-182, 1999.
- 4) Boyd RN, Graham HK.: Botulinum toxin A in

- the management of children with cerebral palsy: indications and outcomes. *European Journal of Neurology* 4(suppl 2) : S15-S22, 1997.
- 5) Boyd RN, Graham HK: Objective measurement of clinical findings in the use of botulinum toxin type A for the management of children with cerebral palsy. *European Journal of Neurology* 6(suppl 4) : S23-S35, 1999.
- 6) Boyd RN, Barwood SA, Ballieu C et al: Validity of a clinical measure of spasticity in children with cerebral palsy in a double-blind randomised controlled clinical trial. *American Academy of Cerebral Palsy Portland (AAPCPDM) [abstract]*. *Dev Med Child Neurol* 40(suppl 78) : 7, 1998.
- 7) Boyd RN, Hays RM: Current evidence for the use of botulinum toxin type A in the management of children with cerebral palsy: a systematic review. *European Journal of Neurology* 8(suppl 5) : 1-20, 2001.
- 8) Boyd RN, Bach T, Morris ME et al: A quantitative functional MRI study in children with congenital hemiplegia : a randomised trial of botulinum toxin A (BTX-A) and upper limb training. *Developmental Medicine & Child Neurology* 46(Sept suppl 99) : 11, 2004.
- 9) Cosgrove AP, Corry IS, Graham HK: Botulinum toxin in the management of the lower limb in cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* 36(5) : 386-396, 1994.
- 10) Eames NW, Baker R, Hill N et al: The effect of botulinum toxin A on gastrocnemius length: magnitude and duration of response. *Dev Med Child Neurol* 41 : 226-232, 1999.
- 11) Flett PJ, Stern LM, Waddy H et al: Botulinum toxin A versus fixed cast stretching for dynamic calf tightness in cerebral palsy. *J Pediatric Child Health* 35 : 71-77, 1999.
- 12) Fosang AL, Galea MP, McCoy AT et al: Measures of muscle and joint performance in the lower limb of children with cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* 45(10) : 664-670, 2003.
- 13) ICF (2001). *International Classification of Functioning, Disability and Health*. World Health Organisation; accessed online July 2, 2005 at: <http://www.who.int/icf>
- 14) Koman LA, Mooney JF III, Smith BP et al: Botulinum toxin type A neuromuscular blockade in the treatment of lower extremity spasticity in cerebral palsy: A randomised double-blind, placebo-controlled trial. *J Pediatr Orthop* 20 : 108-115, 2000.
- 15) Love SC, Valentine JP, Blair EM et al: The effect of botulinum toxin type A on the functional ability of the child with spastic hemiplegia a randomized controlled trial. *European Journal of Neurology* 8(suppl 5) : 50-58, 2001.
- 16) Papadonikolakis AS, Vekris MD, Korompilias AV et al: Botulinum A toxin for treatment of lower limb spasticity in cerebral palsy. *Acta Orthop Scand* 74(6) : 749-755, 2003.
- 17) Reddihough DS, King JA, Coleman GJ et al: Functional outcome of botulinum toxin A injections to the lower limbs in cerebral palsy. *Dev Med Child Neurol* 44(12) : 820-827, 2002.
- 18) Russell D, Avery LM, Rosenbaum PL et al: Improved scaling of the gross motor function measure for children with cerebral palsy: evidence of reliability and validity. *Phys Ther* 80 : 873-885, 2000.
- 19) Sanger TD, Delgado MR, Gaebler-Spira D et al: Classification and definition of disorders causing hypertonia in childhood. *Pediatrics* 111(1) : e89-97, 2003.
- 20) Varni JW, Burwinkle TM, Berrin Sj et al: The PedsQL™ in pediatric cerebral palsy: Reliability, validity, and sensitivity of the generic core scales and cerebral palsy module. *Dev. Med. Child Neurol* 48(6) : 422-429, 2006.
- 21) Wallen MA, O' Flaherty SJ, Waugh MCA: Functional Outcomes of Intramuscular botulinum toxin type A in the upper limbs of children with cerebral palsy: a phase II trial. *Arch Phys Med Rehabil* 85(2) : 192-200, 2004.

Limb Lengthening in Achondroplasia

Maurizio Catagni, M.D., Professor and Head of Ilizarov unit

Lecco Hospital, Italy.

Medhat Sdeek, M.D., Orthopedic Surgeon

Cairo University Hospital, Egypt.

Luigi Lovisetti, M.D., Orthopedic Surgeon

Lecco Hospital, Italy.

Abstract : Most patients with achondroplasia have a functional disability due to their extremely short legs and arms. Limb lengthening can restore the normal proportion of the body and improves the quality of life(QOL) of these patients. We would like to share our experience in limb lengthening in 78 patients with achondroplasia between 2000 and 2010 using the distraction osteogenesis method. The mean age at first lengthening procedure was 11 years and 6 months. Our strategy for lengthening depends on the horizontal method. In 10 cases the horizontal method was applied followed by the vertical method to gain 40 cm in total of stature. Single level, but sometimes double level lengthening was applied. The duration of treatment from initiation of lengthening to removal of the apparatus was 12.8 months in the tibia, 7.8 months in the femur, and 8.3 months in the humerus. The consolidation index(days per centimeters of lengthening) was 27.5 days in the tibiae, 23.8 days in the femora, and 30.6 in the humeri. The average height gained was 15.7 cm(range from 14 to 19 cm)from tibial lengthening and 9.8 cm(range from 8 to 12 cm)from femoral lengthening. While the average humeral length gained was 9.9 cm(range from 8 to 12 cm). A total bone lengthening of up to 104 cm was reached in 10 cases of bilateral tibial lengthening, bilateral humeral lengthening, bilateral femoral lengthening and further longitudinal tibial and femoral lengthening. Despite the significant complication rate, we feel that the handicap due to short stature suffered by patients with dwarfing conditions warrants continued treatment using the Ilizarov technique. None of the patients in this series regretted their decision to undergo limb lengthening. The Ilizarov apparatus allows significant flexibility, allowing correction of axial deviation without surgical intervention. With appropriate motivation of the patient and skill of the surgeon, it is possible to overcome the difficulties presented by these long and potentially risky procedures.

Introduction

Achondroplasia is the most frequent chondrodysplasia of congenital origin and occurs in

one out of every 10,000 births and is characterized by defective enchondral ossification owing to Mutations in FGFR3(fibroblast growth factor receptor 3)⁴⁾¹¹⁾¹³⁾ It is a type of rhizomelic dwarf-

Key words : external fixation, Ilizarov, TSF, achondroplasia, distraction osteogenesis, Gigli saw osteotomy

Corresponding author : Dr. Medhat Sdeek; Department of Orthopedic Surgery, Cairo University Hospital, Egypt.

E-mail: dr_medhat_sdeek@yahoo.com

ism that results in considerable physical and psychological handicaps owing to the disproportionate stature of the body and difficulty in performing routine daily activities. These individuals often feel different from their families and circle of friends and often suffer from emotional disturbances and are prone to have inferiority complexes⁴⁾¹¹⁾.

In addition to short stature, individuals with achondroplasia often have substantial angular deformities of the limbs, spinal problems; other neurologic and craniofacial abnormalities develop³⁾⁸⁾. Limb lengthening by the Ilizarov method has been used in patients with achondroplasia by many authors during the past few decades, but with varying amounts of success¹⁾²⁾⁴⁾⁵⁾⁷⁾¹²⁾¹⁶⁾. Owing to its modularity and versatility, the Ilizarov method can simultaneously address limb shortening and angular deformities in these individuals⁹⁾¹⁹⁾. In the last Twenty five years we have used Ilizarov's method in a number of patients affected by achondroplasia, with satisfactory results. The results in 78 cases, followed up for two years or more after the end of treatment, are presented here.

Method

Tibial lengthening

The pre-construction of the apparatus consists

of a proximal block (a half-ring and a complete ring, connected by hexagonal sockets of 2 or 3 cm) and a distal ring, in addition to an intermediate ring positioned between the previous two (Fig. 1-a). The osteotomy of the fibula must be performed at an intermediate level (Fig. 1-b). For fixation of the apparatus to the leg, we introduce a first reference wire to the proximal tibia and a second wire distally, with transverse direction. The inferior tibio-fibular syndesmosis must be fixed with one of the Kirschner wires. Then the wires are connected to the rings. At this point the apparatus is centralized on the leg and the axis of the assembly is aligned with the anatomical axis of the tibial. To complete stabilization of the apparatus to the tibia more wires and Schanz screws are inserted (Fig. 1-c). After fixation, the tibial osteotomy is done subperiosteally using a Gigli saw.

Humeral lengthening

The device is constituted by a proximal arc (the smallest of those of the apparatus Catagni-Cattaneo) and a distal half ring connected via Angular supports. The first reference wire is inserted to the distal end, perpendicularly to the longitudinal axis of the humerus, directed from posterolateral to anteromedial, at the level of the epicondyle. Be sure that the humerus is fully centralized. Three half pins are inserted proxi-



Fig. 1. Tibial lengthening a) the pre-construction of the apparatus b) fibular osteotomy c) the apparatus after fixation to the tibia on both sides



Fig. 2. Humeral lengthening a) the pre-construction of the apparatus b, c) fixation of the apparatus to the humerus d) Callotasis

mally. Distal fixation is completed by an additional wire and a half pin. The osteotomy is performed distal to the insertion of the deltoid, preferably with multiple drill technique (Fig. 2).

Femoral lengthening

The configuration currently used consists of a distal ring, a proximal block consists of two arcs of the same diameter connected to each other through two hexagonal sockets 6 cm and connected with the distal ring by means of two threaded rods and two oblique supports (Fig. 3-a). The apparatus centered on the thigh, we introduce a transverse Kirschner wire with a diameter of 1.8 mm in the distal metaphysis of the femur. This wire is connected to the distal ring and tensioned to 110 kg. 3 or 4 half pins 6 mm in diameter are used to fix the proximal block, sometimes covered with hydroxyapatite. 3 half pins are applied to the distal ring, namely a medial, proximal to the rim, with an inclination of about 45° with respect to the transverse Kirschner wire, with direction from the postero-medial to the anterolateral and two lateral, proximal to the ring, inclined at 45°, with the direction from posterolateral to anteromedial (Fig. 3-a). This configuration offers a great stability

to the system avoiding transfixation of the vastus lateralis and medialis, ensuring the full functionality of the quadriceps and allowing a better range of motion of the knee, with the prevention of possible stiffness. We proceed to the distal metaphyseal osteotomy with a Gigli saw subperiosteally. At the end of elongation and when bone regeneration is consistent, you can remove the medial components of the apparatus and the medial half pin. In this way, the configuration is only lateral, but with the half pins inserted in different planes (Fig. 3-b).

Distraction

Currently, the strategy⁹⁾¹⁸⁾ applied at the Lecco Hospital is the following: 1. Simultaneous lengthening of the legs, with bifocal technique. The rate of elongation is never greater than 1/4 mm 3 times per day for each level of osteotomy. The lengthening of the Achilles tendon is performed only if necessary and, usually, after a few inches of stretch.

2. Simultaneous lengthening of the humerus, with one level technique, with the rate of 1/4 mm 3 to 4 times a day.

3. Simultaneous lengthening of the two femurs (applying the new hybrid configuration, the tol-



Fig. 3. Femoral lengthening a) fixation of the apparatus to the femur b) remove the medial components of the apparatus and the medial half pin c) vertical lengthening in some patients

erance of the apparatus allows a bilateral application), with one level technique, with rate of 1/4 mm 3 to 4 times a day. For very young patients, if necessary; a further lengthening is performed, in this case vertical (femur and leg), so as to gain additional 10-12 cm (Fig. 3-c).

Patients and results

78 Achondroplastic patients, aged between 10 and 20 years at operation, who have been followed up for 24 months. The mean age at first lengthening procedure was 11 years and 6 months. Our strategy for lengthening depends on the horizontal method. In 10 cases the horizontal method was applied followed by the vertical method to gain 40 cm in total of stature. Single level, but sometimes double level lengthening was applied. The results comprise lengthening of 126 legs, 82 arms and 57 thighs; with a total of 265 lengthening procedures. The duration of treatment from initiation of lengthening to removal of the apparatus was 12.8 months in the tibia, 7.8 months in the femur, and 8.3 months in the humerus. The consolidation index (days per centimeters of lengthening) was 27.5 days in the tibiae, 23.8 days in the femora, and

30.6 in the humeri. The average height gained was 15.7 cm (range from 14 to 19 cm) from tibial lengthening and 9.8 cm (range from 8 to 12 cm) from femoral lengthening. While the average humeral length gained was 9.9 cm (range from 8 to 12 cm). A total bone lengthening of up to 104 cm was reached in 10 cases of bilateral tibial lengthening, bilateral humeral lengthening, bilateral femoral lengthening and further longitudinal tibial and femoral lengthening. There have been complications in 5 cases, the most frequent being pin tract infection and equinus deformity of the foot. The complications were treated with good results. We have not observed any fracture of a regenerated bone.

Discussion

Ilizarov's ingenious idea of influencing the growth of the bone regenerated after compactotomy by taking advantage of its pliability, makes it possible to lengthen the bone and at the same time to correct any deformity present⁴⁾⁷⁾⁹⁾. Limb lengthening is a complex procedure and has a high complication rate¹⁰⁾. The limb must be lengthened safely without causing deterioration in function. In the lower limb there

seems to be an increasing number of complications when the lengthening exceeds 20%. This phenomenon does not occur in the humerus¹⁰⁾¹⁷⁾²⁰⁾. Achondroplastic patients tolerate lengthening well because of ligament and soft tissue laxity, and their muscle length exceeds their bone length before lengthening¹⁴⁾. Since one of the basic principles of Ilizarov's method is the application of load to the limb by weight bearing or exercise, the cooperation of the patient is essential. Treatment should not start until the child is capable of walking even when experiencing some pain. However, there may be more advantageous to plan limb lengthening when the patients are fully aware of their handicap. They are then willing to cooperate and more able to cope with the discomfort caused by wearing the apparatus. There is no contraindication to carry out a further lengthening of a bone after an interval of some years, since the regenerated bone is normal in structure. Limb lengthening can be started even after bone growth has ceased. After the second decade of life, Achondroplastic subjects lose interest in improving their physical aspect; at this age the risk of complications from treatment also increased⁴⁾. Surgical and postsurgical complications we have encountered were classified as minor, moderate, and severe. Minor complications were those which required only modification of the apparatus during treatment. Twenty-three percent of the lengthenings required some modification of the device during treatment. Moderate complications were those which required additional procedures during lengthening (correction of angular deformities by means of hinges, replacement of Kirschner wires). Forty-two percent of patients fell into this category. Finally, severe complications were those which required another surgery following treatment or

left permanent lasting sequelae on the patient. Twenty-one percent of patients fell into this category. The most common complication was equinus contractures of the ankle which required treatment by tendo-achilles lengthening. Two pulmonary emboli were sustained following percutaneous tendo-achilles lengthening. One patient died as a result of this complication. In one case of bilateral tibial elongation through proximal osteotomy, there was a complete absence of the regenerate, and we had to proceed with distal osteotomy and bone transport with success⁶⁾¹⁵⁾.

Conclusion

Despite the significant complication rate, we feel that the handicap due to short stature suffered by patients with achondroplasia warrants continued treatment using the Ilizarov technique. None of the patients in this series regretted their decision to undergo limb lengthening. The Ilizarov apparatus allows significant flexibility, allowing correction of axial deviation without surgical intervention. With appropriate motivation of the patient and skill of the surgeon, it is possible to overcome the difficulties presented by these long and potentially risky procedures. The surgical procedure that we applied with the circular Ilizarov apparatus has allowed us to improve the quality of life of our patients suffering from achondroplasia.

References:

- 1) Aldegheri R, Dall'Oca C: Limb lengthening in short stature patients. *J Pediatr Orthop B* **10** : 238-247, 2001.
- 2) Aldegheri R, Trivella G, Renzi-Brivio L et al: Lengthening of the lower limbs in Achondroplastic patients: a comparative study of four techniques. *J Bone Joint Surg Br* **70** : 69-73, 1988.

- 3) Carter EM, Davis JG, Raggio CL: Advances in understanding etiology of achondroplasia and review of management. *Curr Opin Pediatr* **19** : 32-37, 2007.
- 4) Cattaneo R, Villa A, Catagni M et al: Limb lengthening in achondroplasia by Ilizarov's method. *Int Orthop* **12** : 173-179, 1988.
- 5) De Bastiani G, Aldegheri R, Trivella G et al: Lengthening of the lower limbs in achondroplastics. *Basic Life Sci* **48** : 353-355, 1988.
- 6) Eralp L, Kocaoglu M, Bilen FE et al: A review of problems, obstacles and sequelae encountered during femoral lengthening : uniplanar versus circular external fixator. *Acta Orthop Belg* **76** (5) : 628-635, 2010.
- 7) Goldstein RY, Jordan CJ, McLaurin TM et al: The evolution of the Ilizarov technique part 2: the principles of distraction osteosynthesis. *Bull Hosp Jt Dis* **71** (1) : 96-103, 2013.
- 8) Haga N: Management of disabilities associated with achondroplasia. *J Orthop Sci* **9** : 103-107, 2004.
- 9) Ilizarov GA: Clinical application of the tension-stress effect for limb lengthening. *Clin Orthop Relat Res* **250** : 8-26, 1990.
- 10) Kim SJ, Agashe MV, Song SH et al: Comparison between upper and lower limb lengthening in patients with achondroplasia: a retrospective study. *J Bone Joint Surg Br* **94** : 128-133, 2012.
- 11) Kim SJ, Balce GC, Agashe MV et al: Is bilateral lower limb lengthening appropriate for achondroplasia? : midterm analysis of the complications and quality of life. *Clin Orthop Relat Res* **470** : 616-621, 2012.
- 12) Lavini F, Renzi-Brivio L, De Bastiani G.: Psychologic, vascular, and physiologic aspects of lower limb lengthening in achondroplastics. *Clin Orthop Relat Res* **250** : 138-142, 1990.
- 13) Lee ST, Song HR, Mahajan R et al: Development of genu varum in achondroplasia: relation to fibular overgrowth. *J Bone Joint Surg Br* **89** : 57-61, 2007.
- 14) Paley D: Current techniques of limb lengthening. *J Pediatr Orthop* **8** : 73-92, 1988.
- 15) Paley D: Problems, obstacles, and complications of limb lengthening by the Ilizarov technique. *Clin Orthop Relat Res* **250** : 81-104, 1990.
- 16) Peretti G, Memeo A, Paronzini A et al: Staged lengthening in the prevention of dwarfism in achondroplastic children: a preliminary report. *J Pediatric Orthop B* **4** : 58-64, 1995.
- 17) Sabharwal S, Green S, McCarthy J et al: What's New in Limb Lengthening and Deformity Correction? *J Bone Joint Surg Am* **93** : 213-221, 2011.
- 18) Thorey F, Bruenger J, Windhagen H et al: Muscle response to leg lengthening during distraction osteogenesis. *J Orthop Res* **27** (4) : 483-488, 2009.
- 19) Vaidya SV, Song HR, Lee SH et al: Bifocal tibial corrective osteotomy with lengthening in achondroplasia: an analysis of results and complications. *J Pediatr Orthop* **26** : 788-793, 2006.
- 20) Yun AG, Severino R, Reinker K: Attempted limb lengthening beyond twenty percent of the initial bone length: results and complications. *J Pediatr Orthop* **20** : 151-159, 2000.

Efficacy of Antibiotic Impregnated Allogenic Bone Graft as Local Antibiotic Delivery System in Controlled Osteoarticular Infection

Lakhwani OP, Associate Professor Orthopaedics Surgery ;
Kapoor S K, Professor Orthopaedics surgery and Dean

ESIC- Post Graduate Institute of Medical Sciences and Research

ESI Hospital, Basaidarapur, Ring road, New Delhi, India

Abstract : **[Introduction]** Osteomyelitis is dreaded infection necessitating prolonged and sustained antibiotic therapy which carries the disadvantages of systemic adverse effects and high cost of therapy. Current study aims to assess safety and efficacy of use antibiotic loaded allogenic cancellous bone as a carrier of antibiotics in controlled osteoarticular infection.

[Materials and Methods] Study involved case series of twelve patients with localized and controlled osteoarticular infection. Hydrophilic antibiotics were selected according to common organism responsible for the osteoarticular infection and culture and sensitivity. Allogenic cancellous antibiotics impregnated bone graft augmented with autologous bone graft or Bone marrow aspirate was used along with appropriate surgical procedure.

[Results] Patients were evaluated for infection eradication and osteointegration. Over all 6 cases were treated successfully thus obviating any subsequent procedure. Infection was eradicated in 10 cases. Osteointegration was achieved in all the cases in which autologous bone graft was used as adjuvant and in two out of four cases in which bone marrow aspirate was also used). Two cases were considered failure which required secondary procedures and change of fixation.

[Conclusion] Cancellous bone allograft as antibiotic carrier clinically provided safe, prolong and effective local antibiotic for treating osteoarticular Infection. It may be superior to surgical debridement and systemic antibiotic alone for infection eradication and may offer better osteointegration when used along with adjuvants like autologous bone graft or Bone marrow.

[Level of Evidence] level IV. Study can serve clinical basis of using the allogenic bone graft as carrier of antibiotics for safe and cost beneficial treatment of osteoarticular infection avoiding side effects of systemic antibiotics and simultaneously aiding bone healing by osteointegration.

INTRODUCTION

Bone and joint infections are known for chro-

nicity, difficult eradication and osteolysis require prolonged systemic antibiotics for treatment. Surgical debridement alone may be ineffective

Key words : allogenic bone graft, local antibiotic, osteomyelitis

Correspondence duthor : Dr. O P Lakhwani

Associate Professor Department of Orthopaedics Surgery

ESI Hospital, ESI PGIMSR

Basaidarapur, Ring road, New Delhi-110015, India.

E-mail – orth365@gmail.com, dr.omprakash.lakhwani@esic.in

Phone : +91 9555628578, Fax : +91 11-25440722

in eliminating micro-clusters from biofilms and small colony variant bacteria³⁾ that survive and replicate intracellularly in osteoblast, macrophages and other cells leading to recurrence of infection²⁾. These pathogens are also difficult to retrieve and missed in culture. Hence high local concentration of antibiotic for a prolonged duration is desirable to eliminate such pathogens.

Antibiotics loaded synthetic material⁵⁾⁶⁾ like Poly methyl methacrylate bone cement (PMMA), Calcium hydroxy apatite, Calcium sulphate (Plaster of Paris) has been used as carrier of antibiotics for local delivery and filler of defect but have limitations of lack of osteointegration and second surgery for removal. Allograft bone material loaded with antibiotics may have advantage over them as it provides prolonged local antibiotic delivery, fills the defect and requires no second surgery for removal. Allograft bone loaded with antibiotics has been used in in-vitro study by Eivind Witso et al¹⁷⁾ using different antibiotics and found to be effective and safe. In an experimental animal study by Shyam K Saraf et al¹³⁾ using decal bone matrix for local antibiotic delivery in experimental animal study and found it to be effective. Clinical study by Heinz Winkler¹⁶⁾ have also found use of antibiotic impregnated bone graft to be effective and safe in one stage exchange of infected hip replacement. Current study evaluates further the efficacy and safety of Allogenic cancellous bone graft as local antibiotic carrier in treatment of controlled osteoarticular infection.

Materials and Methods

The study was approved by institutional ethical committee and all patients were fully informed and agreed to participate in the study.

The inclusion criteria were patients of all age group with localized and controlled osteoarticular infection (in whom adequate surgical margins free from dead necrotic tissue could be achieved after surgical debridement) and wound coverage could be obtained primarily by suturing or flap coverage. Patient having minimum followup of six months were included in the study. Exclusion criteria were active osteoarticular infection and hypersensitivity to the antibiotics to be used in the study. Hydrophilic antibiotics among (Vancomycin, Ciprofloxacin, Clindamycin, Gentamicin, Tobramycin) were selected according to common organism responsible for the osteoarticular infection and culture & sensitivity. Twelve consecutive cases were treated. Surgical procedure and fixation was performed wherever required (Table - 1).

Graft Preparation

Allogenic bone graft was procured from consented patients having undergone total hip and knee arthroplasty. Donors were pre screened for diseases and infection and graft was gamma sterilized with a dose of 25 grays of radiation at an accredited centre and stored at (-76 degree Celsius) for minimum of three months before use in institutional bone bank.

During surgery allogenic cancellous graft was manually morcelized and washed with plenty of sterile saline. The bacterial culture of the allograft was taken before implantation to ascertain sterility. Morcellized bone graft was kept in 20 ml distilled water solution consisting of antibiotic in concentrations (Table 2) for a period of 45-60 minutes. Adjuvant autologous bone graft was used in four cases, bone marrow aspirate in another four cases and in rest four cases allogenic bone graft alone was used.

Postoperatively all patients were given usual course of systemic antibiotic for seven days. Pa-

Table 1. Case series study observation and out come

S n	Diagnosis	Surgical procedure	Antibiotic used	Adjuvant	Out come		
					Osteointegration	Infection	Over all outcome
1	Infected partial union radius/ulna Plate in situ	Plate removal debridement ALBG	Vancomycin	ABM	Healing of #ulna 5 months. Partial osteointegration in radius	Eradicated	Infection eradication with healing
2	Infected NU S/ F#bone loss ILN in situ	Debridement ALBG	Vancomycin Tobramycin	Nil	Gradual lysis of bone graft 5 m.	Infection eradicated	Bone grafting exchange nailing union at 6 m
3.	Segmental#Tibia	ILN rotation flap ALBG	Vancomycin	ABG	osteointegration at 7 months	eradicated primary healing	Fracture union 6 months
4	Atrophic infected nonunion tibia#	ALBG Corticotomy ilizarov	Vancomycin	Nil	Graft resorption seen at 5 m	Infection healed	Second procedure (7 months later) with TENS + ABM
5	S/C femur#bone sinuses	ilizarov ALBG + ABG	Vancomycin Tobramycin	ABG	osteointegration at 8 months	Eradicated	healed fracture with infection eradication
6	Infected I/ T#with PFN in situ	Debridement + AIBG	Vancomycin	Nil	Gradual lysis of graft at 4 m	Serous discharge culture (-)	Improved bone quality, required revised fixation
7	#Tibia with discharging sinus	Debridement ALBG	Vancomycin	ABM	Healing of fracture	No further sign of infection	Healing of fracture
8	Open#tibia proximal third	ALBG, plating, flap rotation	Vancomycin- Netlimycin	ABG	osteointegration seen at 5 months	eradicated primary healing	Fracture healing with eradication of infection
9.	Osteomyelitis tibia	Debridement ALBG	Vancomycin	ABM	improved bone filling lesion	Eradicated	Healed infection and bone
10	Osteomyelitis Humerus	ALBG	Vancomycin	ABG	healing of defect	Eradicated	Eradication of infection with healing
11	Infected Open#tibia ext. fixater in situ	AIBG Flap rotation ilizarov	Vancomycin- Gentamycin	Nil	lysis of bone graft at 4 m	Infection Eradicated	Ilizarov removed fracture healed 8 months
12	#S/F discharging sinus	Debridement ALBG	Vancomycin	ABM	Lysis of graft, healing of defect	Sterile discharge at 5 day, healed there after	Eradication of infection with healing

Abbreviations -#- fracture, I/T – intertrochanter, NU – non union, PFN – Proximal femoral nail, BG – bone graft, ILN - Interlocking nail, ABM autologous bone marrow, S/F Shaft femur, T/F tibia-fibula, TENs – titanium elastic nail, AIBG – Allogenic Bone graft, ABG – Autologous Bone graft, m - months

tients were followed regularly at appropriate interval. Particular attention was given to any sign of infection / inflammation. Radiographs at intervals were done till completion of follow up to determine the status of host bone and graft, Bone healing and osteointegration by Sloof et al criteria¹⁵⁾ (Table 3). Infection was assessed by clinical examination, blood investigation and ra-

diological examination.

Results

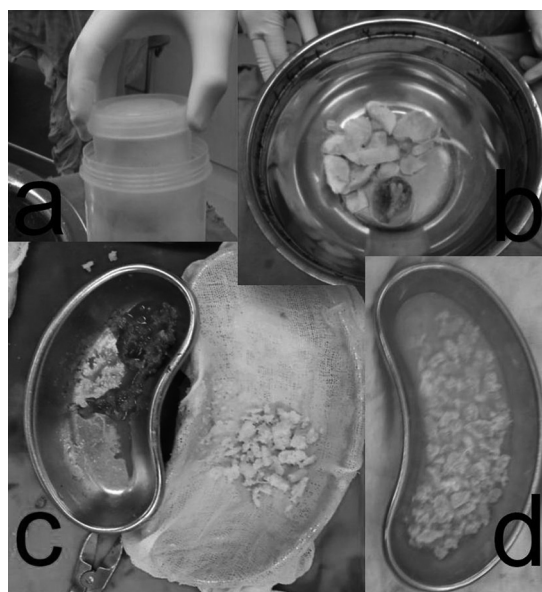
All the twelve patients could be followed for more than six months with a mean followup of 12 months (8 months – 17 months). None of the patients showed clinical or histological evidence of any immunological reaction.

Table 2. Eivind Witso' et al³ Concentration of antibiotics solution used in the study

Antibiotic	Concentration
Vancomycin	50 mg/ml
Ciprofloxacin	2 mg/ml
Clindamycin	150 mg/ml
Tobramycin	75 mg/ml
Netilmicin	100 mg/ml
Teicoplanin	100 mg/ml

Osteointegration - Evaluated as per sloof et al¹⁵ criteria. In four cases (two infected tibia-fibula, one fracture shaft femur and one subtrochanter fracture) in which cancellous allograft with antibiotics alone was used showed gradual complete resorption of bone graft in 16-20 weeks. (Figure -) without any sequestrum with improved bone quality. Other four cases involving fractures of supra condylar femur, shaft femur, shaft Humerus and Tibia fibula in which autologous bone graft was used as adjuvant showed good healing and partial graft osteointegration in immediate vicinity of the host bone while rest of the allograft gradually got resorbed in a mean time of 16.8 weeks (14-22 weeks). Among four cases with autologous bone marrow as adjuvant two (osteomyelitis and fracture tibia fibula) gradually showed improved bone quality, with allograft partial osteointegration. One case of fracture shaft femur and other of fracture Tibia showed gradual complete resorption of bone graft but with eradication of infection.

Infection Eradication - Six patients healed primarily without requiring any further interven-

**Fig. 1** (a) showing allograft stored in double jar, (b) Graft reconstituted (c) Morcelised graft before and after mixing with bone marrow (d) graft mixed with antibiotic solution.

tion. Two patients required second time augmentation with antibiotic impregnated allogenic bone graft with adjuvant (autologous bone graft) to achieve infection eradication and bone healing. One patient of infected fracture tibia fibula developed serous discharge first observed on 5th postoperative day which on culture revealed *Pseudomonas aeruginosa*. The patient was put on appropriate systemic antibiotic therapy for three weeks and there was no further clinical sign of infection. Another patient of fracture subtrochanter femur with nail in situ further required debridement, secondary procedures and change of fixation. No other case developed any sign of infection.

Success rate of procedure in terms of infec-

Table 3. Sloof' s Criteria¹³ for assessing osteointegration of allogenic bone grafts

i.	Presence/Absence of progressive lucent lines between the preexisting bone and the graft.
ii.	Absence of resorption of graft
iii.	Radiographic homogeneity of the graft.



Fig. 2(a)skiagram showing infected non union supracondylar femur(b)treated by ilizarov & allogenic antibiotic graft augmented with autograft(c) & (d)fracture healing osteointegration and infection eradication.

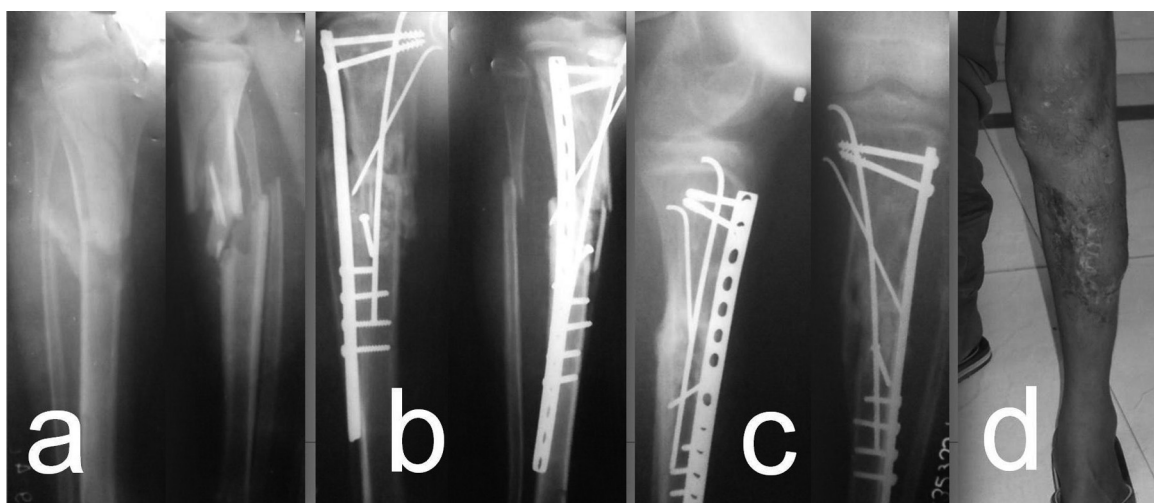


Fig. 3(a)showing infected fracture proximal tibia(b)treated with fixation allogenic antibiotic graft augmented with autograft(c) & (d)fracture healing osteointegration and infection eradication.

tion eradication without requiring any subsequent procedure was 50 percent (six out of twelve cases). Overall infection eradication was achieved in 10 out of 12 cases. Osteointegration was achieved in all four cases in which autologous bone graft was used as adjuvant and in 50 % cases (two out of four) where autologous bone marrow aspirate was used. Two cases were considered failure in which allogenic bone

graft alone was used (fracture subtrochanter and one fracture tibia fibula) which required secondary procedure and revised fixation.

Discussion

Earliest use of bone allograft for reconstruction has been practiced by Aubigne RM¹⁾ since 1966. In most experimental models, fresh allografts are associated with a rigorous inflam-

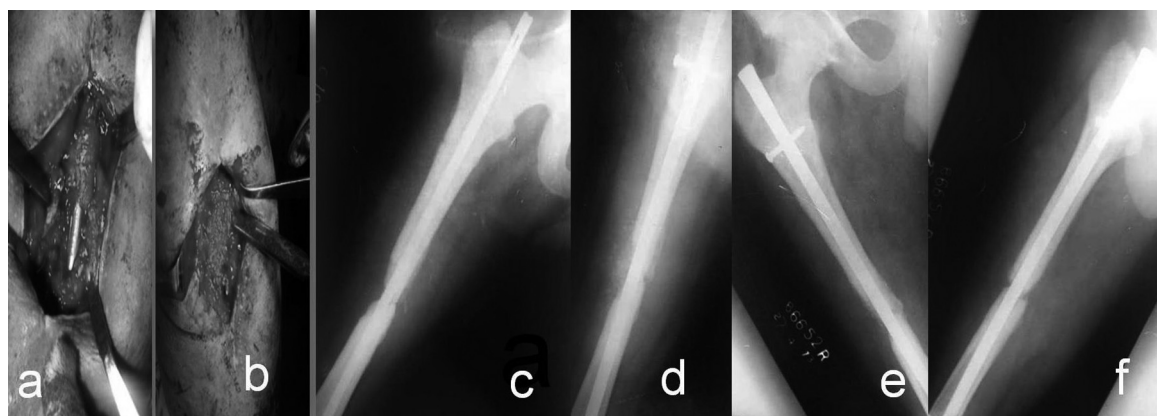


Fig. 4 (a) showing infected shaft femur fracture intraoperative after debridement with bone loss (b) grafted with allogenic antibiotic graft alone (c) & (d) gradual graft lysis (e) & (f) infection eradication, complete graft re-absorption without osteointegration.

matory response as well as a specific immune response. However, deep frozen allografts are associated with decreased immunogenicity and no demonstrable change in initial mechanical properties as reported by Friedlander G⁴⁾ in 1987.

The incorporation of antibiotic loaded bone graft was first studied by C. Gudmundson⁷⁾ 1971 who showed that the presence of tetracycline locally markedly inhibited bone graft incorporation. Use of one as a carrier for vancomycin has been studied in vitro by Witso E et al¹⁷⁾¹⁸⁾ vancomycin is favoured because of its physiochemical properties of hydrophilicity, heat stability and efficacy against *Staphylococcus* species which is most common cause of osteoarticular infection. Buttaro MA et al²⁾ in 2003 showed in an in-vitro study that vancomycin if used in appropriate concentration (1 gram dry vancomycin powder for 300 grams of bone graft.) will not affect osteointegration of allogenic bone graft. Peak levels attained locally by such a use were higher than Minimum Inhibitory Concentration (MIC) value of vancomycin for most susceptible organisms, but were 2000 times lower than the levels (10,000 µg/ml) associated with death of osteo-

blasts. Japaul S Gogia et al⁹⁾ studied the effect of local antibiotic therapy in osteomyelitis. Kakiuchi M et al¹⁰⁾ also used the human bone matrix as alloimplant in local control of orthopedic infection and found effective.

In our clinical study use of the allogenic morcelized cancellous bone as a carrier of antibiotic for prolonged elution in targeted area and facilitation of osteointegration was evaluated. Further risk of allograft related graft infection as described by Ketonis C et al¹¹⁾ can be obviated by combining the antibiotic with allograft. Use of cancellous bone graft has advantage that it provides good substrate to absorb the antibiotic and adjuvant, it also get reabsorbed easily if not in cooperated without risk of further perpetuation of infection. Use of the adjuvant (Autologous bone graft and bone marrow) augment the healing potential of allograft as was observed in eight cases where adjuvants were used and achieved favourable outcome in terms of osteointegration. Extraosseous placed allogenic bone graft besides the fracture was inevitably got resorbed in all the cases in a time period of 14–18 weeks.

Synthetic bone graft substitute such as calci-

um phosphate, calcium sulphate etc has been also used in various studies by Siegel HJ¹⁴⁾, El-Adl G, Mostafa MF⁴⁾ and Shibuya K et al¹²⁾ and showed better results when used in conjunction with bone marrow which provide the osteo-inductive property to scaffold. Recent trends show increasing use of the synthetic bone graft substitute⁸⁾ due to wide commercial availability but, do not demonstrated superiority of one over other. However synthetic substitute take long time to reabsorbed or incorporated in host bed hence may act as foreign body and after elution of antibiotic and may lead to persistence of infection. Canellous allobone graft if not integrated in host bed usually reabsorbed and prevent perpetuation of infection.

In the present series no adverse effect of antibiotic used in was observed. The two failure cases in the study group comprised of one established non union of mid diaphysial tibial fracture and Sub Trochanter fracture belonged to non union group which needed larger osteogenic potential which allogenic bone graft alone may have lacked and required subsequent surgery with change of fixation device. It appears that in such situations use of allogenic bone alone does not suffice and some osteogenic potentiator is also required to boost the already sluggish healing process. Intraoperative findings were suggestive of increased vascularity at the fracture site with complete resorption of allograft and presence of bone defect. These findings are suggestive of allogenic bone graft being able to induce an inflammatory reaction at the fracture site which may aid in healing process but is not sufficient to bring about fracture union as graft resorption occurred.

Conclusion

In present case series use of antibiotic aug-

mented allogenic bone graft as carrier in controlled osteoarticular infections appears to be novel and effective step in treating these dreaded infections. However graft integration occurred partially and may be attributed to infection related lyses as well as limited osteogenic potential of allogenic bone graft, hence its augmentation with adjuvant such as autologous bone graft and or bone marrow is necessary to improve outcome. However further studies and larger case series are required for further validation.

Acknowledgements

We sincerely acknowledge valuable suggestion and help by my colleague inder pawar, Rajat Gupta, Lalchandani R, Ramavtar, Kuldeep, Dogra S, Jindal M and Agarwal S. Administrative and research help from my institution ESI Hospital, Anesthesiologist and radiologist for their valuable contribution.

References

- 1) Aubigne RM, Meary R, Thomine JM in Rev: Resection in the treatment of bone tumours. *Chir Orthop* **52** : 305, 1966.
- 2) Buttar MA, González Della Valle AM, Piñeiro L et al: Incorporation of vancomycin-supplemented bone incorporation of vancomycin-supplemented bone allografts: radiographical, histopathological and immunohistochemical study in pigs. *Acta Orthop Scand* **74**(5) : 505-513, 2003.
- 3) Easmon CS: The effect of antibiotics on the intracellular survival of *Staphylococcus aureus* in vitro. *Br J Exp Pathol* **60**(1) : 24-28., 52 : 305, 1979.
- 4) El-Adl G, Mostafa MF, Enan A et al: Biphasic ceramic bone substitute mixed with autogenous bone marrow in the treatment of cavitary benign bone lesions. *Acta Orthop Belg* **75** : 110-118, 2009.
- 5) Finkemeier CG: Bone grafting and bone graft substitutes, *J Bone Joint Surg Am.* **84-A**(3) :

- 454-464, 2002.
- 6) Friedlander G.E: Bone banking in support of reconstructive surgery of the hip, current concepts review – bone grafts: *J Bone and Joint Surg* **69**(5) : 786-790, 1987.
- 7) Gudmundson C: Oxytetracycline induced fragility of growing bones. An experimental study in rats, *Clin Orthop* **77** : 284-289, 1971.
- 8) Hagen A, Gorenai V, Schönermark MP: Bone graft substitutes for the treatment of traumatic fractures of the extremities, *GMS Health Technol Assess* **8**: Doc04. doi: 10.3205/hta000102. Epub 2012 Jun 14.
- 9) Jaspaul S G, John P M, Paul E et al: Local antibiotic therapy in osteomyelitis *Semin Plast Surg* **23**(2): 100-107, 2009.
- 10) Kakiuchi M, Hosoya T, Takaoka K et al: Human bone matrix gelatin as a clinical alloimplant, *Int Orthop* **13** : 13-24: **9** : 181-188, 1985.
- 11) Ketonis C, Barr S, Adams CS et al: Bacterial colonization of bone allograft: establishment and effect of antibiotics. *Clin Orthop Rel Res* **468**(8): 2113-2121, 2010.
- 12) Shibuya K, Kurosawa H, Takeuchi H et al: The medium-term results of treatment with hydroxyapatite implants. *J Biomed Mater Res B Appl Biomater* **75** : 405-413, 2005.
- 13) Shyam K S, Awadhesh Y S N, MR Sen Decal: bone matrix as a local antibiotic delivery vehicle in a MRSA-infected bone model: an experimental study *Indian J Orthop* **44**(3): 246-251, 2010.
- 14) Siegel HJ, Baird RC 3rd, Hall J et al: The outcome of composite bone graft substitute used to treat cavitary bone defects. *Orthopedics* **31** : 754-4, 2008.
- 15) Slooff TJ, Huiskes R, van Horn J, Lemmens AJ: Bone grafting in total hip replacement for acetabular protrusion. *Acta Orthop Scand* **55** (6) : 593-596, 1984.
- 16) Winkler H: Rationale for one stage exchange of infected hip replacement using uncemented implants and antibiotic impregnated bone graft, *Int J Med Sci* **6**(5) : 247-252, 2009.
- 17) Wits E, Persen L, Lnrseth K et al: Adsorption and release of Antibiotics from morselized cancellous bone In vitro studies of 8 antibiotics, *Acta Orthop Scand* **70**(3): 298-304, 1999.
- 18) Witsø E, Persen L, Benum P et al: Local concentrations without systemic adverse effects after impaction of netilmicin-impregnated bone. *Acta Orthop Scand* **75**(3) : 339-346, 2004.

Old Monteggia Treatment with Open Reduction and Z - Lengthening Technique with Annular Ligament Reconstruction

Perajit Eamsobhana, M.D
Kamolporn Keawpornawan, M.D

Department of Orthopedics and Rehabilitation,
Faculty of Medicine, Siriraj Hospital, Bangkok, Thailand

Abstract : Background : The purpose of the study is to evaluate the clinical and radiographical outcomes after open reduction and Z-lengthening technique with annular ligament reconstruction for the treatment of a chronic Monteggia fracture-dislocation.

Methods : The authors postoperatively investigated the clinical and radiographical outcomes for ten children with a chronic Monteggia fracture. The study group included seven boys and three girls mean age of nine years and one month at the time of open reduction. Each patient had been treated with open reduction of the radial head combined with ulna osteotomy and elongation, bending with z- plasty technique and annular ligament reconstruction. Clinical and radiographical outcomes were reviewed over a mean duration of follow-up of thirty-eight months.

Results : The postoperative Mayo Elbow Performance Index (MEPI) at the time of follow-up ranged from 95 to 100 and no poor results. The radial head remained in a completely reduced position in ten patients. In three patients, osteoarthritic changes were observed at the radiohumeral joint. Radiographically, there were seven good, three fair, and no poor results. A fair radiographic result was obtained in the patients who had undergone open reduction more than three years after the injury and two patients was operation at the age of eleven and thirteen years old.

Conclusions : Good clinical and radiographical outcomes can be expected if open reduction for the treatment of a chronic Monteggia fracture is performed when the patient is less than twelve years of age or within three years after the injury. Open reduction and Z-lengthening technique with annular ligament reconstruction for the treatment of a chronic Monteggia fracture-dislocation is safe with good results without bone graft. No nonunion is report in our series.

Intoroduction

Chronic Monteggia lesion in children is often missing diagnosed. The ulna mostly has plastic deformation with radial head dislocation, which may not obvious to the clinician. The neglected radial head dislocation is diagnosed several months after the injury when the patient com-

plains of bony prominent, slight or moderate elbow pain, decreased elbow flexion, valgus deformity of the elbow, and neurologic problems (sensory or motor loss caused by a tardy ulnar nerve palsy or a posterior interosseous nerve palsy)⁴⁾⁶⁾⁷⁾⁹⁾¹³⁾¹⁶⁾.

Chronic Monteggia lesion is defined, as the dislocation is not reduced and still present 4

weeks after injury¹⁶⁾. If it was untreated, the dislocated radial head loss its concave articular surface and demonstrates hypertrophic changes and the humeral capitellum configuration flattens, thereby limiting the range of elbow flexion and extension¹³⁾¹⁴⁾¹⁶⁾. There are many options to these problems in growing child, ranging from observation to radial head resection if patient has symptoms at skeletal maturity¹⁸⁾, open reduction and ulna osteotomy with or without annular ligament reconstruction. Many authors have recommended that a missed radial head dislocation in a child should be treated with open reduction as early as possible once it is diagnosed¹⁾²⁾⁴⁾⁸⁾¹⁶⁾²⁰⁾.

Even though many authors agree that open reduction is necessary to reduce the radial head, opinions still differ regarding the need for reconstruction annular ligament and the need for over correction of the ulna. Patient age and interval time from injury to operation are also the important factors that affect the surgical outcome after open reduction.

From 2001, ten children with a chronic Monteggia fracture-dislocation have been managed with open reduction of the radial head combined with Z-lengthening ulnar osteotomy and annular ligament reconstruction. The present report describes our surgical technique as well as the clinical and radiographic outcomes.

Materials and Methods

During the period from 2001 to 2009 ten children with a missed radial head dislocation after a Monteggia fracture were managed consecutively at our hospital with open radial head reduction combined with Z-lengthening ulnar osteotomy and annular ligament reconstruction with additional radiocapitulum pinning in seven patients. The study group included seven boys

and three girls with a mean age of nine years (range, 6~13 years) at the time of open reduction. All patients were treated surgically and were followed for at least twenty-four months (mean 38.8 months ; range, 24 to 120 months).

Surgical procedures were described below. A skin incision was made beginning at the posterior and distal of the humerus and goes along distal on the lateral side of the radiocapitellar joint, passing to the level of the proximal metaphysis of the ulna, and extending to the middle part of the posterior aspect of the ulna along the bony border of ulna. The radiohumeral joint was approached between the extensor carpi ulnaris and anconeus muscles and fibrous tissue was removed. The radial head was exposed, and the state of the cartilage of the radial head was assessed. The remnant of annular ligament was identified and used for augment in the reconstruction of annular ligament with triceps fascia. In all cases, an ulnar osteotomy with Z-lengthening technique was performed first, and then the radial head was reduced. An ulnar osteotomy with z-lengthening was performed in all patients with Bado Type 1, in Bado type 3 the ulna osteotomy was performed to corrected varus deformity but bending and lengthening was not performed. The ulna was stabilized with a plate containing four to seven screw holes (Fig. 1).

After reduction of the radial head and fixation of the ulna with a plate, annular ligament reconstruction was performed at the level of the radial neck with triceps fascia and augment with the remnant of annular ligament¹⁸⁾ in all case. Radiocapitulum pinning was used in seven case depend on stability after reduction of radial head intraoperative. Suction drain was applied at the osteotomy site. Postoperatively, a cast was applied with the elbow flexed to 90 degrees and the forearm in a supination position in Bado

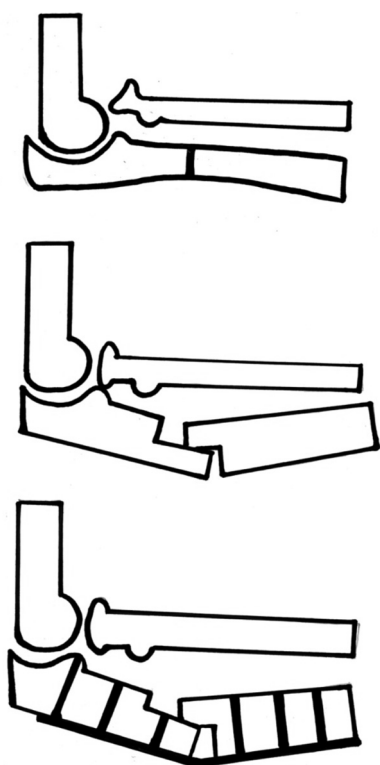


Fig. 1. Ulnar osteotomy with Z lengthening technique and fixation with eight holes plate, without bone graft.

type 1. The immobilization period was approximately six weeks following surgery. Radiocapitulum pin was removed at 6 weeks. After removal of the cast, active elbow motion was encouraged. Return to physical activity was allowed after radiographic union was seen. There was no specific physiotherapy program.

At the time of follow-up, all patients were interviewed and examined individually by two of the authors by interview and physical examination is interpreted by Mayo Elbow Performance Index¹⁵⁾ (MEPI) as excellent (90 or > 90 points), good (75~89 points) fair (60~74 points) and poor (< 60 points).

Pre operative and postoperative ROM, expressed as the sum of the flexion-extension arc and pronation-supination arc, was determined with a goniometer using standard method. We

defined a full flexion-extension arc as 140 degrees, full pronation arc as 80 degrees, and full supination arc as 85 degrees.

Radiographic assessment all patients had routine anteroposterior and lateral radiographs of the elbow, which were checked for deformity of the radial head, osteoarthritic changes, and dislocation or subluxation of the radial head. The deformity of the radial head was evaluated on the anteroposterior and lateral radiographs according to Kim et al.¹²⁾. Radial head hypertrophy was determined by measuring the diameter of the radius at the widest portion of the metaphysis adjacent to the physis(a) and the narrowest portion of the neck just proximal to the bicipital tuberosity(b). If a/b was > 1.5 , radial head hypertrophy was considered to be present. Subluxation of the radial head was considered to be present when a line drawn down the center of the radial neck did not pass through the central one-third of the capitellum on the lateral radiograph. The radiographic results were divided into three categories : good (complete reduction of the radial head without osteoarthritic changes of the elbow), fair (reduction with radial head subluxation or osteoarthritic changes of the elbow), and poor (radial head dislocation).

Results

A summary of the preoperative data is shown in Table 1. In total ten patients, eight were classified as Bado type I, and two were classified as Bado type III. Anteroposterior and lateral radiographs of the elbow revealed that all patients had a complete dislocation of the radial head : the direction of the dislocation was anterior in eight patients and anterolateral in two. Radial head deformity was observed in three patients, loss of concavity of the radial head was seen in two of these patients, and hypertrophy of the

Table 1. Clinical data of the ten children in the Study

Pt. No.	Sex	Injury Age	Bado Type	Age at Operation	Preop Delay (mo)	Treatment	f/u (mo)
1	M	5yr	I	8yr	36	UO + OR + AR	38
2	M	8yr	III	11yr	36	UO + OR + AR	72
3	M	3yr	I	7yr	24	UO + OR + AR + TP	36
4	M	5yr	I	8yr	36	UO + OR + AR + TP	24
5	M	3yr	I	6yr	36	UO + OR + AR + TP	39
6	M	5yr	I	9yr	24	UO + OR + AR + TP	25
7	F	8yr	III	9yr	8	UO + OR + AR + TP	24
8	M	8yr	I	13yr	60	UO + OR + AR + TP	28
9	F	6yr	I	7yr	8	UO + OR + AR + TP	29
10	F	3yr	I	13yr	120	UO + OR + AR	24

UO : ulna osteotomy, OR : open reduction of radial head, AR : Annular ligament reconstruction, TP : transradiocapitella pin, F/u, duration of follow-up

Table 2. Pre and Post operative range of motion and complications

Pt. No.	Before Surgery		After Surgery		complication
	Pro-0-sup	Flex-0-ext	Pro-0-sup	Flex-0-ext	
1	60-0-70	120-0-0	80-0-85	130-0-0	-
2	50-0-70	120-0-0	70-0-80	130-0-0	-
3	60-0-80	120-0-0	60-0-80	140-0-0	-
4	60-0-80	100-30-30	70-0-80	120-30-30	-
5	80-0-80	120-0-0	80-0-80	130-0-0	broken of transradiocapitella pin
6	60-0-80	120-0-0	80-0-85	140-0-0	broken of transradiocapitella pin
7	80-0-80	120-0-0	80-0-85	140-0-0	-
8	60-0-80	120-0-0	70-0-80	130-0-0	-
9	80-0-80	120-0-0	80-0-85	140-0-0	-
10	50-0-80	100-0-0	70-0-80	120-10-10	re-dislocation

* Complication : broken of transradiocapitella pin, re-dislocation

radial head was noted in one patient. The overall postoperative clinical results, radiographic results, and complications are shown in Table 2 and 3. The average MEPI score at the time of the latest follow-up was 99.5, with all excellent clinical results. No patient complained of pain. None of the patient complained of limitations of daily life. At the time of the latest follow-up, the radial head was maintained in a completely reduced position in all of the patients. Redislocation of the radial head was observed in one patient post operatively (patient no.10) but in the

cases with temporary radiocapitulum pinning no dislocations were seen at 24-month follow-up. Osteoarthritic changes of the radiohumeral joint were observed in three patients ; the changes were mild in all three patients.

Mean interval between the injury and open reduction was 38.8 months. Hypertrophy of the radial head was found in, all of who showed radial head deformity had undergone surgery more than three years after the initial injury.

On the basis of our radiographic evaluation criteria, seven patients were rated as good,

Table 3. Radiographic results

Pt. No	Radiographic finding	Radiographic results	Age at Operation	Preop. Delay (mo)
1	no osteoarthritis change, no subluxation	good	8yr	36mo
2	no subluxation, hypertrophy of radial head, mild osteoarthritis change	fair	11yr	36mo
3	no osteoarthritis change, no subluxation	good	7yr	24mo
4	no osteoarthritis change, no subluxation	good	8yr	36mo
5	mild osteoarthritis change, no subluxation	fair	6yr	36mo
6	no osteoarthritis change, no subluxation	good	9yr	24mo
7	no osteoarthritis change, no subluxation	good	9yr	8mo
8	no osteoarthritis change, no subluxation	good	13yr	60mo
9	no osteoarthritis change, no subluxation	good	7yr	8mo
10	mild osteoarthritis change, no subluxation	fair	13yr	120mo

three were rated as fair, and none were rated as poor (Table 3). The mean MEPI score was 99.5. The mean interval between the injury and open reduction was 28 months for the patients who were rated as good and 64 months for those who were rated as fair. The mean age at the time of open reduction was 8.7 years for the patients who were rated as good and 10 years for those who were rated as fair. The relationships between the clinical data at the time of open reduction and the radiographic results at the time of follow-up are shown in Table 3. Reduction of the radial head was maintained with osteoarthritic change in two patients who were less than twelve years old at the time of the operation. No patient who has interval of less than three years between the injury and the operation had radial head with osteoarthritic change. When the age at the time of open reduction was twelve years or more and the interval to open reduction was longer than three years, three had osteoarthritic changes of radiohumeral joint. One patient (no.8) has good radiologic outcome even the preoperative delay was 60 months and the age at surgery was 13 years old.

Discussion

Patient age at the time of open reduction and the interval between a Monteggia fracture and surgery, remain controversial. With respect to age, Wilkins proposed that reconstruction should be performed only in patients under 12 years old²⁰⁾. Hirayama et al.⁶⁾ and Stoll et al.¹⁸⁾ recommended open reduction for children less than ten years of age; however, they did not recommend surgery when radial head deformity, flattening of the capitellum, or valgus deformity of the radial neck was present. Horii et al.⁸⁾ reported that open reduction was beneficial for patients younger than twelve years of age without radial head deformity, and this finding was confirmed by Wang and Chang¹⁹⁾. Our results also show that the older the child at the time of open reduction and the longer the interval from injury to open reduction, the lower the likelihood of a good result but in our series has one patient (no.8) has 13 years old at the time of surgery and preoperative delay for 60 months shows good result with no osteoarthritis change. No patient with an age of less than twelve years at

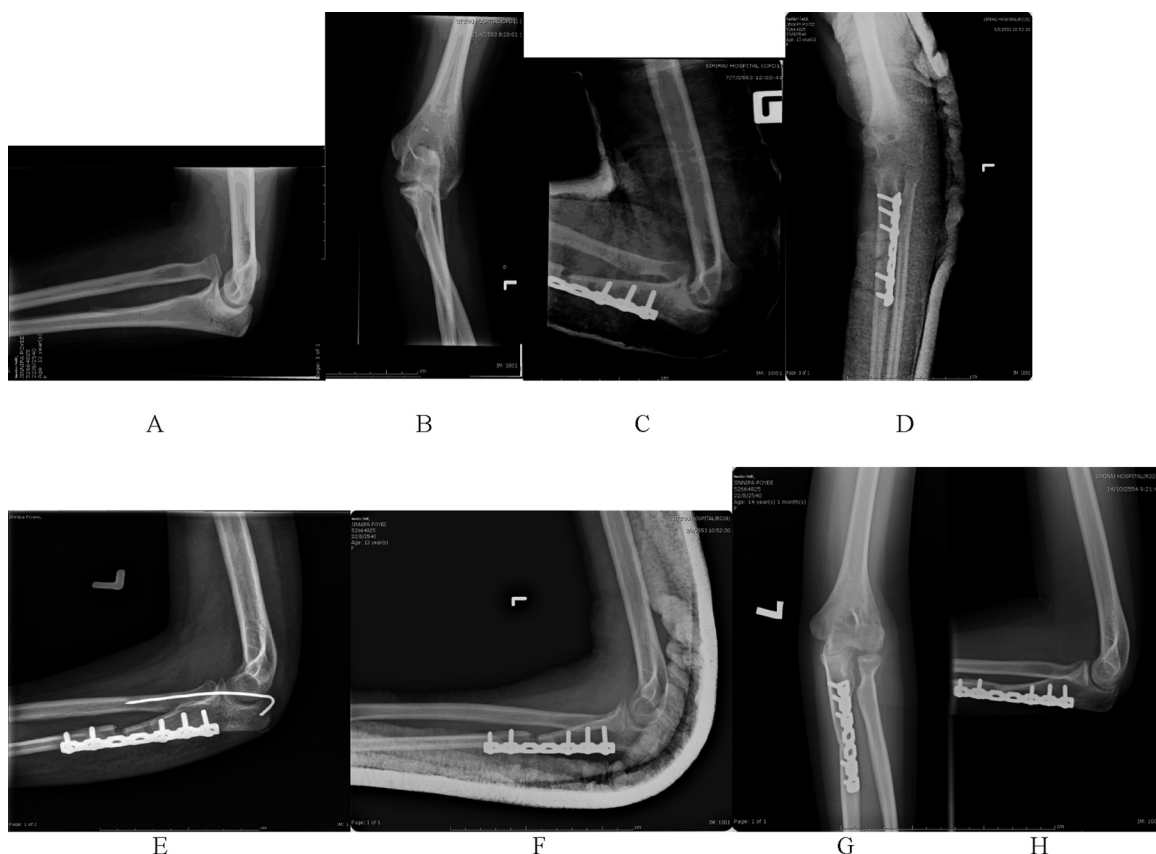


Fig. 2. (A,B)Thirteen years old girl with Monteggia Bado type 1, interval from injury to operation is ten years, (C,D)immediate dislocation post -operatively (E)after closed reduction with transradiocapitella pin radial head was reduced,(F)remove transradiocapitella pin at 6 weeks,(G,H)at follow up 24 months with no subluxation, osteoarthritis of radiohumeral joint was observed.(Patient No. 10)

the time of open reduction with an interval of less than three years between the injury and open reduction showed subluxation of the radial head or osteoarthritic changes of the radiohumeral joint.

With regard to the interval between the injury and open reduction, the findings have varied among reports, with Wang and Chang¹⁹⁾ stating that the acceptable interval is three years, Stoll et al.¹⁸⁾ stating that it is four years, and Best³⁾ stating that it is six years. However, none of those authors provided statistical evidence to support their indications. Our results show that six patients who have preoperative delay more than 36 months, only three patients(no. 2,5,10)

have osteoarthritis change. We cannot concluded that patient age more than 12 years old or preoperative delay more than three years should not performed surgery until we has more statistical evident to support the indications. However, even if the patient does not meet the criteria, open reduction for a missed Monteggia fracture-dislocation is still advisable because almost all clinical outcomes of our patients were improved after surgery. If open reduction is to be performed for such patients, however, it should be informed about the high risk of subluxation of the radial head and osteoarthritic changes.

Regarding the surgical procedures for recon-

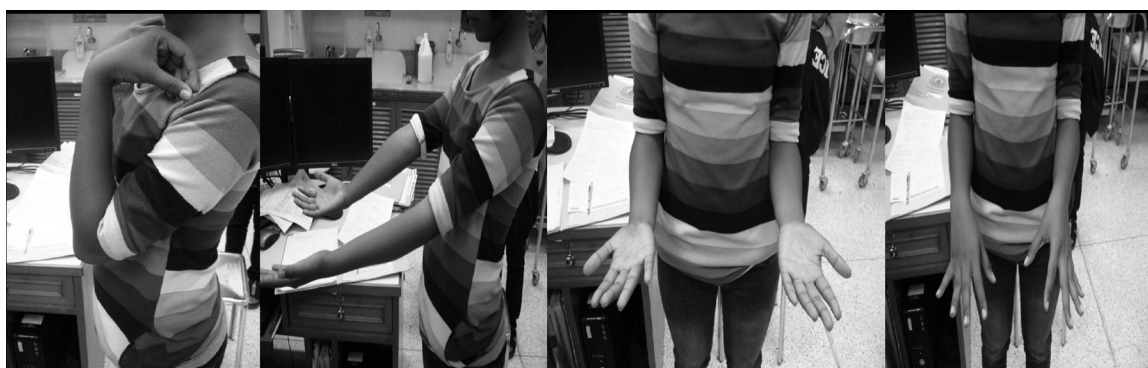


Fig. 3. Clinical and range of motion of chronic Monteggia left elbow 24 months after surgery.(Patient No. 10)

struction of the annular ligament, several methods have been proposed, such as using a free palmaris longus tendon, pedicled forearm fascia, fascia of the triceps, and the remnant of the annular ligament. Kalamchi¹⁰⁾ also used the torn annular ligament to stabilize the radial head in two cases. Seel and Peterson¹⁷⁾ found that the annular ligament was impinged between the radial head and the humerus in all seven of their cases, and they used it for reconstruction in five. Reconstruction of the annular ligament was thought to result in limit rotation of the forearm if it is not properly tensioned⁵⁾. Limit rotation, especially in pronation, have been reported after annular ligament reconstruction. We used annular ligament reconstruction with triceps fascia in all patients because most of the patients have preoperative delay more than 24 months and intraoperatively the remnant of annular ligament was not healthy enough to use for reconstruction, but in some case, we can use annular ligament to augment the triceps fascia. Postoperative range of motion still has some limitation of pronation but improve compared to preoperative and all has excellent MEPI score.

Two types of ulna correction have been proposed, a simple correction¹¹⁾¹²⁾ and an angular overcorrective osteotomy⁶⁾ fixed with plate or intramedullary wire. Hirayama⁶⁾ performed over-

corrective osteotomy with lengthening. Inoue and Shionoya⁹⁾ compared simple correction versus overcorrection and annular ligament reconstruction and found better results on second group. The concept of ulnar osteotomy is to tighten the interosseous membrane sufficiently to keep the radial head in a correct anatomical position. To preserve all of the interosseous membrane and to use its tension to pull the radial head posteriorly. Proximal ulnar osteotomy has the advantages of having an unnoticeable posterior curvature and avoiding restriction of forearm rotation because the tension in the whole interosseous membrane remains constant. In our series we done ulna osteotomy with posterior bending and lengthening technique and fixed with six to eight holes plate and screws, this technique not required bone graft and no nonunion or delayed union in our series. Range of motion and MEPI score improve compare to preoperative.

This study had several limitations. First, for the evaluation of the condition of the radial head, we measured its size and shape with use of conventional radiographs. Magnetic resonance imaging currently has the ability to evaluate the size, configuration of the articular surface, and quality of articular cartilage of the radial head, and it can also display the condition of the radial

notch of the ulna.

In the future, open reduction should be based on the preoperative anatomical or functional status of the radial head, the radial notch of the ulna, and the remnant of the annular ligament as detected with magnetic resonance imaging or other advance imaging techniques. Second, we used the MEPI as a functional score although it has not been validated for use in studies of children.

Conclusions

From the viewpoint of performing an open radial head reduction with a posterior bending elongation ulnar osteotomy combined with an annular ligament reconstruction, we considered these two methods to be similar enough to be analyzed as one group. Last, although multivariate analysis with logistic regression is necessary to identify significant risk factors related to outcome, the number of patients in our study was insufficiently to be analyzed

In this way. Therefore, we could not prove that patients who undergo the operation within three years after the injury or before the age of twelve years have a significantly higher chance of obtaining a good result. Despite such limitations, our data support that, if open reduction for the treatment of a chronic Monteggia fracture dislocation is performed before the patient is twelve years of age or within three years after the injury, good long-term clinical and radiographical outcomes should be expected.

Technique of posterior bending elongation with Z plasty technique combined with annular ligament reconstruction leads to stable reduction of the radial head, safe, no need for bone grafting and no delay union in our series and we support this technique to treat chronic Monteggia fracture dislocation.

References

- 1) Bado JL : The Monteggia lesion. Clin Orthop Relat Res **50** : 71-86, 1967.
- 2) Bell Tawse AJ : The treatment of malunited anterior Monteggia fractures in children. J Bone Joint Surg **47-B** : 718-723, 1965.
- 3) Best TN : Management of old unreduced Monteggia fracture dislocations of the elbow in children. J Pediatr Orthop **14** : 193-199, 1994.
- 4) Chen WS : Late neuropathy in chronic dislocation of the radial head. Report of two cases. Acta Orthop Scand **63** : 343-344, 1992.
- 5) De Boeck H : Treatment of chronic isolated radial head dislocation in children. Clin Orthop Relat Res **380** : 215-219, 2000.
- 6) Hirayama T, Takemitsu Y, Yagihara K et al : Operation for chronic dislocation of the radial head in children. Reduction by osteotomy of the ulna. J Bone Joint Surg **69-B** : 639-642, 1997.
- 7) Holst-Nielsen F, Jensen V : Tardy posterior interosseous nerve palsy as a result of an unreduced radial head dislocation in Monteggia fractures : a report of two cases. J Hand Surg [Am] **9** : 572-575, 1984.
- 8) Horii E, Nakamura R, Koh S et al : Surgical treatment for chronic radial head dislocation. J Bone Joint Surg **84-A** : 1183-1188, 2002.
- 9) Inoue G, Shionoya K : Corrective ulnar osteotomy for malunited anterior Monteggia lesions in children. 12 patients followed for 1-12 years. Acta Orthop Scand **69** : 73-76, 1988.
- 10) Kalamchi A : Monteggia fracture-dislocation in children. Late treatment in two cases. J Bone Joint Surg **68-A** : 615-619, 1986.
- 11) Kim HT, Conjares JN, Suh JT et al : Chronic radial head dislocation in children, part 1 : pathologic changes preventing stable reduction and surgical correction. J Pediatr Orthop **22** : 583-590, 2002.
- 12) Kim HT, Park BG, Suh JT et al : Chronic radial head dislocation in children, part 2 : results of open treatment and factors affecting final outcome. J Pediatr Orthop **22** : 591-597, 2002.
- 13) Lloyd-Roberts GC, Bucknill TM : Anterior dislocation of the radial head in children : aetiology, natural history and management. J Bone Joint Surg **59-B** : 402-407, 1977.
- 14) Miura T : Congenital dislocation of the radial

- head. J Hand Surg [Br] **15** : 477-581,1990.
- 15) Morrey BF : Functional evaluation of the elbow. In Morrey BF(ed). The Elbow and Its Disorders, 2nd ed. Philadelphia, WB Saunders Co, 1993.
- 16) Rodgers WB, Waters PM, Hall JE : Chronic Monteggia lesions in children. Complications and results of reconstruction. J Bone Joint Surg **78-A** : 1322-1329, 1996.
- 17) Seel MJ, Peterson HA : Management of chronic posttraumatic radial head dislocation in children. J Pediatr Orthop **19** : 306-312, 1999.
- 18) Stoll TM, Willis RB, Paterson DC : Treatment of the missed Monteggia fracture in the child. J Bone Joint Surg **74-B** : 436-440, 1992.
- 19) Wang MN, Chang WN : Chronic posttraumatic anterior dislocation of the radial head in children : thirteen cases treated by open reduction, ulnar osteotomy, and annular ligament reconstruction through a Boyd incision. J Orthop Trauma **20** : 1-5, 2006.
- 20) Wilkins KE : Changes in the management of Monteggia fractures. J Pediatr Orthop **22** : 548-54, 2002.

2012 年度後期 Murakami-Sano-Sakamaki Asia Visiting Fellowship 報告

西部島根医療福祉センター 整形外科

星 野 弘太郎

2012 年後期 Murakami-Sano-Sakamaki Asia Visiting Fellowship に選出いただき、2013 年 11 月 24 日から 12 月 6 日の間、インドのムンバイを訪問させていただきました。Ashok Johari 先生のもとで 2 週間の研修をさせていただきました。残念ながらインドは旅行者が医療に従事することができず、ビザ発行時にその旨誓約書の提出が必要でした。また、インド入国のためには事前にビザの申請が必要で、それに 1 か月かかることを知った時には大変焦りました。

11 月 23 日(土) 氷点下の早朝、広島空港から成田空港、そしてムンバイへと出発しました。チャットラパティー・シヴァージー国際空港では、Dr. Sudhir が素敵な笑顔とともに出迎えてくれました。とても蒸し暑くみな T シャツでした。そして、ホテルへ向かうタクシーで早速インドの洗礼を受けました。まさにジェットコースター！日本なら F1 レースでしかみたことがないような、猛レース状態。人間よりも車優先というインドスタイルで、人混みを突っ走り、クラクション鳴らしまくりの鳴らされまくりで、到着した時にはそれまでの旅疲れは吹っ飛んでいました(笑)。ホテルはセキュリティのしっかりした、清潔で空調のよく効いたお部屋で、滞在中リラックスすることができました。ジョハリ先生の元には私だけでなく、イギリスの Southampton General Hospital からチェンナイ出身のインド人 Dr. Madhu も来ていて、彼には終始英語の通訳で助けてもらいました。インド英語の独特さはある程度聞いていたのですが、‘thumb’をタム、‘think’をチンク、‘thoughts’をトーツ、など特に‘th’には苦戦させられました。

11 月 24 日(日) 朝ホテル周辺を散歩してみると、広大な公園で何百人もの人がクリケットをしていて壮観でした。この日は Dr. Ratna が観光に連れて行ってくれました。Dr. Ratna はジョハリ先生の娘さんで、ASIAN fellow で横浜での JPOA に参加されボツリヌス療法のポスター発表をされていました。世界遺産「チャトラティ・シバージー駅」を通り、インド門とホテル・タージで大混雑の中記念写真ができました(図 1)。ランチはインド料理、ディナーはバーベキュー料理で、スパイシーの洗礼を受け、大汗をかきました。それ以降は Dr. Ratna が気を利かせてくれ、ノン・スパイシーもしくはリトル・スパイシーで過ごすことができました。



図 1. インド門を背に Dr. Ratna Johari と

11 月 25 日(月) 朝から外来見学が開始しました。ジョハリ先生は 11 の医療施設で仕事をされていて、この日は街のメインストリートの外来診察のためのクリニック(Children's Orthopaedic Centre)での外来でした。予約スケジュールを見せてもらおうと、今日は 50 人とのことでした。我々の対応のために通常よりも少なくしていつもは 70 人で、一人当たりの診察説明時間は 15 分とされており、合計 17.5 時間、つまりは日付変わって午前 1~2 時まで続くとのことでした。結局少なくされていても予約外の患者さんが多く、終わったのは午前 1 時でした。患者さんとの会話は複数の現地言語のため、生の声が直接わから

なかったのは残念でしたが、一例一例解説をしていただきました。部下の3人の先生からは「自分たちは外来診察を一切見せてもらえない。あなたはラッキーだ」と言われました。ジョハリ先生は外来診察に看護師も若い医師もつけず、独りでされるとのことでした。

11月26日(火) 朝から数km離れたLiLavati病院にて手術見学でした。脳性麻痺の左股脱に対する両股軟部組織解離+観血整復術、左大腿骨近位減捻短縮骨切術+タナ形成術でした。大腿直筋近位の延長はreflected headへ移行する方法でした。10時間で終わり、それからJohari Nursing Home(図2)という別のクリニックへ行き、21時から全麻下のボツリヌス注射+矯正ギプスがありました。23時からオープンテラスでの夕食にあずかりました。



図2. Johari Nursing Home

11月27日(水) 朝からLiLavati病院で、19歳CPの重度crouch gaitに対する両大腿骨遠位伸展骨切り術でした。手術室ではスマホ、タブレットが使い放題で、機器へのトラブルなど全くないそうです。大音量でのインド音楽が流れ、みなが歌いだす場面もあり面喰らいました。この日はJohari先生宅にご招待いただきました。日本をとっても好きだとおっしゃり、ご自宅にはなんと10を超える盆栽がありました。日本に留学されていた時の日本語練習帳を懐かしそうに見せてくださいました。奥さまとゆっくりお話する時間がありましたが、毎日3時間も寝ておられないと体調を大変心配されておられました。

11月28日(木) この日は手術日で、最もヘビーな日でした。朝8時からの手術で終わったのは翌朝10時まで26時間の手術でした(図3)。内反足術後再発、膝8プレート×2、脛骨偽関節の矯正術、創外固定術後感染。朝10時から2時間仮眠をとって、12時からクリニックで外来が開始されました。



図3. 手術室のティーコーナー(左がDr.Johari)

11月29日(金) 外来患者さんの中に側弯のインストゥルメント矯正症例がおられたので、どちらの病院で手術されたのですか?と聞くとジョハリ先生が執刀されたとのことで驚きました。ジョハリ先生は、もともと脊椎外科医なものでした。どのような経緯で小児整形外科医にと尋ねると、「誰もしないから」そして「子供が好きだから」ということでした。

11月30日(土) この日はAcademic dayとして、私たちフェローのプレゼン、若手先生たちのプレゼン・論文抄読、10例のCase Discussionなどの時間です。私は「Orthopaedic selective spasticity-control surgery(Matsuo's method of soft-tissue releases : OSSCS) to treat spastic hip dislocation or subluxation in children with cerebral palsy」, 「Universal Ultrasonographic Screening in Infants for Developmental Dysplasia of the Hip」の2題発表させていただきました(図4)。脳性麻痺の手術も多くされておられるので、ハムストリングスの中枢での延長の必要性をアピールしたところ、Johari先生も遠位の延長だけでは不十分と感じることがあり、参考にしたいと言ってくださいました。乳児股関節超音波検診に関しては、「very good slides」と言っていただき、大変興味を持っていただきました。インドには健診制度はなく、親が気付いて病院に連れて行かないと、すべての病気はneglectされます。股脱、内反足ほか、多くのneglect症例を見ておられるため、健診制度に関して何とかせね

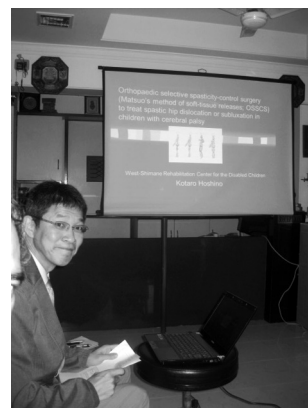


図4. 私のプレゼンテーション場面

ばとお考えのようでした。若手の先生から超音波はほかにどんな疾患に使えるのかなど質問をいただきました。しかし、インドでは超音波機器があると知れると、妊婦さんが胎児の性別を教えてくれと来るそうです。そして男の子でなければ中絶することも多いそうで、ジョハリ先生は「Abortion is very very bad…」と大変心を痛めておられました。

夕食には中華を食べに行くことをマダムに勧められ、Dr. Sudhir と Dr. Aravind の3人で出かけました。もうこのころには、みんなに私がお酒好きと知れて、「キングフィッシャー？」と聞いてくれます。キングフィッシャーとはインドのシェア No.1 のビールです。ジョハリ先生が箸の使い方がお上手なことを話すと、二人とも興味津々で箸の練習を希望してきました。二人とも器用なのでヌードルは何とか食べることができましたので、おつまみに出されていた焙り大豆がつまめたら OK だと言いました。すると一生懸命練習して3人で摘まんでいる写真が撮れました。すごく喜んでその写真はフェイスブックにもアップしていました(図5)。



図5. Dr.Sudhir と Dr.Aravind

12月1日(日) この日は1日フリーで、2人の若手ドクターと観光に行きました。2人ともムンバイから1000km以上離れた街から小児整形外科を勉強しに単身で赴任していて、仕事ばかりで観光はしていなかったとのことでした。インド門から出発するボートで50分離れたエレファンタ島へ行きました。ここには世界遺産があり、とても素晴らしい石窟寺院でした(図6)。ひとつの超巨大な岩を掘削して宮殿・神殿・数々の神様の像が連なったまま創られたものでした(図7)。いつの時代でもどの文化でも、気の遠くなるような遺跡には人類のすごさを感じさせられます。

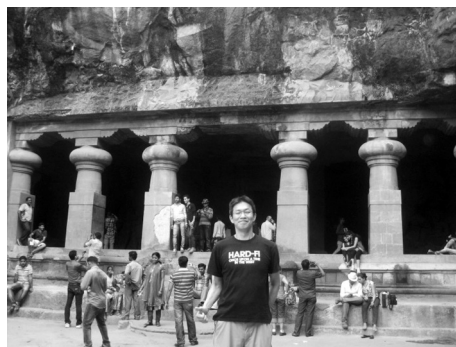


図6. 世界遺産エレファンタ島の石窟寺院

12月2日(月) 朝から外来です。この日は途中から手外科 Dr. Kaushik が参加され、CP, OBPP, radial club hand その他の手の変形について手術の相談をされていました。腱移行を中心とした矯正手術を考えておられました。外来の中でインド特有の治療として教えていただいたのは、筋性斜頸術後の体操療法でヒンズーダンス様の首運動、内反足に対する JESS 法があります。JESS(Joshi's External Stabilization System)法は、簡易的な創外固定キット(図8)で持続牽引をしながら、アキレス腱の伸張と内反の矯正を毎日お母さんによって調整していく方法です。PMR 術中にかたくて矯正ができそうないと判断されると、そのまますぐに JESS を装着するそうです。本法により距骨摘出例が減少しているとのことでした。

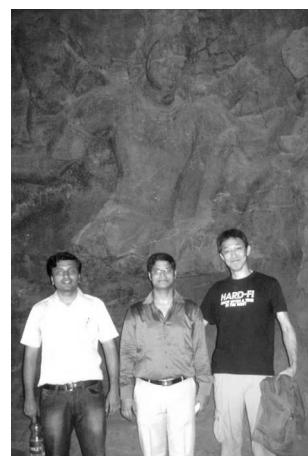


図7. 壁に掘られたヒンドゥーの神々

12月3日(火) 午前中 Nursing Home で全麻下でのボトックスや矯正ギプス更新が5例ありました。不安な顔をして待っている子供たちに、「ドラえもんは日本から来たんだよ」というとみな驚き、そして笑顔になりました(図9)。

午後からアーグラへの移動です(図10)。あの有名なタージマハールのある街です。翌日から開催さ

れるインドの日整会, Annual Conference of Indian Orthopaedic Association (IOACON) に参加させていただきました。Organizing Secretary の Dr. Sanjay Chaturvedi にもご挨拶させていただきました(図 11)。ジョハリ先生の周りには常に他のドクターがあいさつ



図 8. JESS 法で矯正中の女の子



図 9. ドラえもん大好き子

に来られ、人だかりができていて、皆さんが私に「ジョハリ先生はすごい先生なんだ」と声をかけてくださり、先生のお人柄がよくわかりました。

12月4日(水) IOA Interactive Pediatric Course に参加しました。参加者は少なく準備された 70 席のうちはじめ 10 人、結局 18 人でいどの参加で、小児整形外科への興味は限られているのだと実感しました。このコースでは参加型で 29 例の治療方針などを 1 日かけてディスカッションしていきます。その中でベルテス病後巨大骨頭に対して骨頭の真ん中を切除して小さくする Intracapsular osteotomy, 安定型 SCFE 用スウェーデンの伸びるデバイス (allow neck growth screw), 超音波検査での種々の方法 (Harcke 法, Terjesen 法, Barts 法) などが興味深かったです。また、UK からの講師からの DDH 治療プロトコルも大変勉強になりました。“Pavlik Harness Disease”には注意して! との呼びかけはある意味衝撃でした。



図 10. ムンバイで最後の記念写真

12月5日には楽しみにしていたタージマハールへ行くことができました(図 12)。想像以上の白さ・美しさで、莫大な総工費で国が傾くほどであったこともうなずけました。

これほど長期に異文化に触れることは、人生の中で初めてのことでした。東京よりも人口の多いムンバイ、交通渋滞の中、雄大に歩く象、休日泳ぐわけでもなく海岸に集まる数千人の人々、何気に見ていた 3 つの世界遺産、カレー三昧。松林先生に聞いていたトイレに困ることもなく、必ず ‘good water’ と言って手渡してくれる気遣いでお腹を壊すこともなく、大変充実した 2 週間を過ごさせていただきました。英語力の乏しい私にもやさしく指導いただき、「英語は大切だ。きっとあなたを守ってくれるだろう」とありがたいお言葉もいただきました。このフェローシップを創設された故 村上寶久・故 佐野精司先生、坂巻豊教先生に心より感謝を申し上げるとともに、私の小児整形外科医としての転機となる機会を与えていただきました清水克時理事長、藤井敏男先生、川端秀彦先生をはじめとする日本小児整形外科学会の皆様に感謝いたします。



図 11. IOACON2013 会長 Dr.Chaturvedi (右)

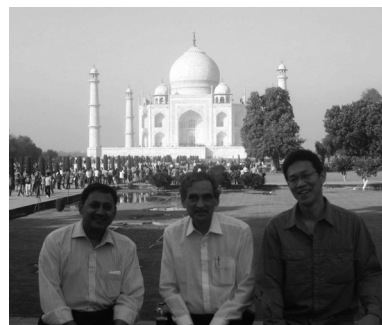


図 12. タージマハールを背に

KPOS-TPOS-JPOA Exchange Fellowship 訪問記

九州大学大学院 医学研究院 整形外科

河 野 裕 介

KPOS-TPOS-JPOA Exchange Fellowship として、2013 年 10 月 23 日～28 日に台湾を訪問しましたのでご報告いたします。

出発に先立ち、日本小児整形外科学会国際委員長の川端秀彦先生より Kuang-Tien Genaral Hospital の Dr. Pen-Gang Cheng を紹介していただき、同氏に行程を調整していただきました。期間中、前半は台中を拠点に Kuang-Tien Genaral Hospital と高雄の Kaohsiung Veteran General Hospital を訪問しました。後半は台北を拠点とし、Taiwan University Hospital の訪問と、National Defense Medical Center で開催された TOA (Taiwan Orthopaedic Association) の annual meeting に参加してきました。

10 月 23 日、福岡から 2 時間強で桃園国際空港へ到着しました。

そこから Dr. Cheng の勤務する台中の Kuang-Tien General Hospital へ移動しました。ここは 1913 年に設立された台湾で最古の個人事業主による病院であり、約 1300 床もある大病院です(写真 1, 2)。院内を案内していただいた後に、院長の Prof. Matthew Nai-Hwei Wang より先生方の業績の一部(痛みの持続する young adult の臼蓋形成不全に対する slotted acetabular augumentation の治療成績、Monteggia 骨折の橈骨頭脱臼が遺残した陳旧例に対する尺骨骨切りによる橈骨頭等整復と靱帯再建の治療成績)を紹介していただきました。いずれにおいても、見逃しによって問題となるケースがあり、Prof.Wang からは「日本では DDH の健診制度が整っていて羨ましい」とコメントをいただきました。初日の夕食は、Dr. Cheng と台中の日本料理屋へ行きました(写真 3)。食事後、台中市街や夜市などを車で案内していただきました。

10 月 24 日、AM7:40 からの Journal Club に参加しました。橈骨遠位端骨折に合併する舟状月状骨間靱帯損傷の診断に関する話題でした。また、Dr.Cheng より比較的にまれな外傷である Galeazzi 類似骨折における尺骨遠位骨端離開についてレクチャーを受けました。Galeazzi 類似骨折は背屈型と掌屈型に分類でき、前者は徒手整



写真 1 Kuang-Tien General Hospital



写真 2 スタッフの先生方。前列右から Dr.Cheng, 筆者, Prof.Wang



写真 3 台湾で大変お世話になった Dr.Cheng と

復が可能なのに対して、後者は ECU の介在で観血的整復が必要となることが多いということでした(Traumatic Separation of the Distal Ulnar Physis in Children : A New classification for Displaced Volar-Flexion Injuries というタイトルで J Orthop Trauma. に publish されています). 午後は Dr.Cheng と High speed rail という台湾の新幹線で高雄の Kaohsiung Veterans General Hospital を訪れ、Dr.Wei-Ning Chang の Gait laboratory を見学しました(写真 4). 脳性麻痺の歩行解析を行っている施設であり、患者にセンサーをつけて 10 台のカメラで撮影し、筋電図の解析、フットプリントの解析、歩容の解析などを通じて必要な術式を導き、確信を持って手術に臨むことができるとのことでした。その後、Dr. Chang の車で左営蓮池潭、愛河など高雄市内の名所を案内していただき、最後に訪れた小高い丘の上にある打狗英国領事館から見る夕陽は、とても綺麗でした(写真 5, 6).

10 月 25 日は新幹線で台北に移動し、National Taiwan University Hospital へ向かいました。Prof.Ken-Nan Kuo は第 23 回の本学会にて Clubfoot perspective と題して、ご講演されています。午前中は手術の見学でした。初めに Dr.Wang Ting-Ming の執刀する DDH に対する modified Ganz osteotomy と Dr.Wu Kuan-Wen の執刀する CP の club foot の手術が並列で行われました。Prof.Kuo はいずれの部屋でも適宜アドバイスをされています(写真 7). Ganz osteotomy においては被覆の改善だけでなく、骨頭の内方化の重要性を強調されました。また、Chang Gung Memorial Hospital に来られていた千葉の森田先生と偶然にも手術室でお会いすることができました(写真 8)。日本語が恋しくなり始めていたこともあり、とても安心したことを思い出します。午後は Prof.Kuo の外来を見学しました(写真 9)。待合室は患者であふれていましたが、患者・家族に非常に丁寧に接していたことが印象的です。Prof.Kuo の外来には数人の若手医師が付き、問診をとったり、Prof.Kuo の診察所見を英語でカルテに記入したりしていました。その日の夜は、学会のために台北に来られた Dr.Cheng と再び合流し、三越の台湾料理店でディナーをいただきました。

10 月 26 日は TOA の第 65 回 annual meeting に参加しました(写真 10)。プレゼンテーションは中国語ですが、すべての発表でスライドが英語であったことが印象的であり、また刺激にもなりました。小児整形のセッションでは口演の演題数は 15 と多く



写真 4 Kaohsiung Veterans General Hospital の Gait laboratory



写真 5 打狗英国領事館にて Dr.Chang と

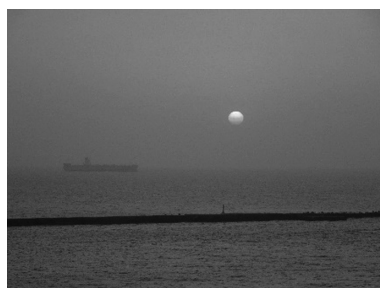


写真 6 打狗英国領事館からの夕暮れ時の眺め



写真 7 アドバイスする Prof.Kuo (左)と執刀医の Dr.Wang(中央)



写真 8 台湾大学の手術室内で昼食。右から Prof.Kuo, 筆者, 森田先生

はありませんでしたが, SCEF, DDH, ACL 損傷, CP, 思春期特発性側弯, 外傷など多岐にわたる内容でした。日本ではあまり見られない Crossfire というディベートのようなセッションでは, modular neck の是非についてそれぞれの立場からのプレゼンテーションと, その後の活発な討論が印象に残りました。その日のディナーは Prof.Kuo ご夫妻, Dr.Wang ご夫妻, Dr.Wu ご夫妻, 森田先生と真的好海鮮餐廳でいただきました(写真 11)。

10月27日の午前中は学会に参加し, 午後は Dr. Cheng の息子さん(現在アメリカ在住ですが, たまたま台湾へ帰省していたようです)に台北市内を案内してもらいました。この日最後に訪れた, 猫空という場所には全長 4033 m のロープウェイがあり, 標高が上がるにつれ台北の街を遠くに見下ろすことができます。台湾でも有数のお茶の産地であり, 山の斜面には茶畑が広がっていました。鉄観音茶と呼ばれるお茶が有名だそうです。茶店では茶葉を注文し, 出された茶器セットを使って自分でお茶をいれる形式で, 余った茶葉は持ち帰ることができます。映画のワンシーンのような夕暮れ時の幻想的な風景はとても印象的でした(写真 12)。

今回の台湾訪問は1週間という短期間で多くの先生方と出会うことができ, 大変充実した時間を過ごすことができました。台湾の人の国際的な視野を持った考え方は, 私には大いに刺激になりました。台湾での滞在中, ほぼ一緒に行動し, 面倒をみていただいた Dr.Cheng には心より感謝申し上げます。台湾という国やそこで暮らす人々の素晴らしさに感動し, 今後とも交流を続けられたらと思っています。

最後にこのような機会を与えてくださいました清水克時理事長, 岩本幸英前会長, 川端秀彦国際委員会委員長をはじめとする日本小児整形外科学会の先生方に, この場をお借りして心より感謝申し上げます。



写真 9 Prof.Kuo の診察室にてスタッフの先生方と



写真 10 TOA 会場



写真 11 台湾大学の先生方・ご家族との夕食



写真 12 猫空の風景

就任挨拶

日本小児整形外科学会理事長
齋藤知行



このたび、清水克時前理事長の後任として日本小児整形外科学会理事長を拝命いたしました。会員の皆様に就任のご挨拶をさせていただきます。

小児整形外科学会と私との積極的な関わりは横浜市立大学病院で小児整形外来を担当し、小児整形外科の啓発と普及を目的に設置された教育研修会の委員となった頃からです。当時は埼玉県立小児医療センターの佐藤雅人委員長を中心に研修内容を立案しました。研修会場当日は300名以上の参加者で大盛況であったことを覚えております。そのころから海外との交流は活発で、委員として参画させていただいた国際委員会では現在6つのFellowshipを実施しています。アジアを中心に留学生を受け入れ、国際交流と相互理解の役割を担ってきました。これらの成果は先達の先生方の先見性と学会の発展に向けられた努力によるところが大きいと考えております。もう一つの先見性は、他の学会に先駆けて理事長制度を設置したことだと思います。学会運営の継続性を維持し、小児整形を取り巻くさまざまな問題に迅速かつ適切な対応を可能にしています。

少子高齢化の中で、小児整形外科を取り巻く国内状況は厳しいことは事実ですが、3年間の理事長在任期間に小児整形外科が整形外科の原点であることを考慮し、若い整形外科の先生方に積極的に学修の必要性をアピールして、会員数を増加させ活性化していきたいと考えています。また、今後の重要な課題として法人化の問題があります。小児整形外科の専門性を社会的に認知させるには法人化は不可欠ですので、早急にこの方向性を検討する必要があると考えています。

高山真一郎副理事長をはじめ学会理事の先生方にご助力を仰ぎ、ともに我が国の小児整形外科学を盛り立てていく所存です。会員の皆様のご支援をお願いいたします。

平成26年12月25日

日本小児整形外科学会 平成 26 年度第 2 回理事会議事録

日 時：2014 年 11 月 26 日(水)13：30～16：30

会 場：ヒルトン東京ベイ 2F Azur

出席者：清水克時(理事長)，高山真一郎(副理事長)，朝貝芳美，一戸貞文，尾崎敏文，川端秀彦，
金 郁喆，齋藤知行，高村和幸，芳賀信彦，服部 義，二見 徹，山下敏彦，和田郁雄，
渥美 敬(監事)，亀ヶ谷真琴(監事 会長)，奥住成晴(前会長)

欠席者：大関 覚，

(敬称略)

【報告事項】

1. 理事長報告

清水理事長より理事会開催に先立ち，挨拶があった。法人化に関しては最終項参照。

2. 学術集会について

(1) 第 25 回学術集会について

亀ヶ谷真琴(千葉こどもとおとなの整形外科 院長)会長から報告があった。テーマは，日本小児整形外科学会—その未来と国際化—で

演題応募状況：シンポジウム：24 題，パネルディスカッション：35 題，主題セッション：7 題，一般口演：76 題，Fellowship 関係：5 題，マルチセンタースタディ報告：1 題，英文ポスター17 題，ポスター：62 題，各種講演を加えた合計 274 題の応募があった。

11 月 29 日(土)順天堂大学医学部附属浦安病院 外来棟 3 階講堂で，9：30～11：30 症例検討会，13：00～17：10，若手整形外科医のためのセミナー(兼 第 4 回関東地区小児整形外科ベーシックコース講習会)が開催されることが報告された。

(2) 第 26 回学術集会について

第 26 回学会会長である清水理事長から概要の説明があった。岐阜大学秋山教授の協力のもと準備中である。乳幼児側彎症研究会が初めて併設開催される予定。

テーマは「子どもの未来，日本の未来」で，会期は 2015 年 12 月 4 日(金)，5 日(土)岐阜市，長良川国際会議場で予定されている。

12 月 5 日(土)第 27 回日本整形外科学会骨系統疾患研究会(会長：鬼頭浩史 名古屋大学整形外科)12 月 6 日(日)第 14 回日本乳幼児期側彎症研究会(会長：柳田晴久 福岡市立こども病院)が併催される。

3. 庶務報告

高山副理事長より以下の報告があった。会員数については新入会者も多いが退会者の多さが目立ち，昨年より数名減となった。

(1) 2014 年 11 月 17 日現在の会員数は以下のとおりである。

正会員 1,162 名，準会員 4 名，名誉会員 40 名，功労会員 25 名，新入会 73 名(準会員含む)，退会者 72 名，今年度物故会員 4 名(荻原一輝名誉会員，中瀬尚長評議員，富永 普会員，野中克彦会員)

(2) 感謝状授与者(会則による定年)は以下の 5 名であることが報告された。

渥美 敬先生，西山和男先生，野村忠雄先生，別府諸兄先生，松下 隆先生

(3)理事会・各種委員会の開催実績が報告された。

4. 一般会計報告・予算案

高山副理事長より報告と説明があった。

26 年度決算について：未納者が 300 名，うち 2 年連続未納者が 100 名と多い。

学会誌製作費が昨年度より減少しているが，決算が 10 月締めであるため，計上が間に合わず(2 冊分が 1 冊分となる)来年度に繰り越しとなる。

27 年度予算について： 国際化関連費について川端理事より説明があった。

特別会計から 40 万円を計上したため，国際関連の予算は減額となった。

26 年度決算案・27 年度予算案は理事全員により承認された。

5. 研修会会計報告・予算案

金理事より報告があった。

予算で赤字が生じたが，主に講師の交通費等が関係している。対策としてはハンズオンの参加費 3,000 円をもう少し増額する(→5,000 円)などを検討中である。

次回 22 回研修会：関東で会場費を抑えてできる場所を交渉中(大正製薬の会場は半年前 = 2015.2 より予約可能なので，まだ決定できない。他の候補として東京大学などを検討中)

研修会関連 26 年度決算案・27 年度予算案は原案どおり承認された。

6. その他の Fellowship 基金の会計報告

高山副理事長から特別会計(フェローシップ関連基金)の 26 年度決算案・27 年度予算案が報告され，原案通り承認された。

7. 各種委員会報告

(1)国際委員会

川端委員長より，関連国際学会の予定，フェローシップの実績，予定などについて報告があった。

APOA Paediatr Ortho Travelling fellowship：金城健先生がフィリピン，タイを訪問した。

今年度の Fellowship program は，以下の予定となっている。

1) Asian fellowship

LeokLim Lau(Singapore) 神奈川県立こども医療センター

Yong Yang(China) 大阪府立母子保健総合医療センター

Vikas Trivedi(India) あいち小児保健医療総合センター

2) Matsuo fellowship

2014 Mohamed Elkhosousy(Egypt) 2014.11.4～26 柏屋新光園，佐賀整肢学園こども発達医療センター

2015 フェローを 2 月末まで公募中，現在応募 2 名。

3)Iwamoto-Fujii Ambassador

北野利夫先生(大阪市立総合医療センター) イギリス BSCOS (2015.2.28-3.21)訪問予定。

4)Yamamuro-Ogihara fellowship

Siddhartha Sharma(India)JPOA 学術集会前後に千葉県こども病院，成育医療研究センターを訪問予定。

5)KPOS-TPOS-JPOA exchange fellowship

阿多由梨加先生(横浜市立大学)が KPOS に(2014.5.25～31)派遣された。

TPOS から Chih-Chien Wang (National Defence Medical Center) が福岡市立こども病院を訪問。

(2) 教育研修委員会

金理事より、第 21 回夏季(中央)研修会について報告があった。2014 年 8 月 23 日(土)、24 日(日)会場：大阪市立総合医療センターで開催され、参加者は 77 名(会員 48 名、非会員 29 名)うちハンズオン参加者 56 名であった。参加者が予定より 30 名ほど少なく、広告も昨年ほど確保できなかった。支出では昨年と異なり、超音波診断のハンズオンの講師の交通・宿泊・謝礼代を学会で負担することになった。また、シンポジウムで他科の講師を招いたため謝礼額を下げられず、プログラム全体でも講師の人数が多かったことで、宿泊費をかなり抑えたが講師全体にかかる費用が大きくなった。今回は会場費がかからなかったにもかかわらず、大幅な赤字となった。

第 22 回夏季(中央)研修会は 2015 年 8 月 29 日(土)、30 日(日)に大正富山医薬品株式会社本社(東京、高田馬場)で開催予定である。ハンズオンは企業と共催する場合、学会側負担が大きくなっており、事前の取り決めも綿密に行う必要があるため、今回は共催の必要のない内容にした。会場は平成 27 年 2 月にならないと確定しないので、できれば都内で無料またはそれに近い会場を確保しておきたい。会場を確保できないときの予備に、東北大学医学部同窓会館(長陵会館：仙台市)を確保した。

北 純委員長が交代予定で、委員も北陸地区は野村忠雄委員から櫻吉啓介会員(金沢こども医療福祉センター石川整肢学園 施設長)へ、東北地区は北 純委員から後藤昌子会員(仙台赤十字病院)へ交代する予定である。

(3) マルチセンタースタディ委員会

尾崎委員長より、先天性股関節脱臼全国多施設調査について報告があった。日本整形外科学会認定研修施設・小児病院・肢体不自由児施設など 1987 施設を対象とし、平成 25 年 7 月にアンケートと症例カードを送付した。788 施設(返送率 39.7%)から 1336 症例の情報を頂き、事務局のあいち小児センターが中心となりデータ解析を行っている。今回の学会で服部理事から結果を報告される予定。

次の研究テーマに関して、学会開催中に委員会を開催し検討する予定である。

(4) 編集委員会(高山委員長より)

高山委員長より、機関誌の発刊状況・査読の進行状況などについて報告があった。投稿査読の電子化に伴い、機関誌の印刷も 22 巻 2 号から三美印刷に移行している。

第 22 巻 2 号は 282 ページで 2013.12.25 に発行された。

内容は、第 23 回学術集会 パネルと主題の座長のまとめ、第 23 回発表論文 41 編、若手セミナー 1 編、自由投稿論文 1 編で、制作費は総額 2,248,544 円(税込み)、1,260 部、単価 1 部 1,785 円であった。

第 23 巻 1 号は 264 ページで、2014.9.25 に発行された。内容は第 23 回発表論文 8 編、第 24 回発表論文 25 編、第 22 回以前の発表論文 1 編、自由投稿論文 1 編 6 編、Fellow ship 訪問記 3 編で、制作費は総額 214 万 530 円(税込み)、1,240 部、単価 1 部 1,726 円であった。

印刷会社変更に伴い PDF が無料で入手できるようになったため、従来の別刷りは廃止したが、希望者には実費で配布した。別刷代請求額は 64,250 円であった。

4 ページを超える超過料金は、従来の 1 ページ ¥20,000 から実費分で計算して 8,000 円へ減額したが、超過料金の総額は 214,500 円であった。

電子投稿システムは 2 年目になり、以前と比較して、かなり細かいところまで査読されるようになり、

論文の quality 向上がみられている。

投稿査読の電子化システムの改善について、意見要望を集約→論文の各ファイルの一括ダウンロード、査読者からの修正ファイルの添付など、機能が追加された。(プログラム修正費用 17 万円)

依然として、システムへの不慣れで投稿者・査読者ともしばしば返信がうまく行われていないことがあった(送信したつもりがボタンを押していなかったなど。)→対策：各査読委員の最新メールアドレスの確認と、1 か月以上返事がない場合は事務局から再度確認メールを送っている。

今年度の査読は、編集委員 18 名に(主査)3~6 編依頼(専門領域の投稿論文数に偏りのため)評議員 72 名に(副査)1 編ずつ依頼(2 編依頼 1 名 辞退 2 名)依頼した。

これまでは学会発表から 1 年半以上経過して掲載される論文も多かった。できるだけ翌年の学会までに発行できるよう努力中である。査読が終了している第 23 巻 2 号掲載予定論文は 24 回学会発表論文 24 件、英文論文 5 件、Fellow 報告 2 件で、第 24 回発表論文 17 編が査読および修正論文待ちである。学会発表後 1 年以内に掲載できるように査読のスピードアップを図りたい。

第 23 巻 2 号は、学会プログラム(第 3 号)と前後するが年末までには発刊予定

学会誌の PDF のホームページでの公開：21 巻 1/2 号 22 巻 1 号まで追加された

査読可能な専門分野を把握することが必要なため、毎年新評議員に対してアンケート調査を行っている。また、数年に一度は既評議員に対しても再調査が必要なので、今学会発表後に再び調査を行う予定。

今年度の委員の交代は、北小路隆彦先生→日下部浩先生(保健衛生大学)で、松井好人先生が辞退を希望している。また現在高山副理事長が委員長を併任しているため、編集委員長も交代予定である。

(5)学会ありかた委員会

芳賀委員長より以下の報告があった。

1) 前回議論した「中央で行う小児整形外科研修会の修了者のうち日本小児整形外科学会会員を学会ホームページ上に掲載する」件につき、すでに掲載されているが、「お知らせ」欄から「公開資料」へ移した方がアクセスしやすいとの意見があり、広報委員会の高村委員長に申し入れることになった。

2) 名誉会員・功労会員の推挙について検討した。今年度末で評議員を定年となる 5 名の先生について検討した結果、渥美 敬先生と野村忠雄先生を名誉会員、西山和男先生、別府諸兄先生、松下隆先生を功労会員として推挙することになった。業績等の情報を追加して秋の理事会に推挙する予定である。

3) 評議員の推挙に関する申し合わせについて、メール審議をした案とそれに対する意見を検討した。評議員の資格として、会員歴や学会誌への投稿歴を義務付けるという意見もあったが、本学会に貢献の少ない大学等に活動を促すという意味もあり、今回は申し合わせ案どおりとして理事会に諮ることになった。学会あり方委員会は、あくまでも検討した内容に基づいて理事会に推挙し、選出は理事会(評議員会で承認)であることを明確にすべく文面を修正し、理事会メール審議にかけることになった。

4) 新評議員の推挙について、清水理事長、二見理事より推薦のあった秋山治彦先生について第 1 回委員会で審議した。その結果、秋山先生を評議員候補者として理事会に推挙することになった。第 2 回委員会で新たに 6 名の新評議員推薦があり、評議員定数や業績などを検討し、今年度は 7 名の新評議員を推挙することとなった。

5) 評議員の資格失効に関する手続きについて確認した。次回評議員会に欠席すると 3 年連続で欠席となる評議員については、評議員会案内時に周知するとともに、それに対して欠席の返事または返事がない場合

には、特別な理由があるかなどを問い合わせることになった。

6) 評議員の資格継続に関する手続きについては、前回までに定めたように今年度いっぱい6年の任期が終了となる評議員に対し、評議員継続を希望する場合は業績等を提出するよう求めるメールを送り、返事を頂いた。これを本委員会で検討し、辞退者を除き、評議員継続資格ありと推挙された。

7) 委員会委員に関する申し合わせについて、メール審議をした案に反対がなかったことが委員長より報告された。委員長の決め方についても議論があったが、会則に定められているので、今年度は現状どおりとした。

8) 非営利型の一般社団法人への移行について、委員長より前回理事会後の理事長によるブリーフィングが紹介され、これに従い現時点では一般社団法人への移行を見合わせるようになった。

(6) 社会保険委員会

朝貝委員長より以下の事項について報告があった。

日整会からの2016年度診療報酬改定に向けた外保連の要望について、小児科療養指導料対象疾患の拡大とともに療養指導料算定を可能とする診療科の拡大を要望した。

2014年9月4日日本小児期外科系関連学会協議会、平成26年度第1回定例会議に関委員と朝貝委員長が出席し、小児科療養指導料に関して対象疾患の拡大とともに療養指導料算定を可能とする診療科の拡大(整形外科を含む)を推進したいとの希望を述べた。

6歳以下のギプス治療の診療報酬の増額が得られる可能性がある。

本年4月から当協議会が正式にメンバーとして認知され、会の名称も日本小児科連絡協議会(三者協：日本小児科学会・日本小児保健協会・日本小児科医会)から日本小児連絡協議会(四者協)となった。

日本小児連絡協議会(四者協)合同委員会への委員推薦、整形外科委員から先天性股関節脱臼に関連して健康診査委員会で問題点を指摘したいとの意見があり、健康診査委員会に整形が参画を希望することとなった。

成育基本法制定推進委員会委員に日小整学会から福島県総合療育センター所長武田浩一郎先生を推薦した。

平成26年度第2回協議会は平成27年2月12日(木)に開催予定である。

(7) 広報委員会

高村委員長よりWEB会員の登録状況の確認(正会員785人、名誉会員21人)小児整形外科学会会員の勤務する医療施設の登録状況(2014.4.21 88施設→11月現在105施設)と促進について報告があった。小児整形外科学会会員の勤務する医療施設では、未登録の地区があり決定後掲載予定である。

朝貝先生の読売新聞の記事の掲載を承認した。有料となるが、予備費で支払う予定である。

他のHPを持たない小児整形関連研究会等の抄録を積極的に掲載していく予定である。

各研究会から希望があれば可能であるが、JPOAから働きかけることも検討している。

日整会のHPからの日本小児整形外科雑誌のリンクに関連し、JPOAの会員でなくても日整会の会員ページから日小整会の雑誌が全文購読可能とすることの是非については、審議事項で検討することとなった。

(8) スポーツ委員会

山下委員長より今回の学術集会において、「小児整形外科疾患におけるスポーツ活動」というパネルをスポーツ関連パネルとして企画提案したことが報告された。

成長期におけるスポーツ障害の実態調査報告書について、①島根県における学校運動器検診のデータ、②

日本陸連のインターハイ選手のスポーツ障害データ，③京都府における野球選手検診データ，④山形県における野球肘検診データ，⑤兵庫県サッカー協会における少年サッカー選手検診データ，⑥北海道の特別支援学校におけるスポーツ活動のデータ等をまとめ，報告書の作成を検討していることが報告された。

全国規模の疫学調査は難しいが，各地区で分担して調査中である。結果については冊子を考えているが，予算上厳しければHP上での取載を考えている。

委員会で今後決定する。

(9)用語委員会(亀ヶ谷委員長より)

亀ヶ谷委員長より日本小児整形外科学会からの日整会学術用語委員会での要望結果が以下のとおり報告された。

1) plantigrade 蹠行性○形 しょうせい，足底接地[性]○形 そくていせっち[せい]。和語を追加する。

2) Toddler's fracture 新規収載しない。日整会で却下された。

今回の委員会での審議事項は，①日整会用語集への新規収載希望事項，②用語の更新希望，③DDHの国内での定義について，が予定されている。小児股関節研究会での提案であるが，国内でDDHを使用する場合には，その内容(完全脱臼，亜脱臼，臼蓋形成不全，(不安定股))を明記する。③については，今後評議委員から意見を募った上で，日本小児股関節研究会にて最終案を報告し，決定する。

(10)財務委員会

大関委員長欠席のため高山副理事長より報告があった。機関誌23巻の広告を募集したところ，38社から協賛をいただき，総額228万円となった(22巻は，38社総額231万円)。今季も24巻の広告掲載お願いは財務委員会と理事を中心をお願いをするが，募集期間を考え直す予定である。今年は評議員にも協力をお願いしたい。広告費についてはどの役員・評議員が業者・企業に依頼してご協力をいただいたのかがはっきりしないこともあり，対策を講じる必要がある。

(11)倫理委員会

和田委員長より，JPOA 会員4名，外部委員4名で委員会が発足したことが報告された。

これまでの活動はないが，マルチセンタースタディーの新しい研究テーマが示されれば，活動を開始する予定である。

8. その他

1) 日本小児整形外科学会25周年記念誌(第23巻特別号)の発行について

亀ヶ谷会長より謝辞と報告があった。記念誌(106ページ 製作費：798,000円税別)は学会開催中に配布する予定である。国分正一前理事長をはじめ15名の名誉会員の先生方にご寄稿いただいた。なお，製作費は第24回学術集會会長 奥住成晴先生からのご寄附を充てさせていただいた。ご報告と感謝の意を表します。

2) 高山副理事長より，独立行政法人大学評価・学位授与機構から国立大学教育研究評価委員会委員推薦の要請があり，和田郁雄理事を推薦したことが報告された。

【審議事項】

1. 前回議事録：前回議事録は原案通り承認された。

2. 役員交代

清水理事長、渥美監事の交代に伴い新理事2名と新理事長の決定が必要となった。

現理事からの推薦者の多い順で薩摩先生、町田先生が新理事に推挙され、選出された。

新理事の決定と新理事長の決定は下記の手順で進める。

①評議委員会、②総会で新理事の承認、③臨時理事会(28日16:00)で新理事長を決定する予定である。

3. 学会あり方委員会より

(1) 評議員の定年・辞退

今年度の役職定年は、渥美敬先生、西山和男先生、野村忠雄先生、別府諸兄先生、松下隆先生の5名の先生方である。評議員辞退届けは、北小路隆彦先生、藤岡文夫先生、松井好人先生の3名から提出された。中瀬尚長先生が逝去され、今年度は合計9名の先生が評議員を退かれることとなった。

(2) 名誉会員・功労会員の確認

名誉会員として、渥美敬先生、野村忠雄先生の2名を理事会として推薦することとなった。また、功労会員として、西山和男先生、別府諸兄先生、松下隆先生が推挙され、上記の内容で承認された。

(3) 評議員任期更新資格継続

評議員6年での継続に関して15名の業績確認(1名辞退)、実質14名の継続を審査し、14名全員の資格継続が承認された。なお、業績確認の質問内容に不明確なところがあるとの指摘があったので、次回は修正予定。

(4) 新評議員推薦

評議員の選出に関する申し合わせについて、学会あり方委員会で議論することに関して理事会にて承認された一般会員1,176名の10%まで現状では13名の余裕がある。

候補者は7名(秋山先生は前回の理事会で承認済み)であった。

①～⑦の7名が新評議員として承認された。あと7名の余裕がある。

①秋山治彦先生	入会日	平成25年11月18日	岐阜県(中部)
②井田英雄先生	入会日	平成9年10月15日	山形県(東北)
③遠藤裕介先生	入会日	平成12年11月24日	岡山県(中国)
④中塚洋一先生	入会日	平成1年4月1日	香川県(四国)
⑤平良勝章先生	入会日	平成14年10月2日	埼玉県(関東)
⑥伊藤弘紀先生	入会日	平成8年4月9日	愛知県(中部)
⑦戸澤興治先生	入会日	平成12年11月24日	大分県(九州)

(5) 会則改訂

1) 学術集会で賛助会員の発表の是非について、議論されたことを受け、あり方委員会で下記のような会則の修正が提案された。

第6章 第21条 6. 会員 → 一般会員・名誉会員・功労会員・準会員・外国人会員に限ることにした(賛助会員を除外する)

2) 退会した期間の会費支払と再入会に関して、これまで会則に示されていなかったため、下記の項目を追加することが提案された。

13条 一度資格を喪失し、再入会を希望する者は理事会で承認を受ける必要がある。

13条第2項 未納により退会となったものについては未納分の会費のうち3年分の支払いを要する。

活発な議論が行われたが、再入会については実際にはさまざまな事情があるため、第12条2項として、“再入会については理事会で審議する”という表現にとどめることにした。

4. 次期副会長(第27回会長)の確認

北先生は当初10月開催を希望されていたが、学会の決算時期にあり、また、国際手の外科学会とも重なるため、今後調整を進めることになった。

5. 次々期副会長(第28回会長)の選出

平成29年度開催の会長に高山真一郎先生が推薦され、理事会で承認された。(開催:11月下旬を予定)

6. 準会員の入会希望について

株式会社メディックス 柴岡 恵氏(義肢装具士)の準会員としての入会が承認された

7. その他

(1)朝貝理事より以下の報告があった。

・乳幼児股関節脱臼紹介可能施設のJPOA HPへの掲載について報告があったが、「乳幼児股関節脱臼紹介可能施設」について以下の意見が出た。

1)内容が3次健診であるという意味を加えるべきだ

2)一般整形外科は診てはいけないのかという意見が出ている

3)日整会の会員ページに施設名のリストを載せるべきだ

3)については、日整会小児整形外科委員会で提出し、日整会の理事会へ上げてもらうように願います。

(2)JOAのHPにJPOAの雑誌を掲載し、自由に閲覧できるようにすることについて:

会員の小児疾患への知識や関心を向上することにつながることも期待できるが、会員であることのメリットが失われる(会員数が減少する恐れがある)ので閲覧に反対する意見も多く出された。今後、日整会と調整議論を進める予定である。

(3)法人化について清水理事長より以下の説明があった。

法人には一般社団と公益社団がある。税制上は後者が有利である。また、法人化は1年間で可能である。問題は事務経費で、事務員が2名でないと運営が難しい。増員しない場合には外部への委託料が必要となる。ただし、他の研究会・学会をみると経費を検討すれば可能であると思われる。法人化の意義や実現の可能性は十分にあるため、今後時期を選び、法人化を目指すのであれば公益社団法人を最初から狙って2段階で開始するべきである。

尾崎理事より参考意見:中国・四国整形外科学会は会員数1,200名であるが、現在事務員1名で一般社団法人として運営している。

※評議員会議事録は、理事会議事録と重なりますので、割愛させていただきました。

日本小児整形外科学会 平成 27 年度臨時理事会議事録

日 時：2014 年 11 月 28 日(水)16：05～16：20

会 場：ヒルトン東京ベイ 2F Azur

出席者：朝貝芳美，一戸貞文，大関 覚，川端秀彦，金 郁喆，齋藤知行，薩摩眞一，高村和幸，
高山真一郎，服部 義，芳賀信彦，町田治郎，山下敏彦，和田郁雄，亀ヶ谷真琴(監事
会長)，清水克時(前理事長)，

欠席者：尾崎敏文，二見 徹

(敬称略)

1. 2 名(薩摩眞一，町田治郎)の新理事を加えて，平成 27 年度の理事会が発足した．新理事長については，齋藤知行先生が推薦され，全員一致で理事長として選出された．
2. 渥美先生の退任により空席となった監事については，齋藤理事長より服部義先生が指名され，承認された．
3. 副理事長・各委員会委員長については，齋藤理事長が提案し，近日中に理事会に諮る予定である．
4. 2015 年の日本整形外科学会学術集会中の理事会開催について，学術集会プログラムと重ならないように要請されているため，日時について理事長・事務局で検討する予定である．

日本小児整形外科学会会則

第1章 総則

- 第1条 本会は日本小児整形外科学会(Japanese Pediatric Orthopaedic Association)と称する。
- 第2条 本会は、事務局を本郷三丁目 TH ビル 2 階(東京都文京区本郷 2 丁目 40 番 8 号)に置く。

第2章 目的及び事業

- 第3条 本会は小児整形外科学の進歩発展を図り、もって学術の振興と小児の健康と福祉増進に寄与することを目的とする。
- 第4条 本会は、前条の目的を達成するために次の事業を行う。
- (1)学術集会、講演会及び研修会の開催
 - (2)機関誌、図書等の発行
 - (3)社会に小児の運動器の重要性や小児整形外科疾患について啓発するための活動
 - (4)研究の奨励及び調査の実施
 - (5)優秀な業績の表彰
 - (6)国内外の諸団体との協力と連携
 - (7)国際協力の推進
 - (8)その他、必要な事業
- 第5条 事業年度は10月1日に始まり、翌年9月30日に終る。

第3章 会 員

- 第6条 本会は、一般会員、名誉会員、功労会員及び特定会員をもって構成する。
- 第7条 一般会員は、本会の目的に賛同する医師とする。
- 第8条 名誉会員は、小児整形外科学の発展に特別な貢献をし、かつ本会の運営に多大の寄与をした者で、理事会の推薦により、評議員会の議を経て、総会の承認を得たものとする。
- 第9条 功労会員は、小児整形外科学の発展に貢献し、かつ本会の運営に寄与をした者で、理事会の承認を得たものとする。
- 第10条 特定会員は、理事会において認められた準会員、外国人会員及び賛助会員とする。準会員は、本会の目的に賛同する医師以外で、医療関係の国家資格およびそれと同等の資格を有する者とする。評議員2名の推薦を得て、理事会で承認を受ける必要がある。
- 第11条 名誉会員、功労会員を除く本会会員は、毎年所定の会費を納入しなければならない。会費については別に定める。
- 第12条 会員は次の場合にその資格を失う。
- (1)退会の希望を本会事務局に申し出たとき
 - (2)会費を3年以上滞納したとき

- (3)本会の名誉を傷つけ、またはその目的に反する行為があったとき
2. 一度会員資格を失った者が再入会を希望する場合は、理事会において承認を受ける必要がある。

第4章 役員・評議員及び委員

- 第13条 本会は、次の役員及び評議員を置く。
- (1)理事長 1 名
 - (2)副理事長 1 名
 - (3)理事 10 名以上 15 名以内を原則とする
 - (4)監事 2 名
 - (5)評議員 60 名以上
- 第14条 理事長は理事会において理事の互選により選出する。
2. 副理事長は理事の中から理事長が指名し、理事会で選出する。
 3. 理事・監事は評議員の中から役員2名以上の推薦により理事会で選出し、評議員会において承認し、総会に報告する。
 4. 評議員は、別に定める規則に従い、一般会員の中から役員2名以上の推薦を得て理事会で選出し、評議員会において承認し、総会に報告する。
- 第15条 理事長は本会を代表し、会務を統括し、理事会を組織して本会の事業の執行を図る。
2. 副理事長は理事長を補佐し、理事長が業務を遂行できなくなった場合はその職務を代行する。
 3. 理事は理事会を構成し、本会運営のため重要事項を審議決定する。
 4. 監事は本会の運営及び会計を監査する。
 5. 評議員は評議員会を構成し、本会運営のため重要事項を審議決定する。
- 第16条 役員の任期は選出された年の学術集会の翌日から1期3年、連続2期までとし、年齢満65歳に達した翌日以降の最初の総会までとする。ただし理事長については選出時年齢満65歳未満とし、67歳に達した翌日以降の最初の総会までとする。
2. 評議員の任期は選出された年の学術集会の翌日から1期6年とし、再任を妨げない。ただし評議員の任期は年齢満65歳に達した翌日以降の最初の総会までとする。ただし理事長または学術集会長はその任期中、評議員を継続する。
- 第17条 本会に会務執行のため、別に定める委員会を置く。
2. 委員会及び構成委員は、理事会で議決し、委嘱する。

第5章 会 議

第18条 理事会は、役員と、別に定める会長、次期会長及び前会長によって構成され、理事長が必要に応じ適宜これを招集し、議長を務める。ただし監事あるいは監事を除く理事会構成者の3分の1以上から会議に付議すべき事項を示して理事会の招集を請求されたときは、理事長は、その請求があった日から30日以内に理事会を招集しなければならない。

2. 理事会は理事会構成者の過半数が出席しなければ、議事を開き議決することができない。
3. 理事会の議事は、この会則に別段の定めがある場合を除き、監事を除く出席理事会構成者の過半数をもって決し、可否同数の時は、議長の決するところによる。
4. 理事が理事会の決議の目的である事項について提案をした場合において、当該提案につき議決に加わることでできる理事会構成者の全員が書面又は電磁的記録により同意の意思表示をしたときは、当該提案を可決する旨の理事会の決議があったものとみなす。

第19条 評議員会は毎年1回理事長がこれを召集する。ただし理事長または監事が必要と認めたとき、または評議員の1/3以上から審議事項を付して請求があったときは、理事長は、その請求があった日から30日以内に臨時評議員会を招集しなければならない。

2. 評議員会の議長は理事長がこれを務める。
3. 評議員会は評議員現在数の3分の2以上が出席しなければその議事を開き、議決することができない。ただし、委任状をもって出席とみなす。
4. 評議員会の議事は、この会則に別段の定めがある場合を除き、出席者の過半数をもって決し、可否同数の時は、議長の決するところによる。

第20条 通常総会は年1回とする。理事長は学術集会中にこれを招集し、次の事項につき報告し、承認を受けなければならない。

- (1) 事業報告及び収支決算についての事項
- (2) 事業計画及び収支予算についての事項
- (3) 財産目録及び貸借対照表についての事項
- (4) その他、学会の業務に関する重要事項で、理事会において必要と認める事項
2. 臨時総会は必要に応じて理事長がこれを招集する。
3. 総会の議長は学会長がこれを務める。

第6章 学術集会

第21条 学術集会に会長、次期会長及び次次期会長を置く。

2. 会長、次期会長及び次次期会長は、役員、評議員の中から理事会において選出し、評議員会において承認し、総会に報告する。
3. 会長は本会の役員を兼ねることはできるが、理事長を兼ねることはできないものとする。
4. 会長の任期は選出された年の学術集会終了の翌日から次期学術集会終了の日までとする。
5. 会長は学術集会を開催し主宰する。
6. 学術集会の期日はこれを開催する年度の会長がこれを決定する。

第22条 学術集会における発表者は、共同演者を含めて、原則として一般会員、名誉会員、功労会員、準会員、外国人会員に限る。会員でない者の学術集会への参加は、会長の許可と学術集会参加費の納入を必要とする。

第7章 学会誌

第23条 本会は日本小児整形外科学会雑誌(The Journal of Japanese Pediatric Orthopaedic Association)を発行し、会員に配布する。学会誌の配布は原則として入会以後に発行したものとする。

2. 学会誌に論文を投稿する者は、共同執筆者を含め原則として会員に限る。学会誌への投稿規定は別に定める。

第8章 会則の変更

第24条 本会則は、理事会及び評議員会において、監事を除く理事会構成者の3分の2以上及び評議員の3分の2以上の議決を経て、総会で承認を得なければ変更することができない。

第9章 補 則

第25条 この会則施行についての規則等は理事会及び評議員会の議決により別に定める。また規則等を実施するための細則等は理事会が定めるものとする。

附 則 本会則は、平成2年11月16日から施行する。(平成8年11月29日改正)(平成15年11月22日改正)(平成23年12月9日改訂)(平成24年11月30日改訂)(平成25年11月9日改訂)(平成26年11月28日改訂)

会則改訂に伴う経過措置

平成15年11月22日の会則改正時に在任中の役員及び評議員は、この改正された会則に従って選出された者とする。

評議員の選出・資格継続に関する規則

- 第1条 この規則は、日本小児整形外科学会会則第14条4項の定めに基づき、評議員の選出・資格継続に関する事項について定める。
- 第2条 評議員は小児整形外科に関して造詣が深く、本学会で積極的に活躍し、医学・医療・福祉に資する指導的な会員とする。
- 第3条 評議員の定数は会則第13条5項の定めにより60名以上とする。上限は一般会員数の10%以内とする。
- 第4条 評議員の任期は会則第16条2項の定めによる。
- 第5条 評議員の任期を終了した時点でさらに評議員を継続する場合には、理事会による資格継続審査を受け、再任されなければならない。
2. 資格継続審査の基準は評議員である6年間に、本学会で発表するか(共同演者・教育研修講演を含む)もしくは座長を経験し、あるいは小児整形外科に関する内容を学術誌・他学会・講演会で論文掲載・発表・講演などの相当数あることとし、理事会に書面で提出する。
- 第6条 評議員であることを辞退する場合は、本人が理事長に書面で申し出る。
- 第7条 評議員は以下のいずれかの場合に、その資格を失効する。
- (1) 会の名誉を著しく損ねた場合。(2) 評議員会に3年連続して欠席した場合。ただし相応の理由がある時には理事会による資格有効性の審査を受けることができる。
- 第8条 この規則に定めがなく、実施上補足を要する事項は、その都度理事会の定めるところによる。
- 第9条 この規則の改正は、理事会、評議員会の議を経て総会の承認を必要とする。

委員会規則

- 第1条 この規則は、日本小児整形外科学会会則第17条に基づき、委員会に関する組織・運営等について定める。
- 第2条 委員会の種別は次のとおりとする。
1. 常置委員会：会務執行のための常設のものとして設置されるもの。
2. 特別委員会：会務執行上特別の事案などに対処するため時限的に設置されるもの。
- 第3条 常置委員会の設置・改廃は、理事長または理事3名以上の設置目的等を明記した提案により、理事会の議を経て決定する。
2. 特別委員会の設置は、理事長または理事の設置目的・期間等を明記した提案により、理事会の議を経て決定する。ただし理事長は設置期間内であっても目的を達成したものについては理事会の議を経て

廃止することができる。

- 第4条 委員会の委員および委員長は、理事長の提案により、理事会で議決し、委嘱する。委員長は評議員の中から選出する。
2. 各委員会には1名以上の理事を含むこととする。各委員会に所属する理事のうち1名を担当理事とし、委員会と理事会との情報伝達や調整の役割を負う。担当理事は理事会で選出し委嘱する。委員長は担当理事を兼務することができる。
3. 委員会には委員長の指名により副委員長を置くことができる。
- 委員会には担当理事および委員長の依頼により理事会の議を経て、2名以内のアドバイザー、及び2名以内の臨時アドバイザーを置くことができる。
4. 委員長は原則として2つの委員会の委員長を兼任することはできない。
5. 委員の任期は3年とし再任を妨げない。ただし連続6年を越えることはできない。しかし委員が任期中または任期終了後に継続して委員長に就任することは認めることとし、その場合、委員長就任後の任期を6年までとする。
6. 委員は3年ごとに概ね半数を交代させる。
7. アドバイザーの任期は1年以内とし、再任を妨げない。

第5条 委員会は、理事会から諮問された事項について、迅速かつ専門的に審議し、その結果を理事会に答申しなければならない。

第6条 委員会は、委員現在数の過半数が出席しなければ議事を開き、議決することができない。

2. 委員会の議決は、出席委員の3分の2以上の多数を必要とする。

第7条 この規則に定めがなく、実施上補足を要する事項は、その都度理事会の定めるところによる。

第8条 この規則の改正は、理事会、評議員会の議を経て総会の承認を必要とする。

附 則 この規則制定時に活動中の委員会(委員など含む)はこの規則により設置されたものとする。

日本小児整形外科学会会費規則

- 第1条 この細則は、会則第11条に基づき、会費に関する事項について定める。
- 第2条 一般会員の会費は年額10,000円とする。
- 第3条 準会員の会費は年額6,000円とする。
- 第4条 外国人会員の会費はこれを免除する。
- 第5条 賛助会員の会費は年額50,000円以上とする。
- 第6条 会費は、当該年度に全額を納入しなければならない。
- 第7条 この規則の改正は、理事会、評議員会の議を経て総会の承認を必要とする。

日本小児整形外科学会雑誌投稿規定

(平成 3 年 6 月 28 日制定)

(平成 23 年 5 月 10 日改定)

(平成 24 年 12 月 12 日改定)

(平成 25 年 11 月 9 日改訂)

1. 投稿論文の主著者、共著者は日本小児整形外科学会の会員であること(編集委員会が認める場合を除く)。

2. 論文は和文または英文とし、原則的に未発表のものとする。掲載論文の著作権は、日本小児整形外科学会に属する。日本小児整形外科学会は投稿論文をデジタル媒体(CD やホームページでの公開など)として使用する場合がある。他誌(英文誌)への再投稿には、編集委員会に申請し許可を得る必要がある。

3. 論文はタイトルページ、要旨、本文、文献、図の説明文、図、表、からなる。

1) タイトルページについて

以下のものを記す。

論文題名：日本語と英語で併記する(英語題名は日本語題名と同じ内容の英訳であること)。

著者名：日本語と英語で併記する。

所属機関：日本語と英語で併記する。番号により各著者の所属を示す。

キーワード：5 語以内。日本語と英語で併記する。

連絡先：郵便番号、住所、電話番号、FAX 番号、e-mail、氏名。

2) 要旨について

要旨のみで目的、対象・方法、結果、結論がわかるように簡潔に記載する。

略号を用いることができるのは要旨の中で 3 回以上使用される場合とし、最初に全スペルを記述、括弧内に略号を記載し 2 回目以降略号を使用する。全スペルの提示なく使用できる略号は特に常用されているもの(例、MRI など)に限る。

①和文論文の場合

和文要旨(400 字以内)と英文要旨(和文要旨と同じ内容の英訳であること、およそ 200 語を目安とする)を提出する。

②英文論文の場合

英文要旨(200 語以内)と和文要旨(英文要旨と同じ内容の和訳であること、およそ 400 字を目安とする)を提出する。

3) 本文について

本文は序文、対象・方法、結果、考察、結論からなる。記載にあたって、序文の中で結果や結論を繰り返さない。考察は結果の単なる繰り返しではなく、得られた結果がいかに結論に結びつくかを論理的に説明する。

数字は算用数字を用い、度量衡単位は CGS 単位で、m, cm, l, dl, kg, mg などとする。薬剤名は一般名とし、必要に応じて商品名を併記する。機器名は商品名で記載し、会社名、所在地名を括弧内に追記する。略号を用いることができるのは、本文中に同一用語が 3 回以上使用される場合とし、最初に全スペルで記述、括弧内に略号を記載し 2 回目以降略号を使用する。全スペルの提示なく使用できる略号は特に常用されているもの(例、MRI など)に限る。

①和文論文の場合

横書き、20 字×20 行の原稿用紙換算で、本文と文献の合計を 15 枚以内とする。

口語体、新かなづかい、常用漢字を基準とする。学術用語は日本整形外科学会用語集、日本医学会医学用語辞典に準拠する。外国語はできるだけ邦訳し、邦訳し得ない外国語や人名などは外国語綴りとする(例外ペルテス病)。カタカナ表記は常用されるもの(外国の地名など)のみとする。

②英文論文の場合

A4 版、ダブルスペース Century, 11 ポイント換算で、本文と文献の合計 12 枚以内とする。

4) 図、表について

図、表は合計で 10 点以内とする(組写真は用いられている図、各々を 1 枚と数える)。表は文字、数字と横線のみで作成する。番号を付け、本文中に挿入箇所を指定する。図、表ごとに標題を付け、図には説明文を付ける。図、表は鮮明なものとし、図は jpeg で、300dpi 手札版(約 9 × 13 cm)程度のサイズとする。カラーは実費著者負担とする。

表はできるだけエクセルのファイルで作成すること。

5) 文献について

原則として本文中に引用されたもので、10 点以内とする。記載順序は著者名のアルファベット

順とし、同一著者の場合は発表順とする。本文中に肩番号を付けて照合する。著者名は3名までとし、4名以上は「ほか、et al」とする。

誌名の省略は公式の略称を用い、英文誌はIndex Medicusに従う。

記載例を下記に示す。

(例)

- 1) Aronson DD, Zak PJ, Lee CL et al : Posterior transfer of the adductors in children who have cerebral palsy. A long term study. J Bone Joint Surg 73-A : 59-65, 1991.
- 2) Kruse RW, Bowen JR, Heinhoff S : Oblique tibial osteotomy in the correction of tibial deformity in children. J Pediatr Orthop 9 : 476-482, 1989.
- 3) Ogden JA : The uniqueness of growing bone. In Fractures in Children (Rockwood CA et al ed), Lippincott, Philadelphia, 1-86, 1972.
- 4) Schuler P, Rossak K : Sonographische Verlaufskontrollen von Hüfttreifungsstörungen. Z Orthop 122 : 136-141, 1984.
- 5) Tachdjian MO : Pediatric Orthopedics, Saunders. Philadelphia, 769-856, 1972.
- 6) 滝川一晴, 芳賀信彦, 四津有人ほか : 脚長不等に対する経皮的膝骨端線閉鎖術の治療効果. 日小整会誌 15 : 50-54, 2006.
- 7) 吉川靖三 : 先天性内反足. 臨床整形外科(大野藤吾ほか編)7巻, 中外医学社, 東京, 837-859, 1988.

6) チェック表について

論文の体裁を整えるため、原稿をまとめる際にチェック表の項目を確認すること。

共著者に senior author がいる場合は校閲を受

けた上で署名をもらい、原稿とともに投稿すること(チェック表は、ホームページからのダウンロード或いはコピー可)。

4. 論文は十分に推敲し提出する。英文論文は、本学会が校正者を紹介する場合がある。その費用は投稿者の負担とする。

5. 他著作物からの引用・転載については、原出版社および原著者の許諾が必要である。予め許諾を得ること。

6. 倫理的配慮について

本誌に投稿されるヒトを対象とするすべての医学研究は、ヘルシンキ宣言を遵守したものであること。患者の名前、イニシャル、生年月日、病院での患者番号、手術日、入院日など、患者の同定を可能とする情報を記載してはならない。臨床疫学的研究も当該施設の基準等に合致していること。動物実験を扱う論文では、実験が当該施設の基準等に沿ったものであること。

7. 論文の採否は編集委員会で審査し決定する。内容の訂正あるいは書き直しを求めることがある。

8. 掲載料は刷り上がり4頁までは無料、これを超える分はその実費を著者負担とする。刷り上がりのPDFは無料で配布されるが、別刷は著者実費負担とする。掲載料別刷料納入後、発送する。

9. 投稿方法

投稿は、日本小児整形外科学会オンライン投稿システムの手順に従い入力を行う。

〒113-0033 東京都文京区本郷2-40-8

THビル2階

日本小児整形外科学会事務局

電話 03(5803)-7071

FAX 03(5803)-7072

URL : <http://www.jpoa.org/>

日本小児整形外科学会 各種委員会

(平成 27 年度 1 月現在) (○：委員長)
(*：副委員長)

国際委員会

○川端 秀彦 *中島 康晴 一戸 貞文 大関 覚 吉川 一郎 鬼頭 浩史
小林 大介 藤原 憲太 三谷 茂 和田 晃房
亀ヶ谷真琴(臨時アドバイザー) 国分 正一(アドバイザー)
藤井 敏男(臨時アドバイザー) 山室 隆夫(アドバイザー)

教育研修委員会

○稲葉 裕 赤澤 啓史 朝貝 芳美 池上 博泰 大谷 卓也 金 郁喆
倉 秀治 後藤 昌子 柴田 徹 櫻吉 啓介 高村 和幸 服部 義
扇谷 浩文(アドバイザー) 奥住 成晴(アドバイザー) 北 純(アドバイザー)

マルチセンタースタディ委員会

○尾崎 敏文 一戸 貞文 稲葉 裕 北野 利夫 小林 大介 西須 孝
服部 義

編集委員会

○町田 治郎 伊藤 順一 射場 浩介 大関 覚 大谷 卓也 岡野 邦彦
尾崎 敏文 落合 達宏 北野 利夫 鬼頭 浩史 日下部 浩 笹 益雄
品田 良之 滝川 一晴 藤原 憲太 星野 裕信 堀井恵美子 松本 守雄
高山真一郎(アドバイザー)

学会あり方委員会

○芳賀 信彦 吉川 一郎 金 郁喆 小崎 慶介 西須 孝 薩摩 眞一
松山 敏勝 齋藤 知行(理事長) 高山真一郎(副理事長)

社会保険委員会

○朝貝 芳美 亀ヶ谷真琴 窪田 秀明 笹 益雄 佐藤 英貴 関 敦仁
二見 徹 和田 郁雄

広報委員会

○高村 和幸 伊部 茂晴 倉 秀治 二井 英二 藤原 憲太 三谷 茂

スポーツ委員会

○山下 敏彦 内尾 祐司 桶谷 寛 佐竹 寛史 島村 安則 田中 康仁
戸祭 正喜 鳥居 俊 森原 徹 日下部虎夫(アドバイザー)

用語委員会

○二見 徹 亀ヶ谷真琴 神野 哲也 平良 勝章 横井 広道 若林健二郎
和田 晃房

財務委員会

○大関 覚 池上 博泰 稲垣 克記 北 純 佐藤 啓二 志村 司
松本 守雄 柳田 晴久

倫理委員会

○和田 郁雄 小泉 渉 神野 哲也 町田 治郎 外部委員 3 名

日本小児整形外科学会

名誉会員・功労会員・役員および評議員

平成 27 年 1 月現在

名誉会員

青木 治人	渥美 敬	井澤 淑郎	石井 清一	石井 良章
石田 勝正	井上 明生	植 家 毅	奥住 成晴	荻野 利彦
小田 裕胤	亀下喜久男	君 塚 葵	日下部虎夫	国分 正一
腰野 富久	斉 藤 進	坂 口 亮	坂巻 豊教	佐藤 雅人
島 津 晃	鈴木 茂夫	田辺 剛造	中村 耕三	野島 元雄
野村 忠雄	畠山 征也	浜西 千秋	廣島 和夫	藤井 敏男
船山 完一	本田 恵	松尾 隆	松永 隆信	松野 誠夫
村地 俊二	安井 夏生	矢 部 裕	山田 順亮	山室 隆夫
山本 晴康	吉川 靖三			

功労会員

青木 虎吉	麻生 邦一	糸満 盛憲	猪又 義男	今給黎篤弘
岩 谷 力	小 田 洵	笠原 吉孝	加藤 哲也	木下 光雄
司馬 良一	勝 呂 徹	中島 育昌	西山 和男	野村 茂治
乗松 尋道	肥 後 勝	廣橋 賢次	藤井 英夫	別府 諸兄
松崎 交作	松 下 隆	松野 丈夫	宮岡 英世	望月 一男
茂手木三男	渡 辺 真			

役 員

理 事 長	齋藤 知行			
副理事長	高山真一郎			
理 事	朝貝 芳美	一戸 貞文	大関 覚	尾崎 敏文
	川端 秀彦	金 郁 喆	薩摩 眞一	高村 和幸
	芳賀 信彦	二 見 徹	町田 治郎	山下 敏彦
	和田 郁雄			
監 事	亀ヶ谷真琴	服部 義		
学術集会会長	清水 克時(第 26 回会長)			
	北 純(第 27 回会長)			

評 議 員

青 木 清	赤木 繁夫	赤澤 啓史	秋山 治彦	朝貝 芳美
池上 博泰	泉田 良一	井田 英雄	一戸 貞文	伊藤 順一
伊藤 弘紀	稲垣 克記	稲 葉 裕	射場 浩介	伊部 茂晴
岩本 幸英	内尾 祐司	遠藤 直人	遠藤 裕介	扇谷 浩文
大 関 覚	大谷 卓也	岡野 邦彦	桶 谷 寛	尾崎 敏文

落合 達宏	加藤 博之	金治 有彦	金谷 文則	亀ヶ谷真琴
川端 秀彦	岸本 英彰	北 純	北川 由香	北野 利夫
北野 元裕	吉川 一郎	城戸 研二	鬼頭 浩史	金 郁 喆
日下部 浩	久保 俊一	窪田 秀明	倉 秀 治	小 泉 渉
小崎 慶介	小寺 正純	小林 大介	小宮 節郎	西 須 孝
齋藤 知行	笹 益 雄	薩摩 眞一	佐藤 啓二	佐藤 英貴
品田 良之	柴 田 徹	清水 克時	志 村 司	下村 哲史
杉 基 嗣	杉 山 肇	関 敦 仁	瀬本 喜啓	平良 勝章
高橋 祐子	高村 和幸	高山真一郎	滝川 一晴	武田浩一郎
田中 康仁	帖佐 悦男	土谷 一晃	土屋 大志	津 村 弘
徳橋 泰明	徳 山 剛	戸澤 興治	戸祭 正喜	戸山 芳昭
中島 康晴	中塚 洋一	中村 直行	二井 英二	野口 康男
芳賀 信彦	萩野 哲男	服 部 義	福岡 真二	藤原 憲太
二 見 徹	星野 裕信	細川 元男	堀井恵美子	町田 治郎
松本 守雄	松山 敏勝	三 谷 茂	村上 玲子	森 修
柳園賜一郎	柳田 晴久	柳 本 繁	山下 敏彦	横井 広道
若林健二郎	和田 晃房	和田 郁雄	渡邊 英明	

編集委員

平成 27 年 1 月現在

委員長	町田 治郎	神奈川県立こども医療センター 整形外科部長
委員	伊藤 順一	心身障害児総合医療療育センター 医務部長
	射場 浩介	札幌医科大学医学部整形外科 准教授
	大関 寛	獨協医科大学越谷病院 整形外科教授
	大谷 卓也	東京慈恵会医科大学第三病院 整形外科学教授
	岡野 邦彦	長崎県立こども医療福祉センター 整形外科部長
	尾崎 敏文	岡山大学 整形外科教授
	落合 達宏	宮城県拓桃医療療育センター 医療療育局長
	北野 利夫	大阪市立総合医療センター小児医療センター 小児整形外科部長
	鬼頭 浩史	名古屋大学 整形外科准教授
	日下部 浩	藤田保健衛生大学坂文種報徳會病院 整形外科講師
	笹 益雄	聖マリアンナ医科大学横浜市西部病院 整形外科教授
	品田 良之	松戸市立病院 リハビリテーション科部長
	滝川 一晴	静岡県立こども病院 整形外科医長
	藤原 憲太	大阪医科大学 整形外科助教
	星野 裕信	浜松医科大学 整形外科准教授
	堀井恵美子	名古屋第一赤十字病院 手外科部長
	松本 守雄	慶應義塾大学 整形外科教授
アドバイザー	高山真一郎	国立成育医療研究センター臓器・運動器病態外科部 部長

(五十音順)

第 26 回日本小児整形外科学会学術集会

会 期：平成 27 年 12 月 4 日(金)・5 日(土)
会 場：長良川国際会議場(岐阜市)
会 長：清水 克時(岐阜市民病院脊椎センター長, 岐阜大学名誉教授)
テーマ：子どもの未来, 日本の未来
ホームページ：<http://jpoa2015.umin.jp/>
演題募集期間：平成 27 年 7 月 1 日(水)～8 月 20 日(木)
事務局：〒 501-1194 岐阜市柳戸 1-1
岐阜大学大学院医学系研究科整形外科学教室
事務取扱：〒 606-8172 京都市左京区一乗寺河原田町 37-1-512 ウエノコンgresサービス内
Tel：075-201-8988 Fax：075-201-8987
E-mail：jpoa2015@uenocongress.jp
併催：
12 月 5 日(土)午前
第 27 回日本整形外科学会骨系統疾患研究会
会長 鬼頭 浩史(名古屋大学整形外科)
12 月 6 日(日)
第 14 回日本乳幼児期側弯症研究会
会長 柳田 晴久(福岡市立こども病院)

“KPOS(韓国小児整形外科学会)―TPOS(台湾小児整形外科学会) ―JPOA(日本小児整形外科学会)Exchange Fellowship”

【条件】学術集会のポスター部門で、最優秀英文ポスター賞 1 名に贈られる。最優秀者は、学会から相手先の学会招聘に際して 5 万円が支給される。

第 25 回学術集会

【最優秀賞】

「Bilateral hip involvement in DDH -a CT study-」

Dept. of Orthop. Surg., Graduate School of Medical Science, Kyushu University Fuyuki Tominaga

Iwamoto-Fujii Ambassador 募集案内

平成 24 年(2012 年)に福岡市で開催された第 23 回日本小児整形外科学会会長 岩本幸英先生(九州大学)より基金として 190 万円の寄贈を受け、本学会の国際化に多大な貢献をされた藤井敏男先生と連名で新設された fellowship です。この fellowship は日本小児整形外科学会の国際化および国際貢献を目的とし、fellow は学会を代表して我が国の小児整形外科を諸外国に広め、諸外国から知見を吸収して、国際交流・相互理解を深める役割を担います。

応募締切：平成 27 年 10 月 31 日 必着

なお、応募はホームページからお願いします。

第54回日本小児股関節研究会のお知らせ

第54回日本小児股関節研究会を下記のとおり執り行います。現在、演題募集を行っております。多数ご参加いただきますようご案内申し上げます。

会長 大谷 卓也
(東京慈恵会医科大学整形外科科学講座)

◆第54回日本小児股関節研究会

会 期：平成27(2015)年6月26日(金)・27日(土)

会 場：東京慈恵会医科大学・大学1号館講堂

〒105-8461 東京都港区西新橋3-25-8

テーマ：「今！ やるべきこと！」

プログラム概要：

1. 教育研修講演－1：招待講演
教育研修講演－2：小児股関節の“今！ やるべきこと！”
2. パネルディスカッション
①座談会：不安定型大腿骨頭すべり症治療の現状と“今！ やるべきこと！”
②脱臼治療歴のない高度DDHへの対策
3. 特別企画：小児股関節の用語問題“今！ はっきりさせておくべきこと！”
4. 主題(一般募集)：不安定型大腿骨頭すべり症【骨端不安定性の評価，骨頭血行の評価(術前・術中・術後)など】
5. 一般演題(口演またはポスター：選別は会長にご一任ください。特にポスター希望の方はご指定ください)
6. 症例検討(初日6月26日午後)：結果の出ている症例・まだ出ていない症例，治療方針を聞いた症例など，お気軽にお申し込みください。

◆演題募集要項

申込資格：演者及び共同演者は、日本小児股関節研究会会員に限られます。非会員の方は演題申し込み前に入会手続きをお願いいたします。

＜事務局＞ 日本小児股関節研究会

〒113-0033 東京都文京区本郷2-40-8 TH ビル2F 日本小児整形外科学会内

TEL：03-5803-7071 FAX：03-5803-7072 URL：<http://www.jpoa.org/>

演題登録期間(予定)：平成27(2015)年2月15日(日)より3月31日(火)の期間(予定)で、本研究会ホームページ(<http://www.procomu.jp/hip2015/>)のオンライン登録サイトにて申し込みを受け付けます。

問い合わせ先：第54回日本小児股関節研究会事務局

株式会社プロコムインターナショナル

〒135-0063 東京都江東区有明3-6-11 TFTビル東館9F

TEL：03-5520-8821 FAX：03-5520-8820 E-mail：hip54@procomu.jp

社会保険委員会からのお知らせ

診療報酬に関する要望受付

小児整形外科関連診療報酬の下記具体的項目に関してご要望があれば、要望内容、要望理由を要望者の氏名、所属を明記の上、下記事務局宛に E-mail でお送りください。社会保険委員会で検討し、日本整形外科学会などを通して外科系学会社会保険委員会連合(外保連)に要望いたします。

要望の具体的項目

- ① 算定要件の見直し(施設基準、回数制限等)
- ② 点数の見直し
- ③ その他

日本小児整形外科学会事務局 E-mail : jpoa@jpoa.org

委員長 朝貝芳美

広報委員会からのお知らせ

WEB 登録のおすすめ

学会ではホームページの有効利用のため、会員の皆様に WEB 登録をお願いいたしております。現在 1233 名のうち、828 名の会員が WEB に登録されています。

WEB に登録されますと、

- ・会員名簿、学会誌バックナンバー、理事長ブリーフィング、日本小児股関節研究会リーメンビュゲル治療に関するワーキンググループによるリーメンビュゲル治療マニュアルの閲覧
- ・会員名簿変更申請

などが可能になります。

会員名簿の閲覧による各地区の会員への紹介が容易になり、学会誌の閲覧により的確な情報を得ることが可能です。

登録方法は日本小児整形外科学会のホームページを開き、会員ページをクリックしていただければ WEB 登録の方法が掲載されております。

必要なものはこの郵便の宛名ラベルに記載されている 6 ケタの会員番号と携帯電話以外のメールアドレスのみです。

皆様の WEB 登録を心よりお待ちしております。

勤務医療機関掲載のおすすめ

また、日本小児整形外科学会では、会員が常勤で勤務している医療機関を学会ホームページの、一般の方々が閲覧できるページに掲載しております。

ご希望の方は学会ホームページ上の“お申込み”ボタンから手続きが可能です。会員番号はこの郵便の宛名ラベルに記載されている 6 ケタの会員番号です。

委員長 高村和幸

広告掲載会社一覧(順不同)

中外製薬株式会社	メイラ株式会社
エーザイ株式会社	株式会社メッツ
興和創薬株式会社	大正富山医薬品株式会社
グラクソ・スミスクライン株式会社	丸木医科器械株式会社
科研製薬株式会社	HOYA Technosurgical 株式会社
日本臓器製薬株式会社	有菌製作所
株式会社洛北義肢	日本メディカルネクスト株式会社
日本イーライリリー株式会社	株式会社松本義肢
第一三共株式会社	ミズホ株式会社
MSD株式会社	ジョンソン&ジョンソン株式会社
ジンマー株式会社	久光製薬株式会社
帝人ファーマ株式会社	アステラス製薬株式会社
日本ストライカー株式会社	マイクロポート・オーソペディックス・
旭化成ファーマ株式会社	ジャパン株式会社
株式会社アンカーメディック	川村義肢株式会社
東名ブレース株式会社	メドトロニックソファモアダネック株式会社
株式会社エム・イー・システム	有限会社平賀義肢製作所
	武田薬品工業株式会社
	小野薬品工業株式会社

日本小児整形外科学会雑誌第 23 巻の制作にあたりましては、上記の皆さまより多大なご支援を賜りました。ここに謹んで御礼申し上げます

日本小児整形外科学会
理事長 齋藤知行



「運動器の10年」世界運動

日本小児整形外科学会ホームページでは、会員専用ページを設けております。

「registered 会員」だけがご利用いただけますので、ご希望の方はお申込み下さい。

(※「registered 会員」の申込み <http://www.jpoa.org/>からアクセスできます)

会員専用ページでは、オンラインで下記がご利用できます。

*会員名簿(勤務先のみ)の閲覧

*会員情報変更(勤務先・自宅の住所変更)---開設しておりますのでご利用ください。

(補足)：ホームページの会員名簿について

ホームページ掲載を登録(registered)された方のみ掲載しています。

また、閲覧可能な会員は登録(registered)された方のみです。

会員名簿には、勤務先に関する情報のみ(勤務先名・勤務先住所・勤務先 TEL 番号・勤務先 FAX 番号)を掲載しています。

購読申し込み 日本小児整形外科学会雑誌(年3回刊)は日本小児整形外科学会機関誌ですが、会員外の方にもお頒けいたします。希望の号数と誌代・送料を添えて、学会事務局宛お申し込みください。

入会申し込み 新規入会を希望される方は、住所(確実な連絡先)、氏名、所属を明記の上、学会事務局までお申し込みください(封筒に「新入会申込」と表書してください)。

日本小児整形外科学会雑誌

第23巻第2号

2014年12月25日 発行©

定価 4,500 円 (本体価格 4,167 円 税 333 円)

編集・発行者 日本小児整形外科学会

理事長 齋藤知行

〒113-0033 東京都文京区本郷2-40-8 THビル2階

電話 (03)5803-7071

FAX (03)5803-7072

E-mail : jpoa@jpoa.org

URL : <http://www.jpoa.org/>

印刷・製本 三美印刷株式会社

〒116-0013 東京都荒川区西日暮里5-9-8

電話(03)5604-7031 FAX (03)5604-7038

Printed in Japan