

髓内釘とイリザロフ法を併用し治療した 年少先天性下腿偽関節症の2例

あいち小児保健医療総合センター 整形外科

澤村 健太・金子 浩史・岩田 浩志
北村 暁子・長田 侃・服部 義

要旨 神経線維腫症1型に伴う先天性下腿偽関節症に対して、脛骨髓内釘とイリザロフ法を併用した手術法を2例試みたので報告する。症例1は初診時11か月女児、Crawford Type II。1歳5か月時に転倒し右脛骨初回骨折、偽関節化した。5歳時に本法を行い、創外固定装着期間は135日で骨癒合を得た。術後5年経過時に脚長差5 mm、脛骨外反変形を認めるが現在まで再骨折なく経過している。症例2は初診時4か月女児、Crawford Type IV。5歳時に同手術を行ったが骨癒合は得られなかった。その後、健側から血管柄付腓骨移植術、さらに腸骨から自家骨移植術を追加して骨癒合が得られた。先天性下腿偽関節症は複数回の手術が必要となることが多く、年少例では追加手術も考慮した治療戦略を検討する必要がある。本法は手技が比較的簡便でそれぞれの特徴を補完した方法であり、他部位への侵襲が少ない。また、血管柄付腓骨移植術など追加手術への移行も可能であった。

はじめに

先天性下腿偽関節症(Congenital Pseudarthrosis of the Tibia: 以下, CPT)の治療は非常に難渋する。これまで髓内釘, 創外固定, 血管柄付腓骨移植などさまざまな手術法が報告されているが、いまだに確立された方法はない。今回、神経線維腫症1型(Neurofibromatosis Type 1: 以下, NF1)に伴う先天性下腿偽関節症に対して、髓内釘とイリザロフ法を併用施行した2例を経験したので報告する。

症例

症例1(図1)は、前医初診時に生後11か月の女児。NF1に伴うCPT, Crawford分類⁴⁾Type IIであった。1歳5か月時に転倒し右脛骨を初回骨

折し、ギプス固定された。受傷後2か月で偽関節となり、当院紹介受診となった。短下肢装具装着を続けていたが、脛骨は偽関節のまま短縮し、脚長差は25 mmになり内反変形が進行したため、5歳9か月時に初回手術を行った。手術は脛骨偽関節部の搔爬と外反腓骨の部分切除および切除した腓骨の脛骨偽関節部への移植を施行した。髓腔最狭部を通過し、上下のイリザロフワイヤーの挿入を妨げない径として採用した2.4 mm径のキルシュナー鋼線1本を脛骨髓内に留置し、偽関節部の上下にイリザロフ創外固定器を設置し圧着固定した。骨短縮量は10 mm程度であった。術直後から全荷重歩行を許可した。経過中、鋼線刺入部に感染徴候を認めたが、抗生剤内服投与で軽快した。低出力超音波パルス(以下, LIPUS)を併用し、創外固定装着期間は135日間で脛骨の骨癒

Key words : congenital pseudarthrosis of the tibia(先天性下腿偽関節症), Ilizarov technique(イリザロフ法), intramedullary rodding(髓内釘)

連絡先 : 〒474-8710 愛知県大府市森岡町七丁目426番地 あいち小児保健医療総合センター 整形外科 澤村健太
電話(0562)43-0500

受付日 : 2018年1月30日

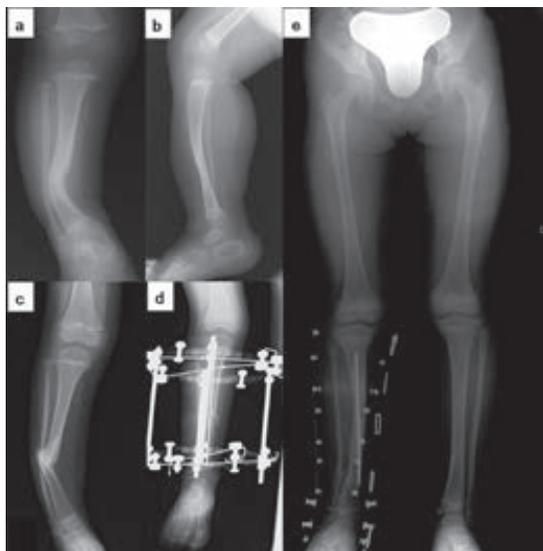


図1. 症例1単純X線

- a: 初診時(正面像)
- b: 初診時(側面像)
- c: 術前
- d: 術後
- e: 最終観察時 両下肢全長像

合を得た。創外固定除去後は4週間のギプス固定後に短下肢装具とした。術後1年でLIPUSは終了し、再骨折予防のため短下肢装具を継続した。最終観察時(術後5年, 10歳9か月), 脚長差が5mmで脛腓骨の外反変形を認めるが、再骨折なく経過している。今後、脚長差および外反変形の矯正を検討している。

症例2(図2)は、初診時4か月の女兒。NF1に伴うCPT, Crawford分類Type IVであった。左脛骨は先天性の偽関節で1歳時に腓骨骨折し、脛・腓骨とも偽関節となり外後方凸変形していた。5歳6か月時に初回手術を行った。脛骨および腓骨偽関節部の搔爬と、搔爬した骨の脛骨偽関節部への移植を施行し、2.4mm径のキルシュナー鋼線1本を脛骨髓内に留置し、偽関節部の上下にイリザロフ創外固定器を設置し圧着固定した。骨短縮量は10mm程度であった。術後LIPUSを併用したが骨癒合は得られず、骨吸収が進行した。術後119日目に創外固定を除去した。創外固定除去後も髓内釘の留置は継続したが、骨癒合は得られなかった。術後2年目に髓内釘を抜去した。その

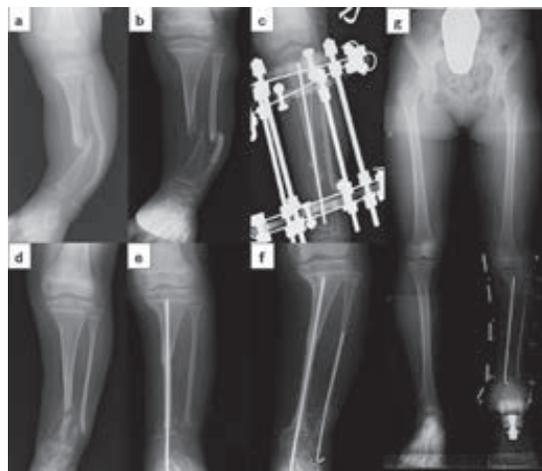


図2. 症例2単純X線

- a: 初診時 左下腿正面像
- b: 初回手術(脛骨髓内釘とイリザロフ法) 術前
- c: 初回手術 術後
- d: 2回目手術(脛骨髓内釘と血管柄付腓骨移植術) 術前
- e: 3回目手術(脛骨および腓骨偽関節部の搔爬, 腸骨から骨移植, 腓骨髓内釘) 術前
- f: 脛骨および腓骨骨癒合時
- g: 最終観察時 両下肢全長像

後はPTB長下肢装具を使用した。10歳7か月時(初回術後5年1か月), 脚長差は68mmまで拡大し、健側からの血管柄付腓骨移植術および3.0mm径のキルシュナー鋼線1本を用いた脛骨髓内釘固定術を追加施行した。3か月後、移植近位部の骨癒合は得られたが、遠位部の骨癒合は得られなかった。11歳1か月時(初回術後5年7か月), 脛骨遠位および腓骨の偽関節部の搔爬, 腸骨からの自家骨移植, 1.5mm径のキルシュナー鋼線1本を用いた腓骨髓内釘固定を追加した。7週間のギプス固定後、PTB装具を使用した。徐々に荷重を許可し、4か月後(11歳5か月), 両骨の骨癒合が得られた。最終観察時(初回術後6年1か月)11歳7か月, 短下肢装具にて全荷重歩行が可能であり、再骨折はないが約110mmの脚長差が残存している。

考 察

CPTでは下腿骨が骨折するとギプス固定などの保存療法による骨癒合が期待できないため、手

術治療が必要となる。そのため、確定診断後は未骨折例では幼少期から装具を使用し、骨折および骨折後の偽関節化を予防することが重要である。骨折前に気づかれていないことがあるため、特にNF1患者の脛骨骨折ではCPTを念頭に置く必要がある³⁾。また、いったん骨癒合が得られても再骨折が生じ再度偽関節化したり、変形や脚長不等などの二次性変化が問題となり、複数回の手術が必要となることが多く、年少例では追加手術を考慮した治療戦略を検討する必要がある。我々は初回手術として脛骨髓内釘固定とイリザロフ法を併用施行した2例を報告した。年少例の先天性下腿偽関節症に対して、初回手術として髓内釘とイリザロフ法を同時に行った報告は渉猟し得る範囲では見当たらない。今回の2例のうち1例は本法のみで骨癒合を得たが、もう1例は追加手術を必要とした。

CPTに対する髓内釘を使用した治療について、Andersonらは髓内釘に骨移植を併用し10例中9例で骨癒合を得ることができ、CPTに対する髓内釘固定の有用性を述べている。しかし、髓内釘挿入中でも足関節の外反変形を来すことがあり、脛骨外側の成長が遅いため変形が生じやすいと述べている¹⁾。また、山田らはキルシュナー鋼線などを用いた髓内釘固定では髓内血流が障害されること、髓内釘が折損する可能性があることを報告している¹⁰⁾。

一方、CPTに対するイリザロフ法の治療成績としては、Paleyらをはじめ、高い骨癒合率が報告されているが、骨癒合後の再骨折や変形の出現による再手術例も少なくない⁷⁾。また、近年はChoiらによる4-in-1 osteosynthesisの高い治療成績が国内でも報告されている²⁾⁸⁾。イリザロフ法のデメリットとしては、小児の短い下腿では創外固定器の装着が困難な場合がある点、長期の固定では感染が問題となる点、固定除去後に再骨折の可能性のある点が挙げられる。

2000年に報告されたEuropean Paediatric Orthopaedic Societyの多施設研究によると、CPTの治療は血管柄付腓骨移植術またはイリザロフ法

の二つが手術治療の主流となってきたが、イリザロフ法は骨癒合率だけでなく、変形矯正、脚長補正、関節機能温存の点で血管柄付腓骨移植術より勝っていた。しかし、「イリザロフ法でも骨癒合率は75.5%であり、決して満足できるものではなかった」と記載されている⁵⁾。日本でも多施設研究が行われており、骨癒合率は血管柄付腓骨移植術(74%)よりもイリザロフ法(84%)がやや高く、特に病巣搔爬に伴う骨欠損が大きい場合には、骨延長が同時に可能なイリザロフ法が推奨されている⁶⁾。

症例1の反省点としては、乳児期に診断されていたが装具による骨折予防がされておらず、幼少期に骨折し、偽関節化を来したことが挙げられる。幼少期装具の使用を徹底すべきと考える。また、骨癒合は得られたが下腿の外反変形が遺残している。本症例では腓骨が偽関節のままであり、脛骨の正しい骨軸成長には腓骨の存在による外側支柱効果が重要といわれており⁹⁾、腓骨の骨癒合も目指した治療戦略が必要だったと考える。

症例2では、初回手術での骨癒合が得られなかった。原因として、偽関節部が当初より遠位に移動しており、初回手術時の病巣搔爬が不十分だった可能性がある。徹底的な病巣切除のためには、MRIなどによる病巣範囲の十分な評価が必要であったと考える。また、最終的には骨癒合が得られたが、大きな脚長差が生じてしまった。2回目手術までに脚長差は拡大しており、適切な時期での追加治療によっては脚長差の拡大を防げた可能性はある。

以上の反省点はあるが、髓内釘固定とイリザロフ法を併用した本術式は、手技が比較的簡便でそれぞれの手術法の特徴を補完した方法であり、他部位への侵襲も少ない。また、初回手術で癒合せずとも血管柄付腓骨移植など追加手術が可能であり、CPT年少例の初回手術の選択肢の一つと考える。

文献

- 1) Anderson DJ, Schoenecker PL, Sheridan JJ et

- al : Use of an intramedullary rod for the treatment of congenital pseudarthrosis of the tibia. *J Bone Joint Surg* **74A** : 161-168, 1992.
- 2) Choi IH, Lee SJ, Moon HJ et al : "4-in-1 osteosynthesis" for atrophic-type congenital pseudarthrosis of the tibia. *J Pediatr Orthop* **31** : 697-704, 2011.
 - 3) Courtney O, James F, Ryan M et al : Congenital pseudarthrosis of the tibia. *JBJS reviews* **5**(4) : e3, 2017.
 - 4) Crawford AH : Neurofibromatosis in children. *Acta Orthop Scand Suppl* **218** : 1-60, 1986.
 - 5) Grill F, Bollini G, Dungal P et al : Treatment approaches for congenital pseudarthrosis of tibia : Results of the EPOS multicenter study. *J Pediatr Orthop* **B9** : 75-89, 2000.
 - 6) Ohnishi I, Sato W, Matsuyama J et al : Treatment of congenital pseudarthrosis of the tibia : A multicenter study in Japan. *J Pediatr Orthop* **25** : 219-224, 2005.
 - 7) Paley D, Catagni M, Argnani F et al : Treatment of congenital pseudarthrosis of the tibia using Ilizarov technique. *Clin Orthop Relat Res* **280** : 81-93, 1992.
 - 8) 佐藤祐介, 西須 孝, 瀬川裕子ほか : 創外固定器を用いた先天性下腿偽関節症の治療経験—4-in-1 Osteosynthesisを導入して—。日創外固定骨延長会誌 **26** : 133-139, 2015.
 - 9) 高橋光彦, 川崎賀照, 高砂智哉ほか : 先天性下腿偽関節症の治療戦略。日整会誌 **87** : 32-37, 2013.
 - 10) 山田博信, 佐藤雅人, 角野隆信ほか : 先天性下腿偽関節症の検討。日小整会誌 **15** : 10-14, 2006.