

単純レントゲン所見だけでは、生理的O脚と ビタミンD欠乏性くる病の鑑別は難しい

坂本 優子¹⁾・鈴木 光幸²⁾・石島 旨章³⁾
時田 章史⁴⁾・金 勝乾¹⁾・鎌田 孝一¹⁾
桑原 宏朋¹⁾・森川 大智¹⁾・野沢 雅彦¹⁾

1) 順天堂大学医学部附属練馬病院 整形外科

2) 順天堂大学医学部 小児科

3) 順天堂大学医学部附属順天堂医院 整形外科

4) クリニックばんびい

要旨 一般的に乳幼児のO脚は、単純レントゲン(Xp)に異常所見がなければ、「生理的O脚」と診断されている。近年、増加傾向にあるビタミンD欠乏性くる病の発症年齢が、生理的O脚の時期と重なる。両者がXpで鑑別可能かどうか検討した。O脚を主訴に来院した患児のうち、i-PTH 65 pg/ml以上、ALP>1000 IU/L、25(OH)D<20 ng/mLのすべてを満たす7例をD欠くる病とし、i-PTHとALPに異常のない6例を生理的O脚とした。これらの膝関節、足関節のXpを別々に、ランダムに4人の整形外科医に見せ、くる病か生理的O脚か正確に診断した人数の割合を診断率とした。診断率は膝関節と足関節は共に60.7%で差はなかった。膝・足関節の両方をくる病でないと診断されたくる病症例が、3例あった。O脚を認める症例には、Xpだけでなく採血を行って、ビタミンD欠乏性くる病を鑑別することが重要だと考えられた。

序文

整形外科の外来では、乳幼児期にO脚を主訴に受診する患児は多い。単純レントゲンに異常所見がなければ、「生理的O脚」と診断されているのが一般的である。これは、1970年代から国内外で報告されている、正常児の大腿骨-脛骨角の経年的変化の報告で、0歳から2歳まではO脚を示すという結果によるものであると考える¹⁾²⁾⁸⁾。また、レントゲンに異常所見がないO脚は、自然軽快するという経験にも基づく³⁾。近年、完全母乳栄養の推進や極端に紫外線を避ける傾向および食物アレルギーなどによる生活習慣の変化で、

ビタミンD摂取が減少し、ビタミンD欠乏性くる病(D欠くる病)に罹患する乳幼児が増加しており⁷⁾¹⁰⁾、D欠くる病の発症年齢は生理的にもO脚と言われている時期と重なる¹⁰⁾ため、両者の鑑別が重要となっている。臨床の現場において、整形外科医はまず単純レントゲン(Xp)で両者の鑑別を行うことが多いため、生理的O脚とD欠くる病がXpで鑑別可能かどうか検討した。

対象・方法

2013年4月から2014年7月まで、O脚を主訴に来院した患児のうち、日本小児内分泌学会の示す診断基準に法⁵⁾でi-PTH異常高値(>65 pg/

Key words : vitamin D deficiency rickets(ビタミンD欠乏性くる病), nutritional rickets(生理的O脚), physiologic leg bowing(単純レントゲン), radiographic diagnosis(鑑別), tibia vara(下肢アライメント)

連絡先 : 〒177-8521 東京都練馬区高野台3-1-10 順天堂大学医学部附属練馬病院 整形外科 坂本優子

電話(03)5923-3111

受付日 : 2015年1月30日

ml), ALP 1000 IU/L 以上, 25(OH)D 20 ng/mL 以下のすべてを満たす7例(平均1歳10か月)をD欠くる病とし, 血液検査に異常のない6例(平均1歳7か月)を生理的O脚とした. 全例1歳以上であるため, ALP 1000 IU/L 以上を診断基準として用いた. 症例は最低5か月経過観察し, 治療経過や自然経過に矛盾がないことを評価している. 13例の初診時両下肢全長Xpを用いて, 両膝関節, 両足関節のみの画像を画像編集ソフトを用いて作成した. 両下肢全長Xpは, 立位での撮影が困難な症例は臥位で撮影した. 生理的O脚, D欠くる病共に4例は臥位での撮影であった. Levineらの方法⁴⁾に従って両側脛骨のMetaphyseal-Diaphyseal Angle(MDA)を測定し, 平均をその症例のMDAとした. 13例の膝関節, 足関節のXpを別々に, D欠くる病症例と生理的O脚症例をランダムに4人の整形外科医に見せ, それぞれの画像についてくる病を疑うか否かを判定させた. 正確に診断した人数の割合を診断率とした. 診断率100%とは, 例えば生理的O脚症例もしくはD欠くる病症例を, 4人の整形外科医全員がXpを見て正しく言い当てたという意味である.

4人は卒後8年から30年以上臨床に携わっている一般整形外科医で, 特に小児整形外科を専門としているわけではない.

結果

D欠くる病と生理的O脚の年齢に有意差はなかった. MDAは, D欠くる病の平均 9.0 ± 2.5 , 生理的O脚平均 7.0 ± 1.7 であり, 両群に有意差はなかった. D欠くる病症例のうち, 身体徴候としてO脚を全例に, 動揺性跛行を5例に, 橈骨遠位端の軽度な外傷による骨折を1例に認めたが, 脊柱の弯曲, 頭蓋癆, 大泉門の開離, 肋骨念珠, 横隔膜付着部肋骨の陥凹, 関節腫脹, $-2SD$ 以上の成長障害を認めた症例はなかった.

D欠くる病の診断率は膝関節で100%3例, 50%2例, 25%1例, 0%1例, 平均60.7%, 足関節で100%3例, 75%1例, 25%2例, 0%1例, 平均60.7%であった. 診断率に両者で差はなかつ

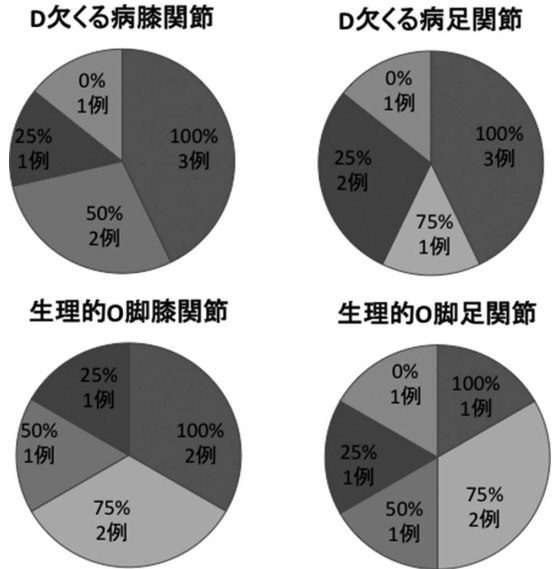


図1. 13例の生理的O脚もしくはD欠くる病症例の, 膝関節, 足関節Xpそれぞれの4人の整形外科医による診断率を示す.

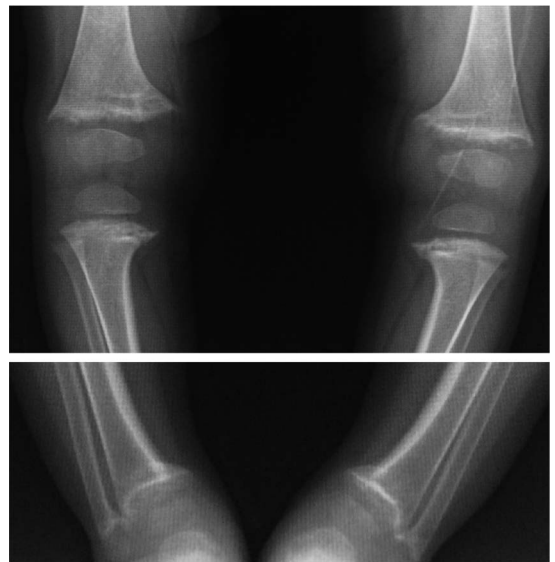


図2. D欠くる病の診断率が膝・足関節共に100%の症例. 1歳6か月男児. i-PTH 329 pg/ml, ALP 9921 IU/L, 25(OH)D < 5 ng/mLであった.

た(図1). 整形外科医4人中2人以上に, 膝・足関節の両方をくる病でない診断されたくる病症例が3例あった. 膝関節, 足関節共に100%の診断率であったD欠くる病症例を図2に, 膝関節, 足関節共に診断が研者間で一致しなかったD欠くる病と生理的O脚症例をそれぞれ図3と図4

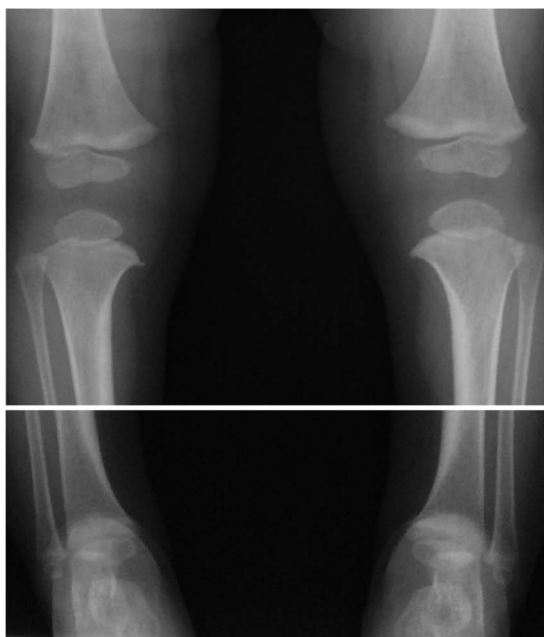


図3. D欠くる病の診断率が膝50%, 足関節75%の症例. 1歳12か月女児. i-PTH 68 pg/ml, ALP 1064 IU/L, 25(OH)D 18 ng/mLであった.



図4. 生理的O脚の診断率が膝50%, 足関節50%の症例. 1歳1か月男児. i-PTH 27 pg/ml, ALP 858 IU/L, 25(OH)D 24 ng/mLであった.

に、膝関節、足関節共に0%の診断率であったD欠くる病症例を図5に示す。図5の症例は、日光にあたることと肝油を摂取することを勧めただけで血液検査所見は改善し、Xp所見が悪化するこ



図5. D欠くる病の診断率が膝・足関節共に0%の症例. 2歳1か月男児. i-PTH 80 pg/ml, ALP 1069 IU/L, 25(OH)D 18 ng/mLであった.

とはなかった。

考 察

今回の結果、D欠くる病と生理的O脚の鑑別には、膝関節Xpでも足関節Xpでも診断率は変わらず、6割程度でしかなかった。今回の検者4人は、特に小児のレントゲン所見に精通している小児整形外科医ではないため、診断率が低くなった可能性はある。しかし、日常診療の中で、生理的O脚と診断をくださるのは一般整形外科医が多く、現状に則した検討方法だと考える。くる病の診断には、膝関節と手関節Xpの診断が推奨されている⁹⁾。手関節と解剖学的に類似点の多い足関節では、レントゲン所見の表れ方に膝関節と比較して違いが出るかと検討を行ったが、結果は膝関節と変わらなかった。新たな部分への放射線被曝を避ける目的で、O脚の程度を把握するために撮影する両下肢全長1枚のレントゲンで、くる病の診断ができることが理想であると考え、今回の検討を行った。しかしながら、手関節Xpを用いた方が診断率が上がる可能性はあると考える。

D欠くる病の診断は、Xpでくる病所見があることが必須である⁵⁾。つまり、図5に示したよう

な明らかなくなる病所見がXp上認められない症例をD欠くる病と診断することが正しいかどうかは、異論があると思われる。しかし、ビタミンD摂取を促しただけで血液検査所見・O脚の程度も軽快したという臨床経過から、D欠くる病の軽症例であると考えている。

くる病としての診断率が膝・足関節共に100%であった症例のi-PTHの平均は312 pg/ml, ALPの平均は4844 IU/Lであり、診断率が低かった症例はi-PTの平均114 pg/ml, ALPの平均は1309 IU/Lと、血液検査も軽症であった。図3と図4に示すように、軽症例のレントゲン所見は骨幹端の境界がはっきりせず、lucencyがあるという変化、もしくは骨幹端のirregularityを認めるだけであった。生理的O脚にも同様の骨端部の変化を認める症例があった。重症のD欠くる病のみにcuppingやfrayingを認めた。今回の検討から、軽症のD欠くる病と生理的O脚の鑑別はレントゲンだけでは難しいという結論を得ることができた。

ビタミンD欠乏児の5%のみがXp異常を有するという報告⁶⁾から、Xp上明らかなD欠くる病発症には、ビタミンD欠乏の長期間にわたる継続や、ビタミンD欠乏に陥りやすい遺伝子¹¹⁾といった要因が関与している可能性が考えられる。つまり、25(OH)Dが低いだけでなく、他の検査所見(ALPやi-PTH)も異常を呈する状態が長期間継続すると、Xpも明らかな異常を呈してくるのではないだろうか。

生理的O脚という概念は、1970年代から国内外で報告されている、正常児の大腿骨-脛骨角の経年的変化の報告¹⁾²⁾⁸⁾が基になっているが、これらの報告はどれも対象児に血液検査を行っていない。Xpにおけるどの程度のくる病所見で対象から外されたかも明記されていない。今回の結果を踏まえると、対象児にD欠くる病患児が含まれている可能性が否定できない。「生理的O脚」と定義するからには、全例採血を行った上で下肢アライメントの自然経過を評価し直す必要があるのではないだろうか。

結 論

膝関節や足関節のXpによる診断では軽症のD欠くる病と生理的O脚を正確に区別できない可能性があった。

文献

- 1) 蜂谷将史：小児の膝内反・外反の逐年的推移に関するX線像の研究, 日整会誌 55(1) : 31-44, 1981.
- 2) Heath CH, Staheli LT: Normal limits of knee angle in white children—genu varum and genu valgum. J Pediatr Orthop 13(2) : 259-62, 1993.
- 3) Herring JA: Tachdjian's Pediatric Orthopaedics/ From the Texas Scottish Rite Hospital for Children, 4th edition, Saunders, Philadelphia, 973-974, 1972.
- 4) Levine AM, Drennan JC, Contcut N: Physiological bowing and tibia vara. JBJS 64-A (8)1158-1163, 1982.
- 5) 日本小児内分泌学会：ビタミンD欠乏性くる病・低カルシウム血症の診断の手引き, 2013.
- 6) Perez-Rossello JM, Feldman HA, Kleinman PK et al: Rachitic changes, demineralization, and fracture risk in healthy infants and toddlers with vitamin D deficiency. Radiology 262(1) : 234-241, 2012.
- 7) Robinson PD, Hogler W, Verge CF et al: The Re-emerging burden of rickets: a decade of experience from Sydney. Arch Dis Child 91 : 564-568, 2006.
- 8) Salenius P, Vankka E: The development of the tibiofemoral angle in children. J Bone Joint Surg Am. 57(2) : 259-61, 1975.
- 9) Thacher TD, Fischer PR, Pettifor JM et al: Radiographic scoring method for the assessment of the severity of nutritional rickets. J Tropic Pediatr 46 : 132-139, 2000.
- 10) Thacher TD, Fischer PR, Tebben PJ et al: Increasing incidence of nutritional rickets: a population-based study in Olmsted county, Minnesota. Mayo Clin Proc. 88(2) : 176-183, 2013.
- 11) Wang JT, Zhang F, Richards JB et al: Common genetic determinants of vitamin D insufficiency: a genomewide association study Lancet 376 : 180-88, 2010.

Abstract

Physiological Leg Bowing : Radiographic Differential Diagnosis from Vitamin-D Deficiency Rickets

Yuko Sakamoto, M. D., et al.

Department of Orthopaedic Juntendo University Nerima Hospital

When the lower limb bones are radiologically normal then presented bow legs are considered to be physiologically normal. However bow legs can be a sign of nutritional vitamin-D deficiency and rickets. With the increasing incidence of rickets in the past few years, differential diagnosis has become clinically important. Here we report the effectiveness of using plain radiographs for differential diagnosis in 13 cases, including 6 cases of physiological leg bowing, and 7 cases of confirmed nutritional rickets. Here nutritional rickets was defined as having intact-PTH at ≥ 65 pg/ml, ALP at >1000 IU/l and 25(OH)D at <20 ng/ml. Four orthopaedic surgeons examined the knee and ankle radiographs in all 13 cases. In 8 cases (60.7%) the four surgeons were in agreement and correct true-positive, in 2 cases, three surgeons were correct, while in the other 3 cases only two surgeons were correct suggesting that misdiagnosis was possible in ≥ 3 cases ($>23\%$) or in about 1 in 4 cases. These findings indicate that plain radiographs are not sufficient for differential diagnosis and that blood examinations are needed.