

多発性軟骨性外骨腫症による足関節外反変形に対し 手術療法を施行した症例の検討

吉田 隆 司¹⁾²⁾・金 郁 喆¹⁾・岡 佳 伸¹⁾・中 瀬 雅 司¹⁾
西 田 敦 士¹⁾・和 田 浩 明¹⁾・生 駒 和 也¹⁾・久 保 俊 一¹⁾

1) 京都府立医科大学大学院医学研究科運動器機能再生外科学(整形外科学教室)

2) 京都府立医科大学附属北部医療センター 整形外科

要 旨 多発性軟骨性外骨腫症による足関節外反変形に対し、2011年以降手術療法を施行した7例9関節について検討した。手術時年齢は平均13.2歳、経過観察期間は平均25.9か月であった。成長終了前の5関節に対し骨端線抑制術+腫瘍部分切除を、2関節に対し骨端線抑制術を施行し、成長終了例2関節に対し脛腓間の腫瘍切除を施行した。術前後 tibio-talar angle(以下, TTA), そして骨端線抑制術施行例は、月換算の矯正角について調査した。成長終了前の症例では、術前 TTA は平均 14.3°, 最終 TTA は平均 5.6° で、月換算では平均 0.54° 矯正されていた。成長終了後の2例は、愁訴は消失したものの TTA は軽度悪化した。多発性軟骨性外骨腫症による足関節外反変形が進行しても愁訴は少ないが、高度の外反変形は将来的に関節症に移行する可能性がある。10°以上の TTA の悪化が見込まれる場合は、期待される矯正角と成長終了の時期を考慮し、手術療法を計画する必要があると考えた。

はじめに

多発性軟骨性外骨腫症(以下, MCE)による足関節外反変形は、腓骨の短縮や腫瘍の増大、成長軟骨板の傾斜など種々の要因で生じるが、成長期には無症状であることが多い。Ozaki らの報告では、4°以上の外反を MCE 患者の 69% に認め、その半数は進行したとされる⁵⁾。そこで、足関節外反変形に対し、eight-Plate[®] やスクリューを用いた骨端線抑制術や腫瘍切除術などが施行されているが、その最適な手術時期や期待される矯正角に関する報告は少ない。MCE による足関節外反変形に対し手術療法を施行した症例について検討した。

対象および方法

2011年から2015年に手術療法を施行した7例9関節を対象とした。男性5例(7関節)女性2例(2関節)で、手術時年齢は平均13.2歳(12~16歳)、経過観察期間は平均25.9か月(5~46か月)であった。

術式は、成長終了前の症例に対する eight-Plate[®] あるいはスクリューを用いた骨端線抑制術と腫瘍部分切除術の併用例5関節、eight-Plate[®] を用いた骨端線抑制術のみ2関節、成長終了例に対する脛腓間の腫瘍切除術2関節であった。

MCE の重症度は、単純 X 線像(前腕)での Taniguchi 分類を用い、3群に分類した¹⁰⁾。腓骨

Key words : multiple cartilaginous exostoses(多発性軟骨性外骨腫症), ankle valgus deformity(足関節外反変形), hemiepiphysiodesis(骨端線抑制術), rate of correction(矯正角), eight-Plate[®](eight-Plate[®])

連絡先 : 〒 629-2261 京都府与謝郡与謝野町字男山 481 京都府立医科大学附属北部医療センター 整形外科
吉田隆司 電話(0772)46-3371

受付日 : 2016年12月29日

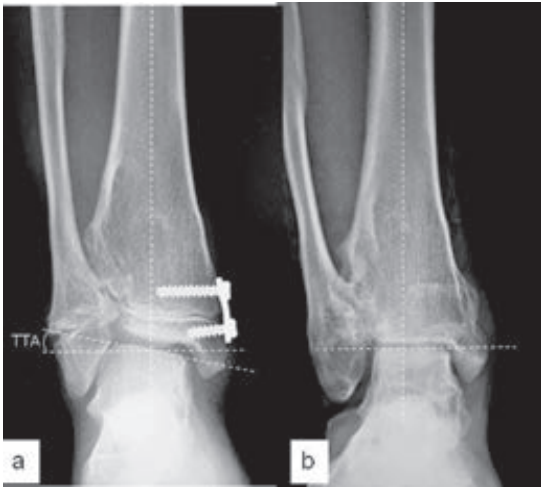


図1. tibio-talar angle (TTA)
a: 術直後 b: 最終調査時

の短縮については、Malhotra 分類を用い、4段階にグレード分類した³⁾。

術直前と最終調査時の tibio-talar angle (以下、TTA) を計測し、骨端線抑制術施行例は、15歳までの矯正角と、月および年換算した矯正角について調査した(図1)。

結果

Taniguchi 分類は、II 群が1例、III 群が6例であった。成長終了前の症例について、Malhotra 分類は、station I が2関節、II が3関節、III が2関節であった。

成長終了前の症例について、術前 TTA は平均 14.3° ($6\sim 26^{\circ}$)、最終調査時は平均 5.6° ($-2\sim 21^{\circ}$) で、平均 8.7° ($2\sim 16^{\circ}$) 矯正されていた。成長終了時までの矯正角は、月換算で平均 0.54° ($0.27\sim 1.20^{\circ}$)、年換算では 6.4° ($3.2\sim 14.4^{\circ}$) であった(表1)。

成長終了後2例の TTA は、術前平均 5.5° ($5\sim$

6°) から最終調査時平均 7.5° ($6\sim 9$) と軽度悪化していた。

考察

成長終了前では、MCE による足関節外反変形が進行しても愁訴は少ない。しかし、平均年齢42歳 ($20\sim 80$ 歳)、38例の足関節についての自然経過をみた報告では、14関節 (19%) に関節症性変化を認め、その群の TTA が平均 15.6° であり、関節症のなかった群の TTA 平均 6.9° と比較し、有意に高かったとされる⁴⁾。よって、高度の外反変形が遺残すると将来的に関節症に移行する可能性がある。また、Takikawa らは足関節外反の進行する特徴として、Taniguchi 分類 III 群の男性が有意に高く、Malhotra station II や III の腓骨短縮や脛腓間の腫瘍の増大を挙げている⁹⁾。われわれの症例は、III 群が6例 (86%) で、Malhotra station II や III を5関節 (71%) に認め、重症度や経時的な腓骨短縮の増大には注意が必要である。

足関節痛を認めた成長終了後の平均年齢18.5歳の2例に対し、腫瘍切除術と内反骨切り術を施行した報告では、TTA が 15.5° から 4° まで改善し経過良好であったとされる⁸⁾。われわれの2例は、疼痛や背屈制限を自覚したため、平均15.9歳時に腫瘍切除を施行し、経過良好であったが TTA は術前から最終調査時 (平均 7.5°) に軽度悪化していた。2例とも女性で TTA が $6\sim 9^{\circ}$ であったため矯正骨切り術を希望されなかった。

MCE 患者に対する骨端線抑制術の先行報告では、平均10~11歳時に手術が施行され、矯正角も 10° 以上獲得され、月換算では 0.3° から 0.6° 矯正されている¹⁾⁶⁾⁷⁾。われわれの症例は、骨端線抑制術症例について、手術時平均12.5歳 ($12\sim 13.8$ 歳) と高く、矯正角は平均 8.7° であったが、月換算矯正角は平均 0.54° で過去の報告例と同等であった(表2)。過去の報告例では、スクリューを用いた矯正が行われているのに対し、本研究では eight-Plate[®] を7関節中6関節に用いており、eight-Plate[®] でも早期に同等の矯正効果が得られていた。

表1. TTA の経過と月間および年間矯正角

TTA ($^{\circ}$)		矯正角 / 月 ($^{\circ}$)	矯正角 / 年 ($^{\circ}$)
手術時	最終調査時		
14.3 (6~26)	5.6 (-2~21)	0.54 (0.27~1.20)	6.4 (3.2~14.4)

表 2. MCE 患者の月間矯正角の報告

	発表年	手術時 平均年齢(歳)	TTA(°)		矯正角 /月(°)
			手術時	最終調査時	
Rupprecht M	2011	11.8	14.3	3.3	0.58
Chang FM	2015	10.6	-	-	0.32
Rupprecht M	2015	11.6	13.2	3.2	0.63
自験例	2016	12.5	14.3	5.6	0.54

しかし、目標とした矯正角が得られても、抜釘後のリバウンド現象が報告されている。Davidsら²⁾は、月間0.6°の矯正損失を、Rupprechtら⁷⁾は、43%の症例にリバウンド現象を認め、月間0.37°矯正損失されたと報告している。われわれの症例は、手術時平均年齢がやや高いため、全体の矯正角は劣っていたが、抜釘の時期にはほぼ成長終了の時期となっていたため、抜釘後の矯正損失は明らかでなかった。

本研究では症例数が少ないものの今後のMCEによる足関節外反の治療の際には、Taniguchi分類Ⅲ群の男性で、進行する腓骨短縮や脛腓間の腫瘍の増大があれば、期待される矯正角と成長終了の時期を考慮し、手術療法を計画する必要がある。特に先行報告における獲得矯正角10°前後および本研究での獲得矯正角からも、10°以上のTTAの悪化が見込まれる場合は早期の手術適応が必要と考えた。また、11歳以下の年齢における骨端線抑制術の報告では、早期に良好な矯正位が期待できるものの、抜釘後のリバウンド現象を考慮する必要があるため、適応を慎重に行う必要があると考えた。

まとめ

1) MCEによる足関節外反変形に対し手術療法を施行した症例について検討した。

2) 骨端線抑制術を施行した症例のTTAは、平均8.7°改善し、成長終了までの月換算矯正角は

平均0.54°であった。

3) 進行する腓骨短縮や脛腓間の腫瘍の増大および10°以上のTTAの悪化が見込まれる場合は、期待される矯正角と成長終了の時期を考慮し、手術療法を早期に計画する必要があると考えた。

文献

- 1) Chang FM, Ma J, Pan Z et al : Rate of correction and recurrence of ankle valgus in children using a transphyseal medial malleolar screw. *J Pediatr Orthop* **35** : 589-592, 2015.
- 2) Davids JR, Valadie AL, Ferguson RL et al : Surgical management of ankle valgus in children : use of a transphyseal medial malleolar screw. *J Pediatr Orthop* **17** : 3-8, 1997.
- 3) Malhotra D, Puri R, Owen R : Valgus deformity of the ankle in children with spina bifida aperta. *J Bone Joint Surg Br* **66-B** : 381-385, 1984.
- 4) Noonan KJ, Feinberg JR, Levenda A et al : Natural history of multiple hereditary osteochondromatosis of the lower extremity and ankle. *J Pediatr Orthop* **22** : 120-124, 2002.
- 5) Ozaki T, Kawai A, Sugihara S et al : Multiple osteocartilaginous exostosis. A follow-up study. *Arch Orthop Trauma Surg* **115** : 255-261, 1996.
- 6) Rupprecht M, Spiro AS, Rueger JM et al : Temporary screw epiphyseodesis of the distal tibia: a therapeutic option for ankle valgus in patients with hereditary multiple exostosis. *J Pediatr Orthop* **31** : 89-94, 2011.
- 7) Rupprecht M, Spiro AS, Schlickewei C et al : Rebound of ankle valgus deformity in patients with hereditary multiple exostosis. *J Pediatr Orthop* **35** : 94-99, 2015.
- 8) 竹島憲一郎, 平石英一, 宇佐見則夫ほか : 著明な外反変形と疼痛のため手術を行った多発性外骨腫2例の治療経験. *日足外会誌* **33** : 75-78, 2012.
- 9) Takikawa K, Haga N, Tanaka H et al : Characteristic factors of ankle valgus with multiple cartilaginous exostoses. *J Pediatr Orthop* **28** : 761-765, 2008.
- 10) Taniguchi K : A practical classification system for multiple cartilaginous exostosis in children. *J Pediatr Orthop* **15** : 585-591, 1995.