

骨形成不全症の下肢に発生した術後骨折

心身障害児総合医療療育センター

遊 敬・山本和華・田啓樹・田中弘志
瀬下 崇・伊藤順一・小崎慶介

要旨 骨形成不全症では、彎曲や骨折した長管骨に対し矯正骨切り術や内固定術を行うが、術後再骨折を生じることがある。2005年1月～2015年3月の間に当センターで下肢に対して初回手術を行った36例(男児18例, 女児18例)66肢(大腿骨47肢, 脛骨19肢)を対象とし、術後骨折、転帰、原因や傾向について調査を行った。術後骨折を生じた症例は26肢(大腿骨23肢, 脛骨3肢)であった。骨折を生じた大腿骨23肢中10肢で再手術を要した。Non-Protective Areaで生じた骨折は、全例で再手術が必要となった。Protective Areaで生じた骨折は、多くが保存加療で骨癒合が得られたが、Obturator-Tip, Delayed-Union Regionでの骨折では再手術を要した症例もあった。

はじめに

骨形成不全症(Osteogenesis Imperfecta: 以下, OI)とは、I型コラーゲンに質的量的異常を生じる骨系統疾患であり、青色強膜、難聴、易骨折性が三徴として記載されている。易骨折性は骨の脆弱性により発生し、長管骨の彎曲、短縮を来す。手術的治療として、彎曲を生じた長管骨に対する矯正骨切り術や、骨折に対する内固定術が挙げられる。しかし、術後合併症として、再骨折や内固定材の破綻があり、再手術が必要となることも少なくない。今回、当センターで経験した、下肢に対して手術加療を行ったOI患者の術後骨折について調査を行ったので報告する。

対象と方法

2005年1月から2015年3月の間に当センターで下肢初回手術を行い、1年以上経過観察できたOI患者36名(男性18名, 女児18名)、66肢(大腿骨47肢, 脛骨19肢)を対象とした。初回手術

時年齢は1.8歳から57.7歳で平均9.3歳、中央値5.7歳であった。Shapiro分類はCongenita 17例, Tarda A,B 18例, 不明1例であった。使用した内固定材の内訳は、伸長性髄内釘(Telescopic Rod)48肢, キルシュナー鋼線(K-wire)14肢, 髄内釘2肢, プレート1肢, エンダー釘1肢であった。手術術式は、術前に髄腔計測を行い、伸長性髄内釘の挿入が可能であれば、原則的に伸長性髄内釘を選択した。伸長性髄内釘の最も小さい径である3mmを挿入できない場合は、キルシュナー鋼線を使用した。また、骨端線が閉鎖している成人症例に対しては、通常の内固定材またはエンダー釘を髄腔径や骨折形態に応じて選択している。大腿骨頸部の内反骨切り術に対しては、プレートを用いた。

大腿骨術後骨折の評価のため、骨幹部で内固定材によって保護されている部位をProtective Area, 保護されていない部位をNon-Protective Area, そして頸部骨折のFemoral Neck Fractureの3部位に分類した(図1)。

Key words : osteogenesis imperfecta(骨形成不全症), postoperative fracture(術後骨折), telescopic rod(伸縮性髄内釘), fracture(骨折), intramedullary rod(髄内釘)

連絡先 : 〒113-0033 東京都文京区本郷3-43-3 パークハウス本郷三丁目202 心身障害児総合医療療育センター
遊 敬 電話(0297)45-6687

受付日 : 2017年1月28日

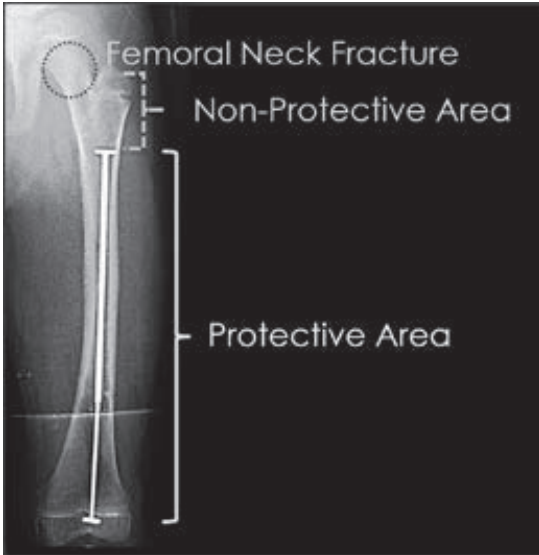


図1. 大腿骨術後骨折の部位分類



図2. Protective Area の部位分類

また、Protective Area に関しては、伸長性髄内釘の外筒(Sleeve)のみの部位を Sleeve-Only Region, 外筒の先端を Sleeve-Tip, 内筒(Obturator)のみの部位を Obturator-Only Region, 内筒先端を Obturator-Tip, 内筒外筒が重なっている部位を Overlapped Region とした。また、前回の骨切り部や骨折部での遷延治癒部を別に Delayed-Union Region として検討を行った(図2)。

下肢術後骨折に関して、骨折部位、Shapiro 分

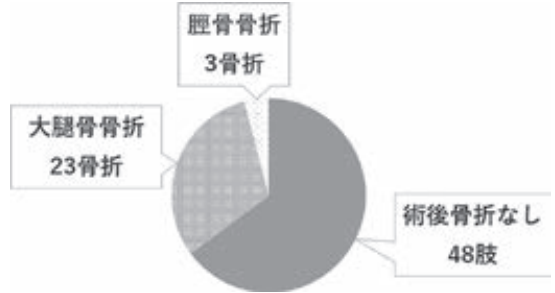


図3. 術後骨折の有無

術後骨折あり 26骨折				術後骨折なし 48肢		
Congenita		Tarda		Congenita	Tarda	不明
手術	保存	手術	保存			
8	9	3	5			

図4. 術後骨折～Shapiro 分類～

類による再骨折の有無、治療方法について後ろ向きに調査を行った。

結果

術後骨折を生じたのは全 66 肢中、18 肢・26 骨折であった。26 骨折中 23 骨折が大腿骨に生じており、脛骨に生じたのは 3 骨折であった(図3)。Shapiro 分類による術後骨折の生じやすさ、また術後骨折の転帰に関しては、特に Congenita, Tarda A,B 群で差はなかった(図4)。

大腿骨骨折を部位別で検討すると、Protective Area での術後骨折が 15 骨折(再手術：4, 保存加療：11), Non-Protective Area が 4 骨折(再手術：4, 保存加療：0), Femoral Neck Fracture が 4 骨折(再手術：2, 保存加療：2)であった(図5)。

Protective Area に関してさらに細かく骨折部位を分けて検討してみると、Overlapped Region で生じた術後骨折が 6 骨折と最も多かったが、全例保存加療であった。Protective Area で生じた骨折で再手術となった 4 骨折は Obturator-Tip の 2 骨折と Delayed-Union Region の 2 骨折であった(図6)。

脛骨に関しては 19 肢中 3 肢(16%)のみに術後骨折が生じ、転位を生じた症例はなかった。再手術が必要となった症例は 1 例あったが、この症例は開放骨折であり、洗浄・デブリドマンおよび内

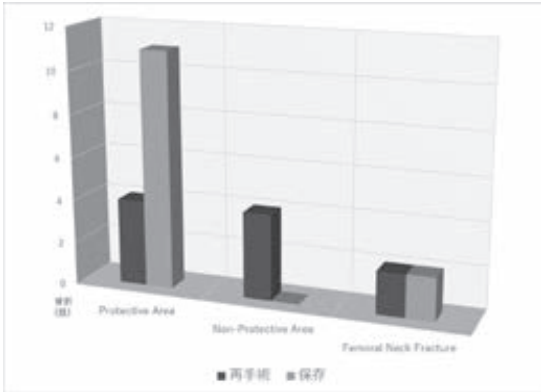


図 5. 大腿骨骨折～部位別～

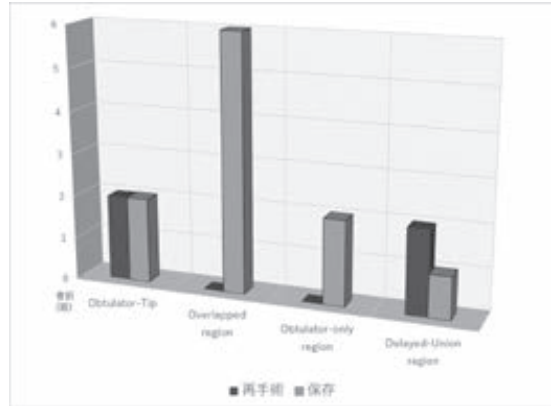


図 6. Protective Area 骨折～領域別検討～

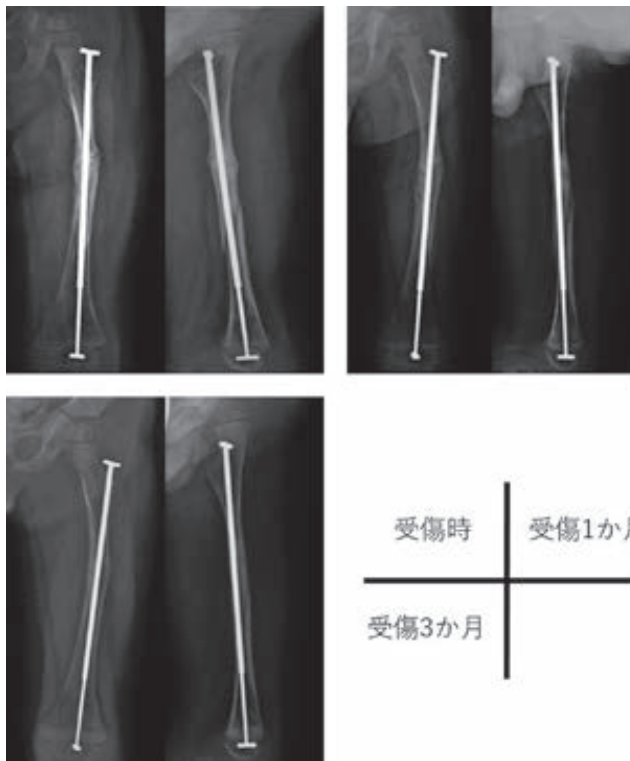


図 7. 症例 1 : 3 歳男児, OI Silence type I, Shapiro 分類 : Tarda 保存加療にて骨癒合

固定材の抜去を行い, 保存加療で骨癒合が得られた.

症例提示

症例 1 : 3 歳男児, OI Silence type I ,Shapiro 分類 : Tarda

2 歳時に左大腿骨骨折に対して伸長性髓内釘を用いた内固定術を行った. 3 歳時に転倒して受傷

し, 左大腿 Protective Area, Overlapped で骨折を生じた. 転位はなく, シーネによる保存加療を行い, 骨癒合が得られた(図 7).

症例 2 : 10 歳女児, OI Silence type I ,Shapiro 分類 : Congenita

3 歳時に両大腿骨変形に対して, 伸長性髓内釘を用いて両大腿骨矯正骨切り術を行った. 5 歳の経過観察時に左の伸長性髓内釘が伸長不十分で髓

腔内に迷入しており、Non-Protective Areaを生じていた(図8)。10歳時に転倒して受傷し、左大腿 Non-Protective Areaで骨折を生じた。転位が大きかったため、伸長性髓内釘の外筒のみ骨折部より抜去し、修復後2.0 mm および2.5 mm K-wire を大転子より挿入し、Protective Areaを確保して、内固定を行った。その後の経過良好で、骨癒合が得られた(図9)。

考 察

OIは、骨脆弱性により、術後骨折の生じる割合が健常児より高いと考えられる。伊藤ら³⁾は歩行時には頸部ではなく、骨幹部に最も強い力学的ストレスが加わると述べている。自験例でも、手術的加療を行ったOI患者の35%で術後骨折が生じており、その83%が骨幹部レベルで生じていた。

OIの大腿骨内固定術後の骨折に関して、Janusら⁴⁾はProtective Areaに生じることが多いと言及している。本研究でも、OI患者の全大腿骨骨折中約65%がProtective Areaで生じており、同様の結果となった。ただし、Protective Areaで生じた術後骨折の73%が転位を生じず、保存加療で骨癒合が得られていた。このことから多く

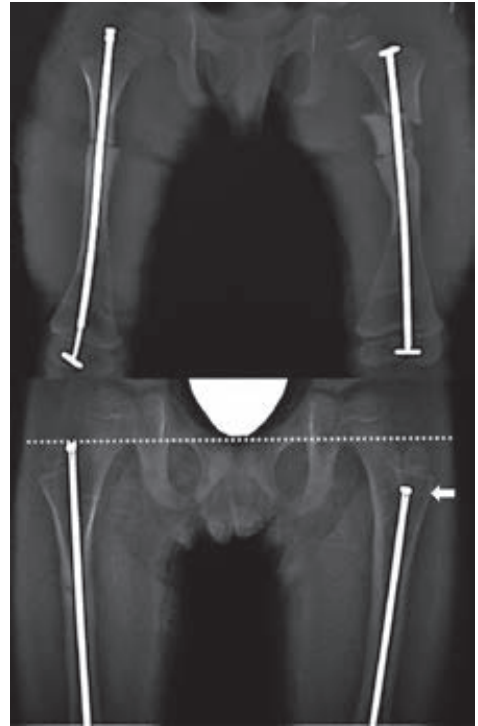


図8. 症例2: 10歳女児, OI Silence type I, Shapiro分類: Congenita
上段: 初回手術後 両大腿矯正骨切り術(右大腿1回, 左大腿2回)
下段: 初回術後2年 左大腿のみ伸縮性髓内釘が腔内に迷入
点線: 外筒のあるべき位置 矢印: 迷入した外筒

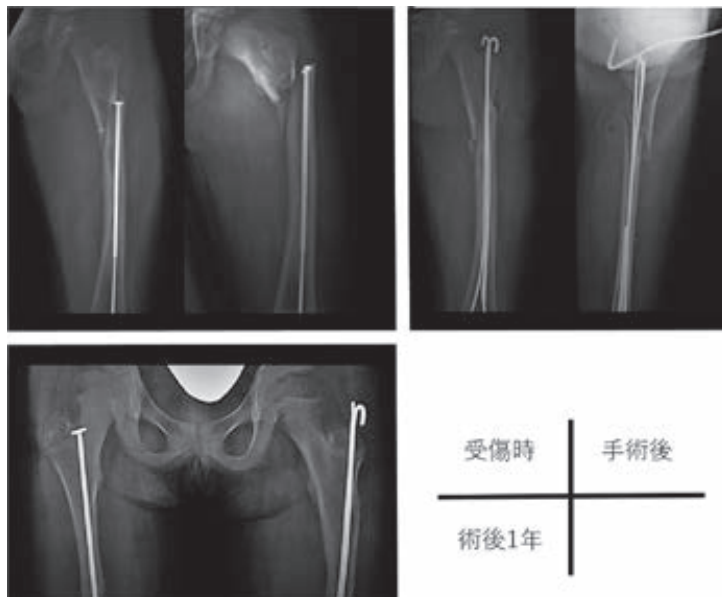


図9. 症例2受傷時 外筒のみを骨折部より抜去し、K-Wireを大転子より挿入。Protective Areaを確保して内固定

の症例で、内固定材の支持により、術後骨折の転位を防ぎ、再手術を回避できたといえる。しかしながら、Protective Area で生じた骨折のうち、27% (4 骨折) で再手術が必要であった。一般的にプレートの端部など剛性が変化する部位で相対的なストレスがかかることは知られている⁶⁾。一方、伸長性髓内釘は内筒と外筒があるため、その構造上、Sleeve-Only Region, Overlapped Region, Obturator-Only Region と部位により剛性の変化が細分化されている。すなわち、内筒の先端および外筒の先端 (Obturator-Tip & Sleeve-Tip) の 2 箇所では剛性が変化する部位ができ、相対的なストレスが生じやすい。この 2 箇所に骨遷延治療部 (Delayed-Union Region) を加えた 3 箇所が、Protective Area 内でも相対的に弱い部位であると Cho ら¹⁾ は報告している。

本研究でも、Protective Area で生じた術後骨折で再手術が必要となったのは、Obturator-Tip の 2 例と Delayed-Union Region の 2 例であった。剛性が変化する部位に相対的なストレスが生じ、再骨折が起こりやすいことに加え、内固定材の強度も Overlapped Region に比べ弱いため、転位が生じやすく、再手術の危険性も増す可能性があると考えられる。

また、自験例では、Non-Protective Area に生じた骨折はすべて転位が大きく、再手術が必要となった。Imajima ら²⁾ は K-wire を用いた内固定術後、骨幹部の長軸に対して、K-wire により支持されている部位 (Protective Area) が 70% を下回ると内固定材端部での再骨折率が上昇し、再骨折時は転位により全例で再手術が必要となったため、70% を下回る前に K-wire の入れ替えが望ましいと報告している。本研究でも同様の結果であったため、十分な Protective Area を確保することが、術後再骨折および再骨折による再手術を予防する上で重要なことと思われる。よって、Protective Area をより多く作ることでできる髓内釘が内固定材として望ましく、また、骨成長に伴ってインプラント長を伸長させることでより長期に Protective Area を確保できる伸長性髓内釘

が現時点では、有用だと考える。

症例 2 では、左伸長性髓内釘のみが 2 年の経過で伸長不十分で大腿骨内へ迷入してしまい、伸長性髓内釘の近位に Non-Protective Area を生じてしまい、再骨折を生じ、再手術が必要であった。自験例では、術後伸長性髓内釘が髓腔内に迷入した症例は 48 肢中 10 肢 (大腿骨: 7 肢, 脛骨 3 肢) あり、Non-Protective Area を生じていた。Non-Protective Area を生じた症例で、実際に Non-Protective Area で骨折を生じたのは大腿骨での 2 肢であった。Lee ら⁵⁾ は、伸長性髓内釘外筒の近位への突出は大腿骨弯曲の残存、整復位の間隙の残存、そして髓内釘の偏心性挿入が関与している可能性があると言及している。伸長性髓内釘の骨髄内への迷入の原因について検討された報告はないが、これらの要素が関与している可能性がある。しかし、変形が強く体格の小さな OI に対して、手術手技的にこれらの要素をなくするのは困難であると言わざるを得ない。

そこで、当院では Multiple Wire Method (以下、MWM) を近年では行っている。MWM とは、伸長性髓内釘の挿入に加えて、髓腔径に余裕があれば、K-wire などの他の内固定材も髓腔内に追加挿入する手法である (図 10)。この手法により、Protective Area 内での相対的弱部である Obturator-Tip, Sleeve-Tip, Delayed-Union Region を他の内固定材で保護できる。また、術後経過中に、伸長性髓内釘の外筒が大腿骨内へ迷入した際は、もう 1 本の内固定材を追加挿入することで支持性の強化が得られ、Protective Area を作ることができ、再骨折による転位を予防できる。また、術後骨折後再手術の際にも取り入れており、症例 2 のように外筒内筒片方のみ抜去し、他方を留置してブロックピンとして活用しながら、K-wire などを追加挿入し、Protective Area を確保している。

髓腔径が細い幼少期には MWM を行うことは難しいが、髓腔が太くなる 10 歳代以後には、MWM を取り入れ、良好な結果が現時点で得られている。

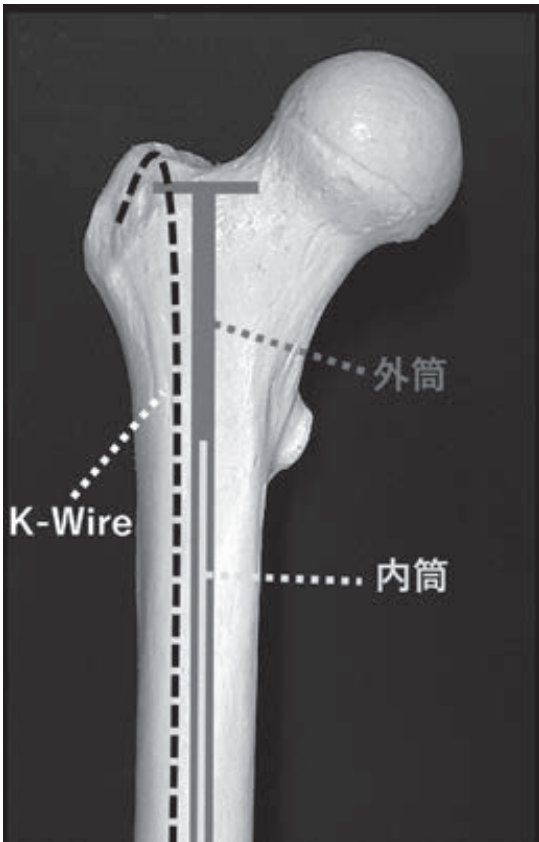


図 10. Multiple Wire Method 模式図

まとめ

OI 術後骨折は大腿骨に多く見られ, Shapiro 分類による重症度は関連しなかった. Non-Protective Area での骨折は転位が生じやすく, 全例で手術が必要となったため, Non-Protective Area を作らないような内固定材の選択が望ましいと考

えられる. また, Protective Area の中でも相対的に弱い部位は剛性の変化が生じる内筒と外筒の先端, および遷延治癒部で再手術が必要となった症例もあった. 当院では, Protective Area をより多く作るために, 内固定材は伸長性髓内釘を可能な限り使用しており, Multiple Wire Method も取り入れている.

文献

- 1) Cho TJ, Kim JB, Lee JW et al : Fracture in long Bones stabilized by telescopic intramedullary rods in patients with osteogenesis imperfecta. J Bone Joint Surg 93-B : 634-638, 2011.
- 2) Imajima Y, Kitano K, Ueda T : Intramedullary Fixation Using Kirshner Wires in Children With Osteogenesis Imperfecta. J Pediatr Orthop 35 (4) : 2015.
- 3) 伊藤順一, 君塚 葵, 大谷隼一ほか : 骨形成不全症に発生した大腿骨骨折に観血的治療を行った 14 症例の解析. 第 21 回骨系統疾患研究会記録集.
- 4) Janus GJ, Vanpaemel LA, Engelbert RH et al : Complications of the Bailey-Dubow Elongating Nail in Osteogenesis Imperfecta: 34 Children With 110 Nails. Journal of Pediatric Orthopaedics Part B 8 : 203-207, 1999.
- 5) Lee K, Park MS, Yoo WJ, et al : Proximal Migration of Femoral Telescopic Rod in Children With Osteogenesis Imperfecta. J Pediatr Orthop 35(2) : 2015.
- 6) Tencer AF et al : Biomechanics of fixation and fractures. Rockwood and Green's fractures in adults. Sixth ed. Vol.1, Lippincott Williams & Wilkins, Philadelphia, 3-41, 2006.