

## エイトプレートを用いた骨端線成長抑制術の 神経線維腫症1型に対する有効性

神奈川県立こども医療センター 整形外科

森 川 耀 源・町 田 治 郎・中 村 直 行  
大 庭 真 俊・鈴 木 勉 哲・阿 多 由 梨 加

**要 旨** 【目的】エイトプレートを用いた骨端線成長抑制術後の脚長差の変化を調査し効果の有無を検討すること。【対象と方法】2011年12月から2013年8月までにエイトプレートを使用し骨端線成長抑制術を施行した患者19人(男児13人・女児6人)を対象とした。特発性片側肥大症10例, 症候性脚長不等9例であった。術直前・術後1年の骨長差を後方視的に調査した。初回計測時5.0歳, 手術時9.8歳, 術後経過観察期間1.4年であった(値はすべて中央値)。プレート使用部位は大腿遠位のみ2例, 下腿近位のみ5例, 大腿遠位・下腿近位両方12例で, 先天性左脛骨弯曲症に伴う短縮に対し右(健側)へ使用した1例以外は, すべて肥大側に用いた。術直前から最終診察時において, 骨長差の縮小例・不変例を効果あり, 脚長差の増加例を無効とした。【結果】効果を認めたのは, 19例中16例であった。効果不十分であった3例すべてが, 神経線維腫症1型(NF-1)に伴う脚長不等であった。効果を認めた16例の中にNF-1の症例は認めなかった。【結語】NF-1に伴う下肢長不等に対する骨端線成長抑制術において, エイトプレートの効果は不十分であった。

### はじめに

近年, 小児の脚長不等に対する骨端軟骨抑制術としてエイトプレートの使用が普及している<sup>2)5)</sup>。今回, 当院におけるエイトプレートを用いた骨端軟骨抑制術の治療効果につき調査したので報告する。

### 対象と方法

2011年12月から2013年8月までに, 当院で脚長不等に対しエイトプレートによる骨端軟骨抑制術を施行した19人31骨を対象とした。男児13人, 女児6人であった。初診時年齢5.0(0.5~12.8)歳, 手術時年齢9.8(5.5~14.1)歳, 最終診察

時年齢11.4(7.7~15.1)歳, 経過観察期間は1.4(1.1~2.6)年であった[以下, 値はすべて中央値(最大-最小)]。観察期間中に抜釘を施行した症例はなく, すべてプレート固定中であった。

原疾患の内訳は特発性10例, 神経線維腫症1型(以下, NF-1)3例, その他先天性股関節脱臼術後, Beckwith-Wiedemann 症候群, 先天性脛骨弯曲症, 片側性骨端異形成症, 結節性硬化症が各1例であった。プレート使用部位は, 大腿骨遠位2例, 脛骨近位5例, 大腿骨脛骨両方12例, 計19例31骨であった。脛骨には12mm, 大腿骨には16mmのプレートを全例で使用した。プレート固定を施行した各骨につき, 左右の骨長を術前・術後1年で計測した。

**Key words** : eight plate(エイトプレート), leg length discrepancy(下肢長差), neurofibromatosis type 1(神経線維腫症1型)

**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 森川耀源  
電話(045)711-2351

**受付日** : 2015年2月24日

骨長の計測法は、大腿骨頭頂部から果間部までの距離を大腿骨長、脛骨顆間隆起から天蓋中央までの距離を脛骨長とした。術前的大腿骨もしくは脛骨の骨長左右差をA、術後1年時点での骨長左右差をBとし、AとBの差を骨長差縮小量(mm)とした。骨長差縮小量が正の値もしくは0であるものを有効群、負の値を無効群と分類した(図1)。

### 結果

全症例の下肢長差は術直前34(15~50)mm、最終診察時25(9~46)mmであった。術前から術後1年時点での骨長左右差縮小量は、大腿骨使用例では7mmであり、14骨すべてが有効群に分類された。一方、脛骨使用例では骨長左右差縮小量は2mmで17骨中3骨が無効群であった(図2)。

以下、無効3骨を含む脛骨使用例の17骨について行ったサブ解析について述べる。

### 方法(サブ解析)

エイトプレートを脛骨に使用した14例17骨を対象とし、効果に影響を及ぼしたと考え得る項目につき患者要因と手術要因に分けて、有効群・無効群を比較検討した。患者要因では、性別、手術時年齢、Body Mass Index(以下、BMI)、Femoro-Tibial Angle(以下、FTA)、術前骨長差、基礎疾患を調査した。手術要因では骨端線横径に対する挿入スクリュー長の比率をPhysis-Screw Percentage(以下、PSP)として計測した(図3)。

またスクリューの挿入角度をDiverge Angle(以下、DA)として計測した(図4)。当院では初期の9症例については近位・遠位のスクリュー同士を平行に挿入していたのに対し、10症例目以降はdivergeを意識して挿入するようにしている。したがって、術後骨端線の成長により徐々にdivergeしてくるエイトプレートの特性を利用し、初期の9症例については術後6か月時点でのDAを初期挿入角度として採用した(図5)。

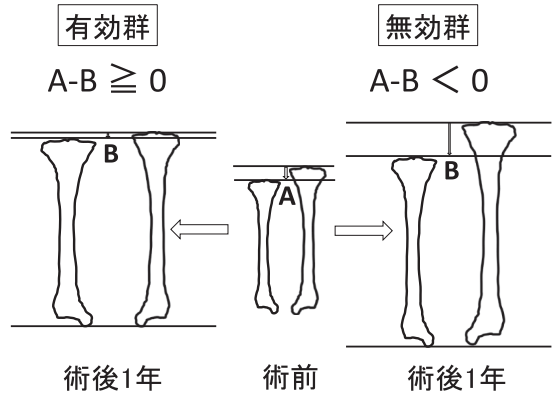


図1. 左右骨長差縮小量による分類  
左右の骨長差を術前A(mm)と術後1年B(mm)とし、骨長差縮小量(A-B)が0(mm)以上を有効群、0(mm)未満を無効群と分類した。

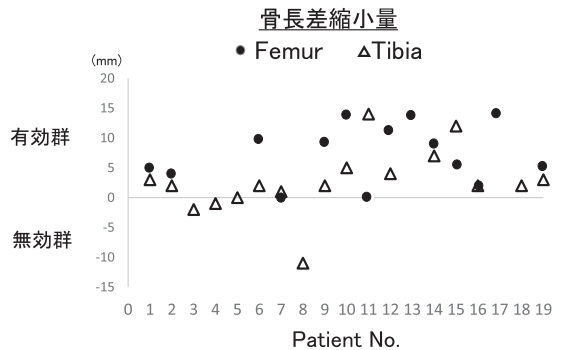
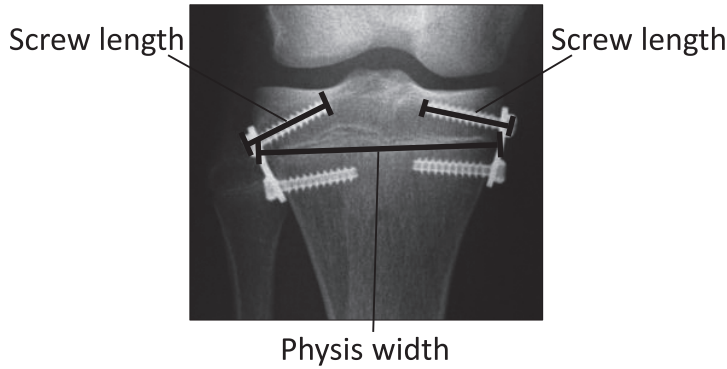


図2. 骨長差縮小量の分布  
術後1年時点における骨長差縮小量は大腿骨使用例(●)では、14骨すべてが0mm以上で有効群となったが、脛骨使用例(△)では、17骨中3骨が0mm未満で無効群に分類された。

### 結果(サブ解析)

統計ソフトにはR version 3.0.1を使用し、P値0.05以下を有意差ありとして解析を行った。患者要因では、性別、手術時年齢、BMI、FTA、術前骨長差は有効群と無効群の両群間で有意差を認めなかったが、基礎疾患は無効群に含まれた3例すべてがNF-1であった。有効群に同疾患は1例も見られなかった。手術要因については、PSPは有効群で82.0%、無効群で97.6%であり両群間で有意差を認めなかった(p=0.68)。また、DAも有効群で7.3°、無効群で9.1°と両群間で有意差を認めなかった(p=0.30)(表1)。

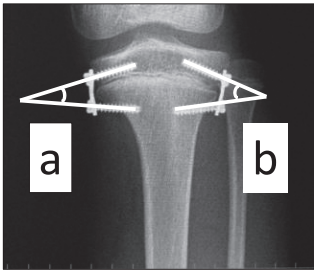


## Physis-screw percentage (PSP)

$$= (\text{Screw length} \times 2 / \text{Physis width}) \times 100 (\%)$$

図3. Physis-Screw Percentage(PSP)

骨端線横径(Physis width)に対する挿入スクリュー長(Screw length)の比率を Physis-Screw Percentage(PSP)とした。



## Diverge angle (DA)

$$= (a+b) / 2 \quad (\text{度})$$

図4. Diverge Angle(DA)

近位・遠位スクリューの延長線のなす角度を内外側でおのおの計測し、両者の平均値を Diverge Angle (DA)とした。

### 考 察

小児の脚長不等に対する骨端軟骨抑制術において、エイトプレートの使用頻度が高まってきている。従来のステープルに比べ、抜釘が容易であること、骨端線へのストレスがより小さく早期骨端線閉鎖を来すリスクが小さいことなどが、主な普及理由と考えられる<sup>5)6)</sup>。当院では、脚長不等患

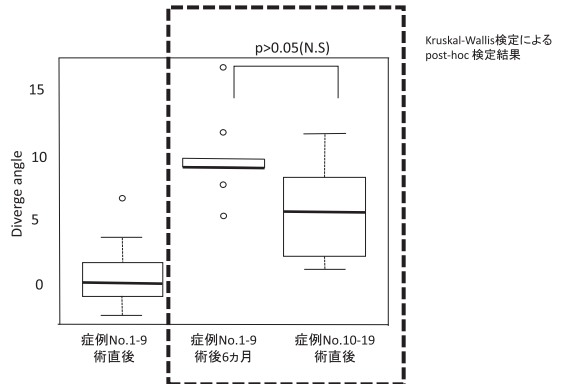


図5. 症例による DA の相違

DA は、症例1～9例目は術後6か月時を、症例10～19例目は術直後を採用した。

者に対し2011年12月より同プレートの使用を開始し、2013年8月までで計19例31骨に使用した。28/31骨(90%)で骨長差の拡大を抑制し得た。効果不十分であったのは3例(10%)であった。有効群と無効群の比較では性別、手術時年齢、BMI、FTA、術前骨長差、DAに有意差を認めず、PSPは、むしろ無効群で高い傾向にあった。無効群はいずれもNF-1患者であり、有効群にNF-1は1例もなかった。ゆえに、今回の結果はNF-1に起因するものと結論づけた。

NF-1に効果が認められなかった理由として

表1. 患者要因・手術要因別におけるエイトプレートの有効・無効群

		有効群	無効群	P
患者要因	性別	男9女5	男2女1	1
	手術時年齢(歳)	10.4	8.3	0.31
	術前骨長差(mm)	20.5	26	0.31
	BMI(kg/m/m)	17.8	16.7	0.7
	FTA(度)	175.9	175.7	0.91
	原疾患	NF-1以外	全てNF-1	-
手術要因	PSP(%)	82	97.6	0.68
	DA(度)	7.3	9.1	0.3

は、本疾患は骨粗鬆症を伴うことが多いことが指摘されており<sup>3)4)</sup>、インプラントによる固定力が健全な骨に比較して劣ることが要因のひとつと考えた。また、本来は神経由来の病態であり、骨の過成長を抑制する上で単純に骨に対するアプローチのみでは不十分であるという意見もある<sup>2)</sup>。根治療法としては理論上神経切離が検討され得るが、当然神経麻痺を誘発するため、現実的な治療法とはいえない。

NF-1は7.1%に脚長差を生じるとされており<sup>1)</sup>、早急に有効な治療法が検討されるべきである。患肢への一時的な骨端軟骨抑制のみでは不十分であるとすれば、患者の年齢や脚長によっては非可逆的な骨端軟骨閉鎖術も現時点では選択肢のひとつとなり得る。加えて、健側の脚延長も考慮されるが、当然偽関節のリスクが大きい。CrawfordらはNF-1に伴う脚長不等に対し、患側骨端軟骨抑制術と健側脚延長術を組み合わせた方法を施行したが、良好な成績は得られなかったと報告している<sup>2)</sup>。

今回の研究におけるlimitationを2つ挙げる。第1に治療効果判定の方法である。本研究では、放置すれば骨長左右差の拡大が見込まれる症例について、術後1年時点で差が拡大さえしていなければ有効と判定した。つまり、成長抑制率に厳密に言及したものではないため、有効群の症例も臨床的に十分な抑制が得られたとまでは必ずしも言い切れない。第2として、経過観察期間が1.4(1.1~2.6)年と短いことである。エイトプレートの使用が日本で認可されてからまだ5年に満たないため、

現時点では長期成績での報告は不可能であった。

したがって、あくまで短期成績ではあるが本研究では脚長不等の多くの症例に対しエイトプレートによる骨端軟骨抑制術が有効であることが示唆される結果となった。その一方で、唯一NF-1においてのみ効果不十分であった。本疾患に対する信頼できる治療法はいまだ確立されておらず、今後も継続的な研究が必要である。

## 結 論

脚長不等に対するエイトプレートの効果について、当院での治療成績をもとに調査した。

ほぼ全例で骨長差は縮小したが、NF-1に対する効果は不十分であり、本術式が有効な治療法とはいえないと思われた。

## 文献

- 1) Crawford AH, Bagamery N: Osseous manifestations of neurofibromatosis in childhood, *Pediatr Orthop* **6**: 72-88, 1986.
- 2) Crawford AH, Schorry EK: Neurofibromatosis in children: the role of the orthopaedist. *Journal of the American Academy Orthopaedic Surgeons* **7**(4): 217-230, 1999.
- 3) Heervä E, Leinonen P, Kuorilehto T et al: Neurofibromatosis 1-related osteopenia often progresses to osteoporosis in 12 years. *Calcif Tissue Int* **92**(1): 23-27, 2013.
- 4) Heervä E, Huilaja L, Leinonen P et al: Follow up of six patients with neurofibromatosis 1-related osteoporosis treated with alendronate for 23 Months. *Calcif Tissue Int* **94**(6): 608-612, 2014.

5) Pendleton AM, Stevens PM, Hung M: Guided growth for the treatment of moderate leg-length discrepancy. *Orthopedics* 36(5) : 575-580, 2013.

6) Stevens PM: Guided growth: 1933 to the present. *Strat Trauma Limb Reconstr* 1(1) : 29-35, 2006.

### **Abstract**

#### Leg Length Discrepancy treated using an Eight-Plate for Guided Growth

Yogen Morikawa, M. D., et al.  
Kanagawa Children's Medical Center

We report the outcomes from using the eight-plate for guided growth in 19 cases of leg length discrepancy (LLD). These 19 cases involved 13 boys and 6 girls, with a mean age at operation of 9 years 10 months. Temporary epiphysiodesis in the distal femur and proximal tibia was performed for 12 cases, in the distal femur only in 2 cases, and in the proximal tibia only in the other 9 cases. The mean follow-up duration was 1 year 5 months. Comparing the LLD before surgery with the LLD at one year after surgery, a total of 16 cases showed decreased LLD and the outcome was considered successful, while the other 3 cases showed no improvement and the outcome was considered unsuccessful. These 3 cases with unsuccessful outcome were all LLD due to neurofibromatous Type-I. These findings suggest that the eight-plate may be not indicated for treating LLD due to neurofibromatous Type-I.