

# 日本小児整形外科学会雑誌

Journal of Japanese Pediatric Orthopaedic Association

Vol. 27 No. 2





理事長挨拶(大谷卓也)

第 27 回学術集会 発表論文

發育性股関節形成不全における漸次的整復時の MRI 所見と

その後の臼蓋發育との関連…………… 金子浩史 ほか…217

脚長差に対する骨端線抑制術の治療成績 ステープルとエイトプレート

…………… 古橋弘基 ほか…222

第 28 回学術集会 発表論文

先天性多発性関節拘縮症に伴う先天性内反足の治療成績

…………… 町田治郎 ほか…228

当院における Graf 法検診への取り組み …………… 村上悠人 ほか…233

二つの創外固定器を用いて橈骨仮骨延長を施行した

小児橈骨遠位骨端線損傷後早期骨端線閉鎖の 1 例… 橋本将吾 ほか…237

ハイドロキシアパタイトブロックを使用した

Pemberton 骨盤骨切り術の治療成績 …………… 松田蓉子 ほか…241

当院における重度心身障害児に対する ITB 療法の治療経験

…………… 金城 健 ほか…246

二分脊椎における膝関節屈曲拘縮に対しエイトプレートを用いた

前方骨端線發育抑制術を行った 3 例の検討…………… 畑野美穂子 ほか…251

当院における DDH に対する overhead traction 法の短期治療成績

…………… 西山正紀 ほか…254

小児の筋電義手の訓練と公費支給に至るまでの課題を考える

…………… 山本和華 ほか…259

小児外反扁平足に対する距骨下関節制動術…………… 岡 佳伸 ほか…263

麻痺性の股関節・膝関節屈曲拘縮に対する広範囲観血的拘縮解離手術

…………… 名倉温雄 ほか…267

エイトプレートを用いた骨端成長軟骨發育抑制術の治療成績

…………… 杉田 健 ほか…273

3次元歩行解析に基づく Gait Profile Score を用いた

脳性麻痺児尖足歩行に対する手術治療の効果判定… 房川祐頼 ほか…277

DDH に対して RB で確実に整復される治療開始時期… 渡邊研二 ……282

幼少期股関節 MRI による primary acetabular dysplasia の予測 .....	野村一世	ほか	287
環軸関節回旋位固定に対する持続牽引治療.....	日下部浩	ほか	291
浜松市の乳児股関節健診の再構築と小児科医からの評価 .....	古橋弘基	ほか	295
腫舟状骨癒合症を伴う高度な内反凹尖足変形の2例... 水野稚香	ほか	299	
思春期まで経過観察したインヒビター陽性血友病 A3 例の 滑膜切除術の成績.....	橘 亮太	ほか	302
乳児股関節健診で見られる寛骨臼形成不全の経過とその特徴 .....	杉浦香織	ほか	307

## 自由投稿

重症心身障害児(者)の骨代謝マーカーおよび 超音波骨密度測定による骨脆弱性の評価.....	平島淑子	.....	311
軟骨低形成症の粗大運動発達や特徴に関する調査... 矢吹さゆみ	ほか	315	
腓骨列形成不全 type II の治療と長期経過 ..... 田中紗代	ほか	319	
下肢奇形を合併した VACTERL 連合の3例 ..... 西村淑子	ほか	323	
日本人健康男児における上肢、下肢の筋量発育..... 鳥居 俊	.....	328	
小・中学生男子サッカー選手における Sever 病の有病率... 鳥居 俊	.....	331	
2017 年度 Iwamoto-Fujii Ambassador 帰朝報告 ..... 門内一郎	.....	334	
2018 年度 Iwamoto-Fujii Ambassador 帰朝報告 ..... 藤田裕樹	.....	338	

### 複写をご希望の方へ

一般社団法人 日本小児整形外科学会は、本誌掲載著作物の複写に関する権利を一般社団法人学術著作権協会に委託しております。

本誌に掲載された著作物の複写をご希望の方は、(社)学術著作権協会より許諾を受けて下さい。但し、企業等法人による社内利用目的の複写については、当該企業等法人が社団法人日本複写権センター((社)学術著作権協会が社内利用目的複写に関する権利を再委託している団体)と包括複写許諾契約を締結している場合にあつては、その必要はございません(社外頒布目的の複写については、許諾が必要です)。

権利委託先 一般社団法人学術著作権協会  
〒107-0052 東京都港区赤坂 9-6-41 乃木坂ビル 3F  
FAX : 03-3475-5619 E-mail : info@jaacc.jp

複写以外の許諾(著作物の引用、転載、翻訳等)に関しては、(社)学術著作権協会に委託致しておりません。直接、日本小児整形外科学会 電話(03)5803-7071, FAX(03)5803-7072, E-mail : jpoa@jpoa.org へお問い合わせください

### Reprographic Reproduction outside Japan

Making a copy of this publication

Please obtain permission from the following Reproduction Rights Organizations(RROs)to which the copyright holder has consigned the management of the copyright regarding reprographic reproduction.

Obtaining permission to quote, reproduce ; translate, etc.

Please contact the copyright holder directly.

→Users in countries and regions where there is a local RRO under bilateral contract with Japan Academic Association for Copyright Clearance(JAACC)  
Users in countries and regions of which RROs are listed on the following website are requested to contact the respective RROs directly to obtain permission.

Japan Academic Association for Copyright Clearance(JAACC)

Address 9-6-41 Akasaka, Minato-ku, Tokyo 107-0052 Japan

Website <http://www.jaacc.jp/>

E-mail info@jaacc.jp Fax : +81-33475-5619

## 就任挨拶

一般社団法人 日本小児整形外科学会理事長  
(慈恵医大第三病院整形外科 教授)

大谷卓也



2018年(平成30年)12月より、日本小児整形外科学会の第4代理事長に就任いたしました。どうぞよろしくお願いたします。

本学会は、1990年(平成2年)に、小児の整形外科学、すなわち子どもたちが元気に走り回り、活発に活動できるための運動器の健康を考えることを目的として設立されました。「子どもの元気を支える」という大切な目標からか、本学会の会員は非常に真面目で問題意識が高く、また団結力が強いという印象を持っております。その本学会が、2018年(平成30年)2月に、一般社団法人として新たなスタートを切ることとなりました。私を含めて学会全体がひとつになり、学会のさらなる発展のために全力で頑張る時であると、決意を新たにしている次第です。

一方で、直面する課題も少なくはありません。法人化により学会の社会的なステータス向上を期待できますが、そのためには学会自体がそれに見合うだけの進歩を遂げることが前提条件となります。学会の構造、運営、活動内容や会員の意識など、これから短期間のうちに本質的な改革を実現していく必要があります。

医学教育や医療構造における小児整形外科のステータスはどうか。わが国は少子高齢化の大きな波の中にあり、子どもの絶対数が減少しつつあることは事実です。日本の将来を担う子どもたちの医療の重要性はいつの時代にも変わるはずはありませんが、油断していると子どもへの意識は徐々に薄れてしまうかもしれません。小児整形外科の重要性や魅力をより積極的にアピールし、また、自らを活性化するための方策をしっかりと考え実行していくことも重要です。

私ども、日本小児整形外科学会のこれからのテーマは、広い視野と高い意識、そして強い団結力をもって、日本の子どもたちの運動器の健康を支え、病気とその治療を研究していくことだと考えております。

平成30年12月14日



# 発育性股関節形成不全における漸次的整復時の MRI 所見と その後の臼蓋発育との関連

あいち小児保健医療総合センター 整形外科

金子 浩 史・岩 田 浩 志・古 橋 弘 基  
長 田 侃・服 部 義

**要 旨** 【目的】発育性股関節形成不全における脱臼整復時の関節内介在物の MRI 所見と 5~6 歳時の臼蓋形成不全との関連を検討すること。【対象と方法】2008~2013 年、オーバーヘッド牽引にて漸次的整復後、整復時(開排位ギプス固定時)と 1 か月後(ギプス終了時)に MRI を撮像し 5 歳以上まで観察した 34 関節を対象とし、T2 強調像の冠状断と水平断における大腿骨頭臼蓋間距離、円靭帯の厚み、上方・前方・後方関節唇の形態異常を後ろ向きに評価した。5~6 歳時の X 線像にて臼蓋角  $\geq 30^\circ$  または CE 角  $\leq 5^\circ$  を臼蓋発育不良と定義し、不良群(21 関節)・良好群(13 関節)の 2 群に分け、各項目について比較した。【結果】評価項目のいずれにおいても 2 群間で差はなかった。介在物は整復時に高頻度に認められたが、1 か月後に消褪傾向にあり、5~6 歳時の臼蓋形成不全との関連はなかった。【結論】整復時の関節内介在物の MRI 所見から 5~6 歳時の臼蓋形成不全を予測することは難しい。

## はじめに

発育性股関節形成不全(DDH)において、脱臼整復後に良好な臼蓋発育がみられる症例が存在する一方で、臼蓋形成不全が遺残する症例も散見される<sup>1)</sup>。大腿骨頭の側方化を伴う関節適合性の不良が原因の一つと考えられており、関節内介在物は大腿骨頭の求心性を妨げる因子として重要である<sup>2)6)</sup>。

当施設では、生後 6 か月までに DDH(脱臼)と診断されリーメンビューゲル装具を試みて整復困難であった症例および生後 7 か月~3 歳の診断遅延例に対して、オーバーヘッド牽引(Overhead Traction: 以下、OHT)を用いた漸次的整復法を試みている。後療法として、開排位ギプス固定を 5 週間、続けて可変式股開排装具を 4 週ごとに 3

回形を変えて 12 週間継続している<sup>3)</sup>。過去に関連施設における OHT 整復例の長期成績を調査し、64%に臼蓋形成不全が遺残したことを報告した<sup>5)</sup>。また、整復後の経時的 MRI 評価を行い、寛骨臼に対する大腿骨頭の沈み込み(求心性の改善)と関節内介在物の正常形態化が後療法の経過中に多くの症例で観察されたことを最近報告した<sup>4)</sup>。しかし、OHT による整復時に観察される関節内介在物が、その後の臼蓋発育に影響するかどうかは十分に解明されていない。

本研究の目的は、整復時の関節内介在物の MRI 所見と 5~6 歳時の臼蓋形成不全との関連を検討することである。

## 対象と方法

2008~2013 年に OHT により股関節脱臼を整

**Key words** : developmental dysplasia of the hip (発育性股関節形成不全), gradual reduction (漸次的整復法), MRI (MRI), acetabular development (臼蓋発育)

**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 金子浩史  
電話 (0562)43-0500

**受付日** : 2018 年 3 月 6 日

復した DDH 58 例を当施設の倫理委員会の承認を得て後ろ向きに検討した。整復時(開排位ギプス開始時)と1か月後(ギプス終了時)に鎮静下に股関節 MRI を撮像した。鎮静不可などの理由で MRI を2回撮像できなかった16例を除外した。

また、治療前および経過中に奇形性および麻痺性疾患が明らかとなった5例も除外した。残り37例のうち、5歳以上まで観察した33例(女31例、男2例)34関節を本研究に含めた。罹患側は右側8例、左側24例、両側1例であった。

診療録から整復時月齢を調査した。骨盤 X 線像を用いて整復前と5~6歳時の臼蓋角および5~6歳時の CE 角を計測した。Soucil の外側端を臼蓋外側縁の指標とした。また、整復後の大腿骨頭壊死を Kalamchi & MacEwen 分類(group II 以上)を用いて判定した。MRI T2 強調像冠状断の患側大腿骨頭中心を含むスライスを用いて、大腿骨頭臼蓋間距離(図1-a)を計測し、上方関節唇の形態異常(図2-a, b)の割合について調査した。

大腿骨頭臼蓋間距離は大腿骨頭の中心点から臼蓋底までの線上における大腿骨頭外縁と臼蓋底との距離と定義した(図1-a)。また、T2 強調像水平断の患側大腿骨頭中心を含むスライスを用いて、円靭帯の厚みの最大値(図1-b)を計測し、前方および後方関節唇の形態異常(図3-a, b)の割合について調査した。関節唇の形態異常の定義は、健側股関節(図2-c, 3-c)を参考に正常な形態ではないものとした。

我々は5~6歳時に臼蓋形成不全が遺残している症例に対する補正手術として、ソルター骨盤骨切り術を行っている<sup>5)</sup>。その適応基準(臼蓋角 $\geq 30^\circ$ または CE 角 $\leq 5^\circ$ )に該当した21関節を不良群、該当しなかった13関節を良好群とし、2群間で各項目について比較した。

統計処理は2群間の比較に Chi-squared test と Mann-Whitney U test を用い、MRI 評価項目の整復時と1か月後の比較に t-test と McNemar test を用い、 $p < 0.05$  を有意差ありとした。

## 結果

整復時月齢は、不良群が平均14.4か月(7~31か月)、良好群が平均13.3か月(8~33か月)であり、2群間で差はなかった。

整復前の臼蓋角は、不良群が平均 $41.2^\circ$ ( $27 \sim 49^\circ$ )、良好群が平均 $40.2^\circ$ ( $34 \sim 48^\circ$ )であり、2群間で差はなかった。

MRI 評価項目に関して表1に示す。大腿骨頭臼蓋間距離および円靭帯の厚みは、整復時から1か月後にかけて有意に減少していた(4.7 mm から 2.9 mm,  $p < 0.001$ ; 3.6 mm から 2.8 mm,  $p < 0.001$ )。また、上方・前方・後方の各関節唇の形態異常の割合も、整復時から1か月後にかけて有意に減少していた(100% から 79%,  $p = 0.023$ ; 94% から 35%,  $p < 0.001$ ; 74% から 32%,  $p < 0.001$ )。いずれの項目も2群間で差はなかった(表1)。

大腿骨頭壊死は Kalamchi & MacEwen 分類 group II と III を1関節ずつ認め、いずれも不良群に含まれていた。大腿骨頭臼蓋間距離は整復時がそれぞれ4.5 mm と 4.2 mm、1か月後が1.8 mm と 1.7 mm で、円靭帯の厚みは整復時が4.5 mm と 2 mm、1か月後が3 mm と 1.7 mm であった。関節唇の異常は整復時にいずれにも認めしたが、1か月後には前者の上方関節唇を除き、すべて正常化していた。

## 考察

DDH(脱臼)の初期治療の目的は、脱臼を整復し、寛骨臼に対する大腿骨頭の求心性を保つことによって、その後の臼蓋形態の改善を促すことである<sup>7)</sup>。この大腿骨頭の求心性を妨げる原因の一つとして、関節内介在物が挙げられる<sup>2)6)</sup>。本研究では OHT による漸次的整復時の関節内介在物を MRI にて評価し、5~6歳時の臼蓋形成不全の遺残との関連を検討したが、両者に明らかな関連はなかった。

本研究において、整復時に高頻度に認めた関節内介在物は1か月後には消退する傾向にあり、大

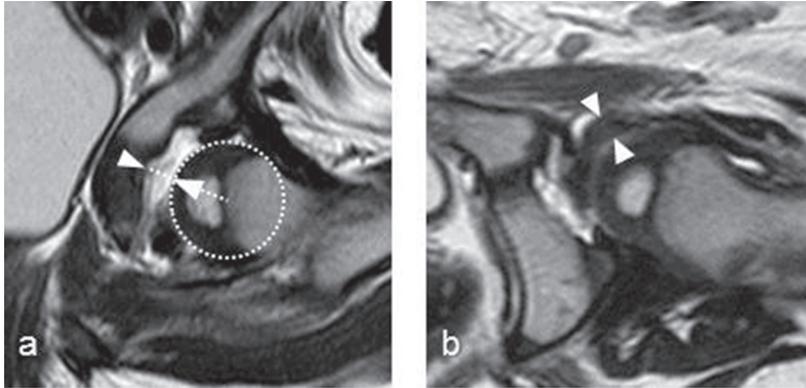


図 1. 大腿骨頭白蓋間距離と円靭帯, 左股関節 MRI T2 強調像  
 a: 冠状断, 矢頭が大腿骨頭白蓋間距離 (mm)  
 b: 水平断, 矢頭が円靭帯の厚み (mm)

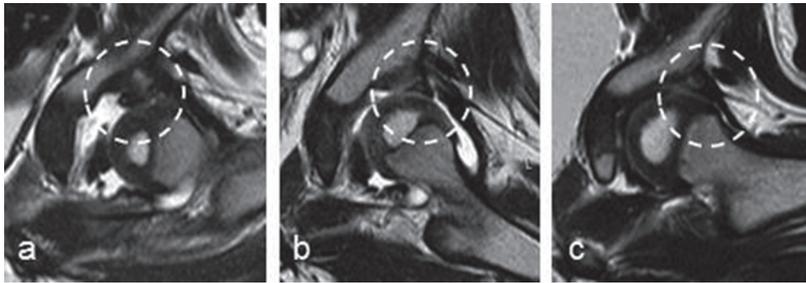


図 2. 上方関節唇, 左股関節 MRI T2 強調像 冠状断  
 a: 整復時, 形態異常と判定  
 b: 整復 1 か月後, 正常と判定  
 c: 他症例の健側股関節

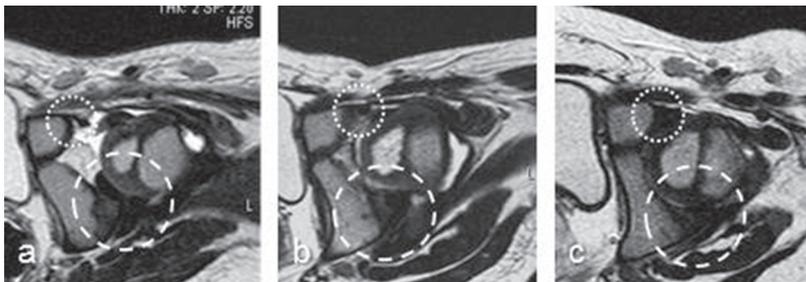


図 3. 前方関節唇(点線)と後方関節唇(破線), 左股関節 MRI T2 強調像 水平断  
 a: 整復時, いずれも形態異常と判定  
 b: 整復 1 か月後, いずれも正常と判定  
 c: 他症例の健側股関節

表 1. 股関節脱臼整復時の関節内介在物 MRI 所見における白蓋發育不良群と良好群の比較

MRI 評価項目	MRI	全体 (n=34)	不良群 (n=21)	良好群 (n=13)	p 値	
大腿骨頭白蓋間距離	整復時	4.7 mm (2.2~9.2 mm)	5.1 mm (2.2~9.2 mm)	4.2 mm (2.5~5.6 mm)	0.127	
	1 か月後	2.9 mm (0.4~8.9 mm)*	3.1 mm (0.8~8.9 mm)	2.6 mm (0.4~4.7 mm)	0.404	
円靭帯の厚み	整復時	3.6 mm (1.5~5.7 mm)	3.5 mm (1.5~5 mm)	3.9 mm (2.2~5.7 mm)	0.365	
	1 か月後	2.8 mm (0.8~4 mm)*	2.6 mm (0.8~4 mm)	3.1 mm (2~3.9 mm)	0.118	
関節唇の形態異常の割合	上方関節唇	整復時	100%	100%	100%	1.000
		1 か月後	79% **	81%	77%	0.778
	前方関節唇	整復時	94%	90%	100%	0.251
		1 か月後	35% *	38%	31%	0.664
	後方関節唇	整復時	74%	76%	69%	0.655
		1 か月後	32% *	29%	38%	0.549

整復時と 1 か月後の比較, \* p<0.001, \*\* p=0.023

腿骨頭の求心性も改善していた。我々は整復時の関節造影にて再脱臼しない安全領域を確認し、最も求心性の良い位置で開排位ギプス固定を行っている<sup>3)</sup>。大腿骨頭白蓋間距離が長く(図 2-a, 3-a)安全領域が狭い不安定な股関節をとくに経験することがあるため、後療法の第一段階には固定性を考慮して装具ではなくギプスを用いている。これにより求心性が改善し、安定した整復位が得られ、再脱臼の危険性が低くなるのではないかと考える。実際、関連施設における OHT 後の長期観察例 75 関節において整復後の再脱臼はなく<sup>5)</sup>、本研究の症例にも再脱臼は発生していない。

関節内介在物の外科的処置、すなわち観血的整復術の適応に関して、Mitani らは 1~2 歳の DDH 137 関節に対して 2 方向関節造影を行い、徒手整復時に前方または後方の関節唇が介在している症例において、観血的整復術が非観血的整復術より長期成績が優れていたと報告し、このような症例に対して観血的整復術を推奨している<sup>8)</sup>。一方、我々は OHT にて整復不可または整復位を保持できない症例を観血的整復術の適応としている。この見解の違いに関して、以下のことが考え

られる。徒手による急な整復では、関節包および関節外整復障害因子(周囲筋)の解除がされにくく整復位の保持が困難な場合があり、また、関節内介在物による大腿骨頭への急な圧力に伴う壊死も危惧される。そのため、外科的に介在物を排除した場合の結果が優れていたのではないかと考える。一方、漸次的整復では長期間の牽引により関節包および関節外整復障害因子が解除されることにより、寛骨臼入口部に整復された大腿骨頭はギプス固定にて保持されやすく、求心性の改善とともに介在物が消退していくのではないかと考える。また、整復時の介在物と 5~6 歳時の白蓋形成不全との関連がないことから、我々の OHT 治療体系において、整復時の関節内介在物の画像所見から観血的整復術の適応を判断することは時期尚早と考える。

本研究では、関節内介在物の評価に MRI を用いた。MRI は解像度が高く、複数の断層面での関節内介在物の詳細な評価が可能であり、病態を把握するために有用と考える。一方、Mitani らの 2 方向関節造影は介在する関節包の描出に優れており、機能撮影による評価も可能である。しか

し、関節内への造影剤注入には技術の習熟が必要であり、側面撮影時の生殖腺の放射線防護が難しいという問題もある。

我々は過去にOHTによる整復後10歳以上まで観察した181関節の整復時関節造影を用いて、関節内介在物と大腿骨頭壊死発生との間に関連がないことを報告した<sup>10)</sup>。本研究において大腿骨頭壊死を2関節に認めたと、関節内介在物が特に厚いわけではなく、他の症例と同様に消退もみられた。少なくともOHTによる漸次的整復の場合、両者に明らかな関連はないと考える。一方、大腿骨頭壊死は臼蓋形成を妨げる要因になり得る。Roposchらは非観血的または観血的整復術後に大腿骨頭壊死が発生した86関節と発生しなかった32関節の臼蓋角の経時的変化を比較し、前者の臼蓋角の改善が有意に乏しかったと報告している<sup>9)</sup>。本研究において、大腿骨頭壊死を発生した2関節は不良群に含まれており、Roposchらの報告に矛盾しない結果であった。

## 結 論

DDH(脱臼)において、OHTによる漸次的整復時に高頻度に見られる関節内介在物は消退することが多く、同時に大腿骨頭の求心性は改善する。また、整復時の関節内介在物のMRI所見から5~6歳時の臼蓋形成不全を予測することは難しい。

## 文献

1) Albinana J, Dolan LA, Spratt KF et al : Acetabular dysplasia after treatment for developmental dysplasia of the hip. Implication for secondary procedures. *J Bone Joint Surg Br* 86-B : 876-886, 2004.

- 2) Hattori T, Ono Y, Kitakoji T et al : Soft-tissue interposition after closed reduction in developmental dysplasia of the hip. The long-term effect on acetabular development and avascular necrosis. *J Bone Joint Surg Br* 81-B : 385-391, 1999.
- 3) 服部 義 : overhead traction 法. 先天性股関節脱臼の診断と治療(尾崎敏文ほか 編), メジカルビュー社, 東京, 52-63, 2014.
- 4) 服部 義 : 日本における發育性股関節形成不全(DDH)の過去と現在. 疫学と保存的整復の推移. *日整会誌* 90 : 473-479, 2016.
- 5) Kaneko H, Kitoh H, Mishima K et al : Long-term outcome of gradual reduction using overhead traction for developmental dysplasia of the hip over 6 months of age. *J Pediatr Orthop* 33 : 628-634, 2013.
- 6) Kim HT, Kim JI, Yoo CI : Acetabular development after closed reduction of developmental dislocation of the hip. *J Pediatr Orthop* 20 : 701-708, 2000.
- 7) Lindstrom JR, Ponseti IV, Wenger DR : Acetabular development after reduction in congenital dislocation of the hip. *J Bone Joint Surg Am* 61-A : 112-118, 1979.
- 8) Mitani S, Nakatsuka Y, Akazawa H et al : Treatment of developmental dislocation of the hip in children after walking age. Indications from two-directional arthrography. *J Bone Joint Surg Br* 79-B : 710-718, 1997.
- 9) Roposch A, Ridout D, Protopapa E et al : Osteonecrosis complicating developmental dysplasia of the hip compromises subsequent acetabular remodeling. *Clin Orthop Relat Res* 471 : 2318-2326, 2013.
- 10) 吉橋裕治, 田中哲司, 服部 義ら : overhead traction 法. *臨整外* 26 : 141-147, 1991.

## 脚長差に対する骨端線抑制術の治療成績 ステーブルとエイトプレート

あいち小児保健医療総合センター

古橋 弘基・金子 浩史・岩田 浩志  
長田 侃・服部 義

**要旨** 脚長補正に対する骨端線抑制術の成績を検討した。対象は当院で脚長不等に対して膝周囲に骨端線抑制術を行い、抜釘まで経過観察した33例(ステーブル11例(S群), エイトプレート18例(E群))とした。術前平均脚長差はS群29.9mm, E群19.6mmであった。挿入期間の平均はS群3年2か月, E群2年2か月であった。抜釘時補正量の平均はS群19.9mm, E群15.1mmで、治療効果不十分例はS群3例, E群5例あった。インプラント脱転はS群では5例あり再手術を要したが, E群ではなかった。インプラント挿入中の内外反変形はS群4例, E群1例あった。抜釘後の内外反変形は, E群はなかったが, S群は4例あった。骨端線早期閉鎖により過短縮となった例はS群で4例あった。ステーブルは手術効果が一定せず, 脱転や変形のリスクが高かった。エイトプレートは短期の経過観察であるが, 骨端線早期閉鎖による問題はなかった。

### はじめに

小児の脚長不等は骨延長術または骨端線抑制術により治療される。その適応については、いまだ議論がある。骨端線抑制術は、骨延長術と比較し、低侵襲で簡便であり、軽度～中度の脚長差に対して用いられている。

Phemister<sup>9)</sup>らがablationによる骨端線抑制術を報告し、その後、ステーブル<sup>1)</sup>やPercutaneous Epiphysiodesis using Transphyseal Screws (PETS)<sup>8)</sup>などインプラントを用いた術式が報告されてきた。近年、エイトプレートの使用報告が増加傾向にある<sup>11)12)</sup>。

本研究の目的は、当院で脚長不等に対してステーブルまたはエイトプレートを用いて骨端線抑制術を行った症例の治療成績について比較検討し、それぞれの特徴を検討することである。

### 対象

対象は2007年から2015年に当院で脚長不等に対して膝周囲に骨端線抑制術を行い、抜釘まで経過観察を行った33例とし、後ろ向き研究を行った。男児10例, 女児22例だった。2007～2011年にステーブルを用い手術をした11例をS群とし、2012年以降にエイトプレートを用い手術した22例をE群とした。抜釘は補正が予定量に達した場合、骨成長が終了した場合、長期留置となりインプラントの破損が危惧される場合に行った。

症例の内訳は、S群は特発性脚長不等が8例、症候性脚長不等が3例(先天性脛骨弯曲症1例, 内反足1例, 先天性股関節脱臼治療後1例)だった。E群は特発性片側肥大症が17例、症候性脚長不等が5例(非対称性脳性麻痺2例, ペルテス病1例, 先天性股関節脱臼治療後1例, 多発性外

**Key words** : temporary epiphysiodesis(骨端線抑制術), limb length discrepancy(脚長差), eight plate(エイトプレート), staple(ステーブル)

**連絡先** : 〒431-3192 静岡県浜松市東区半田山1-20-1 浜松医科大学 整形外科教室 古橋弘基 電話(053)435-2299  
**受付日** : 2017年12月31日

骨腫1例)だった。

エイトプレートの使用部位は、S群は大腿骨遠位内外側が11例だった。E群は大腿骨遠位内外側のみが18例あり、大腿骨遠位内外側と脛骨近位内外側を併用した症例が4例だった。

## 方 法

検討項目は各群の骨端線抑制術時年齢、インプラント挿入期間、術前・抜釘時・最終フォロー時の脚長差(Limb Length Discrepancy: 以下、LLD)、LLD補正量、抜釘後フォロー期間、骨端線抑制術から抜釘までと抜釘から最終フォローまでの合併症(補正不十分、インプラント脱転、内外反変形、過短縮)について調査した。

LLDの計測方法は、大腿骨頭頂部から脛骨天蓋の中央までの直線距離を下肢長として計測し、手術側の下肢長が長い場合を正とし、左右差をLLDとした。補正量は術前との比較を変化量とした。

骨端線抑制術から抜釘までの合併症として、LLD補正量が術前LLDの2/3以下だった例を補正不十分とした。インプラントの脱転により再手術を要した症例を脱転ありとした。術前のFTAから内反または外反変化が5°以上あった例を内外反変形ありとした。

抜釘時～最終フォロー時の合併症として、抜釘時のFTAから内反または外反変化が5°以上あった例を内外反変形ありとした。抜釘時から10mm以上手術側が短縮した例を過短縮ありとした。

## 結 果

S群の手術時年齢は平均9.5歳(7.2～12.2)、E群は平均9.7歳(6～13.8)であった。S群の術前LLDは平均29.9mm(17.2～50.2)、E群は平均19.6mm(7.2～37.1)でS群の術前LLDが大きかったが有意差はなかった。挿入期間はS群が3.2年(1.8～4.8)、E群が2.2年(0.9～3)とS群の挿入期間が有意に長期であった。抜釘時のLLDはS群が平均10.0mm(-6～27)、E群が平均4.9mm(-5～17.5)であった。抜釘時までのLLD補正量はS群が平均19.9mm(6.4～34.5)、E群が平均15.1mm(0～28.9)だった(表1)。

抜釘時までの補正量の推移を示す。S群に比べて、E群では補正の効果が出現するのに時間がかかる傾向にあり、術後半年の時点で補正効果が出ていない症例が散見された。LLD補正量が10mm以上得られた例を対象として、10mm以上のLLD補正が得られるまでの期間は、S群(6例)21か月に対して、E群(19例)は16か月であっ

表1. 各群の内訳

	S群 (N=11)	E群 (N=22)	p値
骨端線抑制術時年齢(y)	9.5 ± 1.8	9.7 ± 1.8	0.75
インプラント挿入期間(y)	3.2 ± 1.0	2.2 ± 0.6	<0.05
術前LLD (mm)	29.9 ± 9.3	19.6 ± 8.0	0.89
抜釘時LLD (mm)	10.0 ± 11.3	4.9 ± 7.1	0.12
補正量(mm)	19.9 ± 10.3	16.1 ± 8.1	0.28

Mann-Whitney U 検定

LLD, leg length discrepancy.

た。20 mm 以上得られた期間は S 群(6 例)36 か月, E 群(5 例)25 か月だった(図 1)。

抜釘までの合併症として補正不十分だった例は S 群で 3 例(27%), E 群で 5 例(23%)あった。インプラント脱転は S 群で 5 例(45%)あったが, E 群ではなかった。内外反変形があった例は S 群で 4 例(36%), E 群では 1 例(5%)だった。

抜釘後の経過観察期間は S 群平均 27 か月(6~60)だったのに対して, E 群は平均 10 か月(0~24)と短かった。抜釘後の合併症として, 内外反変形があった例は S 群で 4 例(36%)あったが, E 群ではなかった。過短縮を生じた例は S 群で 4 例(36%)あったが E 群ではなかった(表 2)。

症例を図 2 に示す。

### 考 察

Phemister ら<sup>9)</sup>が ablation による骨端線抑制術を初めて報告し, その後, 骨端線の可逆性を得るためにインプラントを使用した方法が報告され, ステープル<sup>1)</sup>, Percutaneous Epiphysiodesis using Transphyseal Screws(PETS)<sup>8)</sup>, エイトプレート<sup>11)12)</sup>が報告されている。低侵襲・簡便・骨端線へのリスクの低さからエイトプレートの使用報告が増加傾向にある。

ステープルとエイトプレートによる骨端線抑制術の治療成績の比較について, 過去にいくつかの

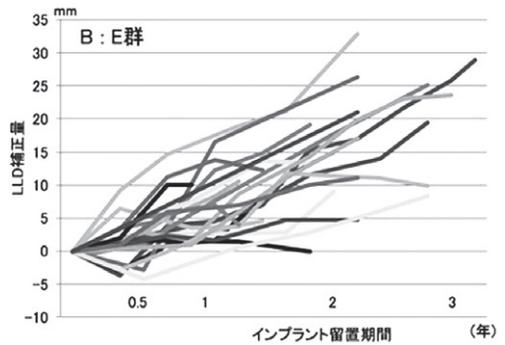
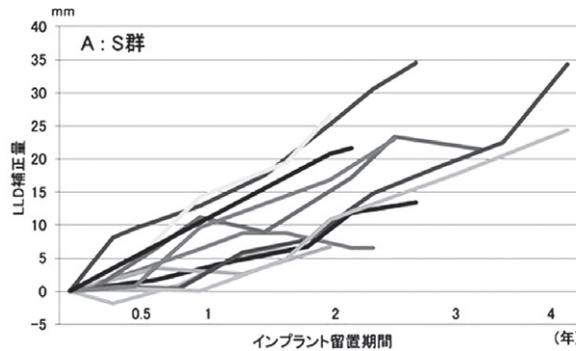


図 1. 各群のインプラント留置期間と補正量(A: S 群 B: E 群)

表 2. 各群における合併症の内訳

	S 群 (n = 11)	E 群 (n = 22)
抜釘後フォロー期間 (月)	27 (6-60)	10 (0-24)
補正不十分 (術前脚長差 LLD < 2/3)	27% 3例	23% 5例
骨端線抑制術～ 抜釘時		
インプラント脱転	45% 5例	0% 0例
内外反変形 (> 5°)	36% 4例	5% 1例
抜釘時～ 最終フォロー時		
過短縮 (> 10mm)	36% 4例	0% 0例

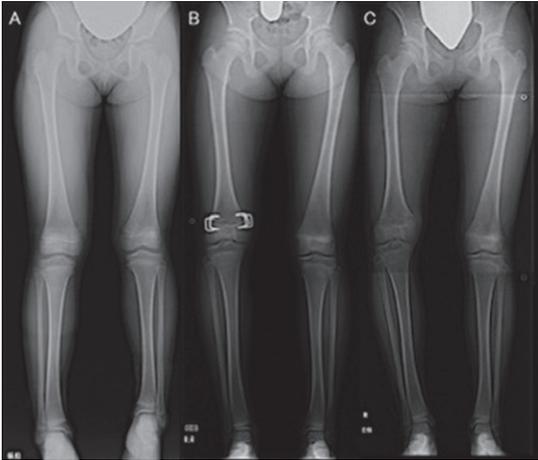


図2. 手術時7歳の女児. 右片側肥大症.

A: 術前 LLD は 32.5 mm であり, ステープルによる骨端線抑制術を行った.

B: LLD は術後 4.5 年で -2 mm と補正され, 抜釘した.

C: 抜釘後半年でステープルと骨端線の干渉による非対称性の骨端線早期閉鎖のため -10 mm の過短縮と内反膝変形が生じた.

報告がある. Goyeneche ら<sup>5)</sup>はウサギ 17 匹に対して下肢変形矯正を行い, エイトプレートはステープルより効果の発現が遅いと報告した. その後, 変形矯正に対する治療成績の報告で Wiemann ら<sup>14)</sup>はステープル 39 例とエイトプレート 24 例を, Gottliebsen ら<sup>4)</sup>はステープルとエイトプレート各 10 例を比較し, 同等の成績であったと報告した.

Lykissas ら<sup>6)</sup>は脚長差に対する PETS 22 例, ステープル 8 例, エイトプレート 9 例の成績を比較し, 有意な差はなかったことを報告しており, 過去の研究で, エイトプレートはステープルと比べ治療成績は変わりがないとされている.

本研究で, E 群は S 群に比べ術後半年での補正効果はない症例が多かった. 10 mm または 20 mm の補正効果が発現するまでに必要な期間は E 群の方が短い傾向にあり, 手術時から成長終了までに十分な期間があれば, エイトプレートは補正効果を得ることが可能である. しかし, 成長終了まで十分な期間がない症例には, 効果発現が早い手術法の選択することが好ましいと思われる.

Stewart ら<sup>13)</sup>はエイトプレート 11 例と ablation 16 例による手術成績の比較を行い, ablation の治療効果が良好であることを報告した. Makarov ら<sup>7)</sup>は 863 例の脚長不等の症例に対して, インプラントを用いず骨端線抑制術を行い, 合併症が生じた例は 60 例のみで, 過短縮を生じた例は 6 例 (0.7%) のみで, 最も多い合併症は角状変形 28 例 (3.3%) だったと報告した. Ablation やドリリングといった方法は, 可逆性がなく抑制時期の判断が難しいという点ではインプラントを用いた方法に劣るが成長終了まで期間が短い症例については適応となる可能性がある.

術後合併症として, インプラント脱転と骨端線早期閉鎖にはインプラント間に差があった. インプラントの脱転は治療効果を得るために再手術を要するだけでなく, 非対称性に生じると内外反変形を生じる. S 群ではインプラント脱転が 5/11 例 (45%) にあったが, E 群では脱転はなく, インプラント留置中の内外反変形は S 群より E 群で少なかった. エイトプレートは骨の把持力が強く脱転に関する再手術や変形が少なかった.

一方, 骨端線の早期閉鎖は対称性に生じれば過短縮を, 非対称性に生じれば角状変形の原因となる. 骨端線早期閉鎖について, Goff<sup>3)</sup>はステープルによる骨端線抑制術前後 120 例の生検を行い, 術後 44 か月未満であれば骨成長能の回復が見られるが, 49 か月を過ぎると閉鎖が生じると報告した. Cho ら<sup>2)</sup>はステープルによる角状変形の治療で 9 例中 1 例に術後 17 か月の抜釘例で早期閉鎖が生じたと報告した. Shin ら<sup>10)</sup>は術後 18 か月の抜釘例で早期閉鎖が生じたと報告した. 本研究では S 群で 11 例中 6 例に早期閉鎖があり, 平均 38 か月 (21~53 か月) で生じていた. 一方, エイトプレートでは経過観察期間は短いものの, 早期閉鎖の所見はなかった. エイトプレートで骨端線早期閉鎖が生じにくい要因として, スクリュー角度が開くことにより, インプラントと骨端線の損傷が生じないことと骨端線への圧がかかりにくいことが挙げられる. 骨端線抑制術では効果が発現する際に, 骨端線に対してインプラントが近位へ

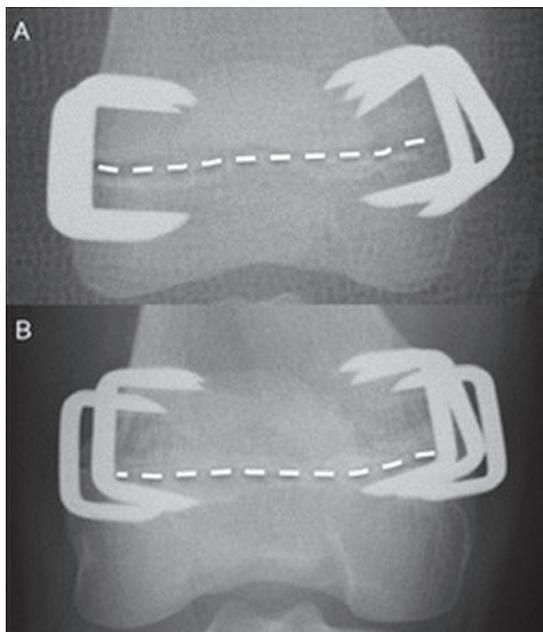


図3. 術直後から抜釘時までににおける骨端線とインプラントの位置関係(A:術直後 B:抜釘時). 術直後と比べて抜釘時には, インプラントが骨端線に対して近位に移動する.

と移動する(図3).

このため, インプラントと骨端線が干渉し, 損傷を生じることがある. エイトプレートではスクリュウの角度が開くため, 干渉が生じにくく損傷が生じにくかった. ステープルの症例の中には画像上で骨端線とインプラントの干渉がない例であっても早期閉鎖が生じることがあった. 強固な固定は早期から補正効果を得る一方で, 骨端線に過度の圧をかけ, 早期閉鎖を生じてしまうと推測される. ステープルにおいて, 留置期間や画像所見から骨端線早期閉鎖を防ぐことは困難である. 脱転や早期閉鎖を考えると, ステープルの使用はリスクが高かった.

骨端線抑制術の効果を得るには, 骨端線閉鎖まで十分な期間が必要であり, 特にエイトプレートではその期間が長期となる. 若年者に対する骨端線抑制術では, 骨端線の早期閉鎖を生じさせないことが好ましい. エイトプレートは現時点では骨端線へのリスクが低い方法であると思われるが, 本研究では低年齢の症例が少なく, 経過観察期間が短いことから引き続き長期の経過観察と症例数

の蓄積が必要である. また, 本研究では対象疾患がさまざまであり疾患ごとの研究が今後必要となると思われる.

## 結 語

ステープルとエイトプレートによる脚長補正に対する骨端線抑制術の治療成績について比較検討した. エイトプレートは治療効果の発現が遅かった. 合併症がステープルに多く, エイトプレートは少なかった.

## 文献

- 1) Blount WP, Clarke GR : Control of bone growth by epiphyseal stapling : a preliminary report. *J Bone Joint Surg Am* **31** : 464-478, 2014.
- 2) Cho TJ, Choi IH, Chung CY et al : Hemiepiphyseal stapling for angular deformity correction around the knee joint in children with multiple epiphyseal dysplasia. *J Pediatr Orthop* **29** : 52-56, 2009.
- 3) Goff CW : Histologic arrangements from biopsies of epiphyseal plates of children before and after stapling. Correlated with roentgenographic studies. *Am J Orthop* **9** : 87-89, 1967.
- 4) Gottlibesen M, Rahbek O, Hvid I et al : Hemiepiphysiodesis-similar treatment time for tension-band plating and for stapling. *Acta Orthopaedica* **84** : 202-206, 2013.
- 5) Goyeneche RA, Primomo CE, Lamert N et al : Correction of bone angular deformities : experimental analysis of staples versus 8-plate. *J Pediatr Orthop* **29** : 736-740, 2009.
- 6) Lykissas MG, Jain VV, Manickam V et al : Guided growth for the treatment of limb length discrepancy : a comparative study of the three most commonly used surgical techniques. *J Pediatr Orthop B* **22** : 311-317, 2013.
- 7) Makarov MR, Dunn SH, Singer DE et al : Complications associated with epiphysiodesis for management of leg length discrepancy. *J Pediatr Orthop* **19** : 2016.
- 8) Metaizeau JP, Wong-Chung J, Bertrand H et al : Percutaneous Epiphysiodesis Using Transphyseal Screws (PETS). *J Pediatr Orthop* **18** : 363-369, 1998.
- 9) Phemister DB : Epiphysiodesis for equalizing

- the length of the lower extremities and for correcting other deformities of the skeleton. *Mem Acad Chir (Paris)* **76** : 758-763, 1950.
- 10) Shin SJ, Cho TJ, Park MS et al : Angular deformity correction by asymmetrical physeal suppression in growing children : stapling versus percutaneous transphyseal screw. *J Pediatr Orthop* **30** : 588-593, 2010.
  - 11) Stevens PM : Guided growth for angular correction : a preliminary series using a tension bend plate. *J Pediatr Orthop* **27** : 253-259, 2007.
  - 12) Stevens PM : The role of guided growth as it relates to limb lengthening. *J Child Orthop* **10** : 479-486, 2016.
  - 13) Stewart D, Cheema A, Szalay EA : Dual 8-plate technique is not as effective as ablation For epiphysiodesis about the knee *J Pediatr Orthop* **33** : 843-846, 2013.
  - 14) Wiemann JM, Tryon C, Szalay EA : Physeal stapling versus 8-plate hemiepiphysiodesis for guided correction of angular deformity about the knee. *J Pediatr Orthop* **29** : 481-485, 2009.

# 先天性多発性関節拘縮症に伴う先天性内反足の治療成績

神奈川県立こども医療センター 整形外科

町田 治郎・中村 直行・百瀬 たか子  
赤松 智隆・松田 蓉子・秋山 豪介

**要旨** 先天性多発性関節拘縮症に伴う先天性内反足の治療成績について報告する。対象は17例(男11, 女6), 30足であった。最終的な手術方法は、アキレス腱切腱のみ1足, 後内側解離7足, 後内側解離とエバンス手術5足, 距骨摘出術17足であった。手術時年齢は平均2.5歳, 術後経過期間は平均8年であった。調査時の臨床成績は, 以下の二分脊椎足の評価法に準じた。優: 足関節はほぼ中間位で胼胝形成なし, 良: 軽度内外反があるが, 足底挿板で制御可能で褥瘡形成なし, 可: 短下肢装具は必要だが, 褥瘡形成なし, 不可: 装具装着困難な変形残存または褥瘡形成あり。調査時のHoffer分類では, Community Ambulator 10例, Household Ambulator 2例, Non-Functional Ambulator 4例, Non-Ambulator 1例であった。臨床評価では, 優4足, 良4, 可21, 不可1で疼痛を有する例はなかった。

## 目的

先天性多発性関節拘縮症(Arthrogyposis Multiplex Congenita: 以下, AMC)に伴う先天性内反足の治療には難渋することが多い。今回, その手術治療成績について報告する。

## 対象と方法

2002年から2015年までの間に広義のAMCに伴う先天性内反足に対して手術を施行した17例(男11, 女6), 30足を対象とした。広義のAMCとは, 四肢の関節拘縮のみのもののほかに他の奇形を伴うものと, 神経筋の異常に中枢神経系の障害や知能障害を伴うものとした。ただし, 二分脊椎は除外した。診断は, 古典型多発性関節拘縮症(classic AMC) 12例, Larsen syndrome, Moebius syndrome, 染色体異常, 裂脳症, 馬尾退行症候群が各1例であった。手術方法は, アキ

レス腱切腱2足, 後内側解離(Postero-Medial Release: 以下, PMR)7足, PMRとエバンス手術(踵立方関節固定術)4足, 距骨摘出術17足であった。症例2の左足のみ6歳時に追加手術として, PMRとエバンス手術を施行した(表1)。

足部の広範な手術を行う際には, まず後方解離術を行い, それでも背屈が $-30^{\circ}$ 以下で足底接地可能な矯正が得られない場合に距骨摘出術とエバンス手術を行った。後方解離術は, アキレス腱, 後脛骨筋腱のZ切離, 足関節後方解離, 踵腓靭帯と後距腓靭帯切離を行った<sup>4)</sup>。後方解離術で背屈が $0^{\circ}$ 以上に達したものは, PMR<sup>5)</sup>を施行した。その際になるべく再手術を避けるため, 前足部内転が残存する場合には, エバンス手術を追加した。踵立方関節の骨癒合を得るためには4歳以上が望ましいが, 2~4歳でも変形矯正のために必要な例があった(症例4)。手術時年齢は平均2.5歳(生後9か月から6歳), 術後経過期間は平均8

**Key words** : arthrogyposis multiplex congenita (先天性多発性関節拘縮症), children (小児), clubfoot (先天性内反足), posteromedial release (後内側解離), talectomy (距骨摘出術)

**連絡先** : 〒 232-8555 神奈川県横浜市南区六ツ川 2-138-4 神奈川県立こども医療センター 町田治郎  
電話(045)711-2351

**受付日** : 2018年5月19日

表 1. 先天性多発性関節拘縮症に伴う先天性内反足に手術を施行した症例の一覧

症例	性別	手術年齢 (歳)	左右	診断名	術後 (年)	手術方法	合併奇形	歩行	評価	背屈 (°)	底屈 (°)
1	女	2	左	AMC	14	距摘	右膝, 右股, 左大腿	CA	可	-10	
2	男	0	右	AMC	12	ア腱切離	両肩, 肘, 手	CA	優	10	70
	男	0	左		12	同上 ※	両肩, 肘, 手		優	20	40
3	女	1	右	AMC	11	距摘	脊柱, 手	CA	可	-25	
	女	1	左		11	距摘	脊柱, 手		可	-25	
4	男	2	右	AMC	11	EVP	両肩, 肘, 脊柱	CA	可	-10	15
	男	2	左		11	EVP	両肩, 肘, 脊柱		良	0	10
5	女	4	右	Moebius	10	距摘	MR, 多発奇形	CA	可	10	
	女	4	左		10	距摘	MR, 多発奇形		可	10	
6	女	2	右	Larsen	10	距摘	脊柱・両反張膝	NA	可	-30	
	女	2	左		10	距摘	脊柱・両反張膝		不可	前足部壊死	
7	男	2	右	染色体	9	距摘	MR, 多発奇形	CA	可	10	
8	男	2	右	AMC	9	距摘	両上肢麻痺	HA	可	10	
	男	2	左		9	距摘	両上肢麻痺		可	10	
9	男	6	右	AMC	8	EVP	両股, 脊柱	HA	可	0	20
	男	6	左		8	EVP	両股, 脊柱		可	-10	20
10	男	1	左	AMC	8	PMR	左反張膝, 手, 脊柱	CA	良	40	30
11	男	4	左	裂脳症	7	距摘	左股脱臼	NFA	可	0	
12	女	5	右	AMC	7	距摘	右反張膝, 手, 脊柱	NFA	可	10	
	女	5	左		6	距摘	右反張膝, 手, 脊柱		可	10	
13	男	1	右	AMC	7	PMR	MR, 手	CA	優	30	10
	男	1	左		7	PMR	MR, 手		優	30	10
14	男	1	右	AMC	7	PMR	手, 両膝屈曲制限	CA	良	20	50
	男	1	左		7	PMR	手, 両膝屈曲制限		良	20	40
15	男	5	右	AMC	6	PMR	MR, 両膝伸展制限	NFA	可	0	20
	男	5	右		6	PMR	MR, 両膝伸展制限		可	0	20
16	男	2	右	馬尾退行	2	距摘	両反張膝	NFA	可	10	
	男	2	左		2	距摘	両反張膝		可	10	
17	女	2	左	AMC	2	距摘	脊柱	CA	可	15	
	女	2	右		2	距摘	脊柱		可	15	

注) AMC : classic arthrogyrosis (古典型の多発性関節拘縮症), 染色体 : 染色体異常, 馬尾退行 : 馬尾退行症候群, 距摘 : 距骨摘出術, ア腱切離 : アキレス腱切離術, PMR : Postero-Medial Release (後内側解離術), EVP : Evans Procedure (エバンス手術, ここでは PMR に併用), MR : Mental Retardation (精神発達遅滞), CA : Community Ambulator, HA : Household Ambulator, NFA : Non-Functional Ambulator, NA : Non-Ambulator  
 ※症例 2 の左足のみ 6 歳時に追加手術として後内側解離とエバンス手術施行

年(2~14)であった。調査時の歩行能力を Hoffer 分類<sup>3)</sup>により評価した。歩行時疼痛の有無, 足関節背屈と底屈の可動域を調査し, 臨床成績は以下の二分脊椎足の評価法<sup>7)</sup>に準じた。優 : 足関節はほぼ中間位で胼胝形成なし, 良 : 軽度内外反があ

るが, 足底挿板により制御可能で褥瘡形成なし, 可 : 短下肢装具は必要だが, 褥瘡形成なし, 不可 : 装具装着困難な変形残存または褥瘡形成あり。



図1. 症例8. 両上肢麻痺を伴う古典型多発性関節拘縮症. 2歳時に両距骨摘出術施行. 術後9年の調査時 house-hold ambulator, 両短下肢装具にて疼痛なく, つかまり歩行. 臨床評価は可.

- a: 2歳術前の右足外転矯正位 X線正面像
- b: 2歳術前の右足最大背屈位 X線側面像
- c: 2歳術前の左足外転矯正位 X線正面像
- d: 2歳術前の左足最大背屈位 X線側面像
- e: 術後9年の右足立位 X線正面像
- f: 術後9年の右足立位 X線側面像
- g: 術後9年の左足立位 X線正面像
- h: 術後9年の左足立位 X線側面像

a	b	c
d	e	f
g	h	

## 結 果

調査時の Hoffer 分類では、Community Ambulator 10 例、Household Ambulator 2 例、Non-Functional Ambulator 4 例、Non-Ambulator 1 例であった(表 1)。距骨摘出術を要したのは Community Ambulator 10 例のうち 5 例で、Household Ambulator 以下の 7 例のうち 5 例であった(図 1)。歩行時に疼痛を訴える例はなかった。臨床評価では優 4 足、良 4、可 21、不可 1 であった。不可となった 1 足は症例 6 の左足で、距骨摘出術後の血行不良により前足部切断となった。PMR を行った 12 足では、底屈 30° 以下が 9 足で、そのうち背屈制限 10° 以上も 2 足にみられた。距骨摘出術を行った 17 足のうち 4 足で 10° 以上の背屈制限を認めた。

## 考 察

AMC とは診断名というよりは、生下時より複数部位の関節の拘縮を示す非進行性の疾患群である<sup>6)</sup>。Hall<sup>2)</sup>は広義の AMC を示す病態を、①四肢の関節拘縮のみのもの(狭義の AMC、いわゆる古典型の AMC)、②四肢の関節拘縮に他の奇形を伴うもの、③神経筋の異常に中枢神経系の障害や知能障害を伴うもの、と分類している。今回の症例は広義の AMC に伴う先天性内反足の症例としたが、二分脊椎は弛緩性麻痺であり、病態が異なるので除外した。

AMC の内反足変形に対する手術成績について、田中ら<sup>8)</sup>は後内側解離術と 4 歳以降のエバンス手術などの骨性手術の追加により足底接地を得られたと報告している。山崎ら<sup>10)</sup>も AMC 内反足に対する距骨下全周解離術での再発率は 56% であったが、エバンス法を含んだ症例では再発がみられなかったとしている。AMC の足部変形に対する最近の考え方では、でき得る限り最初は Ponseti 法で対処し、変形再発後も距骨摘出術はできるだけ避けるべきとされている<sup>9)</sup>。一方、距骨摘出術は重度の内反足の足底接地を得るサルベージ手術として有効との報告もある<sup>1)</sup>。我々も、

生後全身状態が安定してからギブス治療、アキレス腱切腱、装具療法を行っている。たいていの場合は変形が制御できないので、歩行能力を見極めてから、広範な手術を行うが、可能な限り後内側解離術とエバンス手術で対処している。変形が高度で矯正不能な場合は、術中の判断で距骨摘出術に移行している。今回の調査では、距骨摘出術となるのはつまり歩行位の筋力の例に多く、また、距骨摘出を行っても背屈の不良な例があることが分かった。しかし、全例とも疼痛なく装具にて生活できているので、重症例でのサルベージ手術としての距骨摘出術は有用と考える。

## ま と め

- 1) 先天性多発性関節拘縮症に伴う先天性内反足 17 例、30 足の治療成績を調査した。
- 2) 最終的な手術方法は、アキレス腱切腱のみ 1 足、後内側解離 7 足、後内側解離とエバンス手術 5 足、距骨摘出術 17 足であった。
- 3) 調査時の Hoffer 分類では、Community Ambulator 10 例、Household Ambulator 2 例、Non-Functional Ambulator 4 例、Non-Ambulator 1 例であった。二分脊椎足の評価法に準じた臨床評価では、優 4 足、良 4、可 21、不可 1 で、疼痛を有する例はなかった。

## 文 献

- 1) El-Sherbini MH, Omran AA : Midterm Follow-Up of Talectomy for Severe Rigid Equinovarus Feet. *J Foot Ankle Surg* 54 : 1093-1098, 2015.
- 2) Hall JG : Arthrogryposis(multiple congenital contractures) : Diagnostic approach to etiology, classification, genetics, and general principles. *European J of Med Genetics* 57 : 464-472, 2014.
- 3) Hoffer MM, Feiwel E, Perry R et al : Functional ambulation in patients with myelomeningocele. *J Bone Joint Surg* 55-A : 137-148, 1973.
- 4) 町田治郎 : 先天性内反足の手術的治療. 最新整形外科学体系(高倉義典ほか編)18, 下腿・足関節・足部, 中山書店, 東京, 113-122, 2007.
- 5) Machida J, Kameshita K, Okuzumi S et al : Flexibility of idiopathic congenital clubfeet

- treated by posteromedial release without talocalcaneal joint release. *J Pediatric Orthop B* **23** : 254-259, 2014.
- 6) 町田治郎：先天性多発性関節拘縮症. 小児整形外科テキスト(日本小児整形外科学会教育研修委員会 編), 改訂第2版, メジカルビュー社, 東京, 113-122, 2016.
  - 7) Machida J, Inaba Y, Nakamura N et al : Management of foot deformity in children. *J Orthop Sci* **22**(2) : 175-183, 2017.
  - 8) 田中弘志, 瀬下 崇, 伊藤順一ほか：先天性多発性関節拘縮症の内反足変形に対する手術治療の長期成績. *日足外会誌* **32** : 27-31, 2011.
  - 9) van Bosse HJP, Pontén E, Wada A et al : Treatment of the Lower Extremity Contracture/Deformities. *J Pediatric Orthop* **37**, Suppl 1 : S16-S23, 2017.
  - 10) 山崎貴弘, 西須 孝, 柿崎 潤ほか：先天性多発性関節拘縮症の内反足に対する手術成績. *日小整会誌* **26**(1) : 58-62, 2017.

## 当院における Graf 法検診への取り組み

村上悠人<sup>1)2)</sup>・関原力<sup>3)</sup>・田邊智絵<sup>1)2)</sup>  
伊藤亮太<sup>2)</sup>・星野雄志<sup>1)</sup>・扇谷浩文<sup>4)</sup>

1) 昭和大学江東豊洲病院 整形外科

2) 昭和大学藤が丘病院 整形外科

3) 用賀リッキー整形外科

4) おおぎや整形外科

**要旨** 当院では2016年5月から当院小児科と近隣の小児科クリニックにポスターを配布し、乳児健診で異常指摘がない児に対しても超音波 Graf 法による検診を勧めている。対象は乳児健診で異常指摘がなく、当院小児科や近隣の小児科クリニックでポスターをもらい当院を Graf 法検診目的で受診した39例78股関節。男児16例、女児23例。初診時月齢は平均2.8か月。検討項目は Graf 分類と女児、骨盤位、家族歴の Risk factor とした。Graf 分類の内訳は Type I 73股、Type II a 3股、Type II b 1股、Type II c 1股。Type I 以外が78股中5股と6.4%。Risk factor の内訳は女児23例、骨盤位2例、家族歴5例。Type I 以外のうちの1症例では Risk factor は認められなかった。Risk factor のない臼蓋形成不全も存在するため画像検査は必要であり、被爆のない超音波検査は有用である。Graf 法検診の確立には Graf 法が施行可能な医師や検査技師の増加、エコー技術の習熟や検診体制の整備が必要であると考えられる。

### 序文

近年、日本小児整形外科学会の multicenter study<sup>4)</sup>で Developmental Dysplasia of the Hip (以下、DDH) 脱臼例の遅延発見例が依然多いことが報告され問題になっている。当院では2016年5月から当院小児科と近隣の小児科クリニックにポスター(図1)を配布し、健診で異常指摘がない児に対して超音波 Graf 法による検診を勧めている。診察にきた親にポスターを渡してもらい、検査希望の方に当院を受診してもらい検査を施行している。

### 目的

本研究の目的は、当院での Graf 法検診の結果か

ら股関節検診体制の問題点を検討することである。

### 対象と方法

対象は2016年5月から2017年7月までの間、健診で異常指摘がなく、当院小児科や近隣の小児科クリニックでポスターをもらい当院を Graf 法検診目的で受診した39例78股関節である。男児16例、女児23例、初診時月齢は平均2.8か月であった。検討項目は Graf 分類と女児、骨盤位、家族歴の Risk factor とした。Graf 分類 Type I 以外の症例に対しては単純 X 線写真も追加検査している。なお、これらの症例に対しては抱き方やおむつ指導を行い、装具療法等は行わなかった。

**Key words** : screening(検診), Graf's method(Graf 法), risk factor(危険因子)

連絡先 : 〒135-8577 東京都江東区豊洲5-1-38 昭和大学江東豊洲病院 村上悠人 電話(03)6204-6000

受付日 : 2018年3月26日

**昭和大学江東豊洲病院**

**乳児股関節超音波検診**

◎ 発育性股関節形成不全（主に股関節脱臼）は早期発見できれば装具治療などで改善する例も多いですが、発見が遅れると手術加療を要する事があります。

◎ 通常は3-4ヵ月健診において開排制限や脚長差、太もものシワの数の非対称などで見つかります。



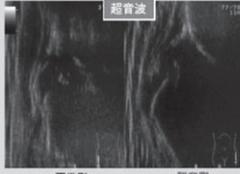
ただし残念ながら、行政主催の健診でも発見が困難なことがあり、診断にはレントゲンや超音波検査が必要です。

**当院では、被曝のない超音波を優先しています！**

※ただし超音波検査だけでは脱臼以外の発育性股関節形成不全を全て検出できません

◆検査内容： 診察+超音波検査  
超音波検査で異常があった場合や希望の方にはレントゲン検査を追加

超音波



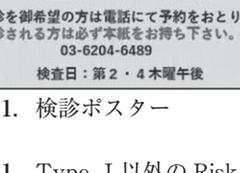
正常例

脱臼例



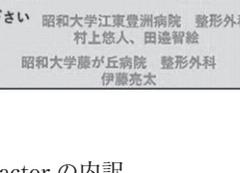
脱臼例

レントゲン



正常例

脱臼例



脱臼例

検診を御希望の方は電話にて予約をおとり下さい 昭和大学江東豊洲病院 整形外科  
受診される方は必ず本紙をお持ち下さい。 村上悠人、田邊智絵  
03-6204-6489  
検査日：第2・4木曜午後 昭和大学藤が丘病院 整形外科 伊藤亮太

図1. 検診ポスター

表1. Type I 以外の Risk factor の内訳

	Type II a			Type II b	Type II c
	症例1	症例2	症例3	症例4	症例5
女児		●	●		●
骨盤位		●			
家族歴				●	

\* 症例1では risk factor は認めなかった。

### 結果

Graf 分類の内訳は Type I 73 股, Type II a 3 股, Type II b 1 股, Type II c 1 股であった。Type I 以外が 78 股中 5 股と 6.4% であった。Risk factor の内訳は女児 23 例, 骨盤位 2 例, 家族歴 5 例であった。Type I 以外の Risk factor の内訳を示す(表1)。症例1では Risk factor は認められなかった。

### 症例供覧

**症例1**：初診時月齢2か月，男児。Risk factor

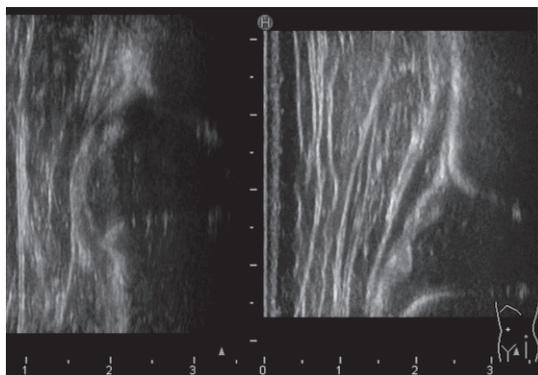


図2. 症例1の2か月時の超音波像  
Graf分類 右：Type II a 左：Type I



図3. 症例1の2か月時の単純X線像  
白蓋角 右：32° 左：33°

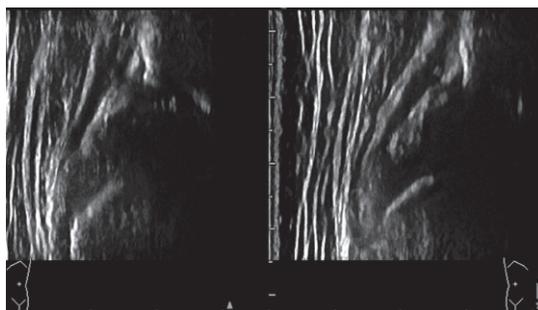


図4. 症例1の4か月時の超音波像  
Graf分類 両側：Type I

はなし。Graf 分類右 Type II a, 左 Type I (図2) であり, 単純 X 線像にて  $\alpha$  角 右 32°, 左 33° (図3) であった。4か月の時点で Graf 分類(図4), 単純 X 線像(図5)共に正常範囲内となった。

**症例5**：初診時月齢1か月，女児。Risk factor は女児。Graf 分類右 Type I, 左 Type II c(図6)



図5. 症例1の4か月の単純X線像  
白蓋角 右:25° 左:23°



図7. 症例5の1か月時の単純X線像  
白蓋角 右:27° 左:33°

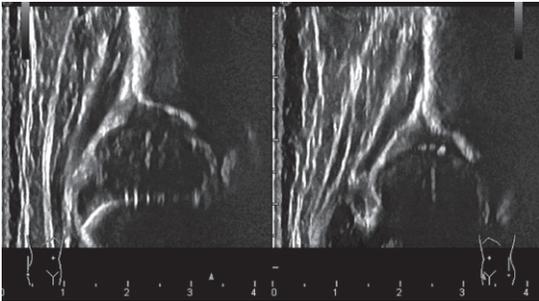


図6. 症例5の1か月時の超音波像  
Graf分類 右:Type I 左:Type IIc

であり、単純X線像にて $\alpha$ 角 右27°、左33°(図7)であった。1歳の時点で単純X線像にて $\alpha$ 角 右30°、左29°(図8)と寛骨臼形成不全が残存している。

## 考 察

健診体制の問題点に関して、古橋ら<sup>2)</sup>は浜松市での健診の改善点は問診を追加すること、また、開排制限は病的意義の判断が難しいため、全例紹介を行うことが考えられたとし、北川ら<sup>6)</sup>は精査要否の基準を開排制限のみではなく、複数の股関節所見と家族歴、出生歴からなるものに変更し、精査を担当する医師を限定することで脱臼の発見率の向上を期待したいとしている。また、武井ら<sup>10)</sup>は、平成23年度の東京都の3~4か月健診での股関節の要精査率は0.7%であり、松戸市の



図8. 症例5の1歳時の単純X線像  
白蓋角 右:30° 左:29°

15%と大きな差があるとしている。松戸市の松戸方式や宮城の宮城方式は、問診項目も含まれているスコアリング方式であり、診察項目のみよりもRisk factor所持児の要精査率が上がると考えられる。東京都での3~4か月健診での股関節チェック項目は、開排制限とクリックサインとなっているが、最終的には各区市町村に委ねられており統一されていない。当院がある江東区の股関節のチェック項目は、開排制限、クリック、下肢長差、大腿皮膚溝の左右差であり、身体所見だけで問診項目がない。日本整形外科学会と当学会が発行した乳児股関節検診の推奨項目と二次検診

への紹介には、問診だけで分かる Risk factor も盛り込まれており、二次健診の受診率の向上には有用であると考えられる。ただし、症例1のように身体所見で異常がなく Risk factor もない寛骨臼形成不全も存在することや脱臼危険状態の Type IIc や Type D でも身体所見では異常を示さないこともある。身体所見だけで股関節異常をもれなくスクリーニングすることはできず、何らかの画像検査が必要であるが、その中では超音波検査は被曝がなく有用である。

新潟市、下諏訪町、射水市、江津市では、乳児健診に超音波 Graf 法が組み込まれている。超音波検査の有用性に関する報告は散見され<sup>1)3)7)8)</sup>、石田ら<sup>5)</sup>は超音波診断において手技や画像診断に習熟する必要があるが、脱臼・亜脱臼の False negative 例は認めず、先天股脱臼のスクリーニングとして有用であるとしている。しかし、multi-center study の報告では各施設の医療圏の DDH 専門検診で超音波を使用しているのは 28% だったとしており、まだ普及していないのが現状である。共著者の関原によると、第 59 回までのエコーセミナーで東京都の病院勤務の受講者は 74 名であった。高橋らの報告<sup>9)</sup>では、新潟市では年間出生数が約 6500 人、検診は年 102 回であったとしている。新潟市はこれを 6 人の医師で施行しており、健診体制が確立している新潟市と同様に東京都で行おうとすると約 110 人の医師が必要となる。そのためには、Graf 法が施行可能な医師や検査技師の増加、また、新潟市では 1 時間に約 60 人検査しており、同様に検診を行うにはエコー技術の向上や整備された検診体制の確立が望まれる。

最後にエコーによる股関節検診を行っている施設では、最初のエコー検査で Graf 分類 Type I は単純 X 線写真を撮影しない施設も存在する。今後、エコー検査の普及により放射線被曝を軽減させることができれば、非常に有意義であると考えられる。

## まとめ

当院では 2016 年 5 月からポスターを配布し、健診で異常指摘がない児に対して超音波 Graf 法による検診を勧めている。Risk factor のない寛骨臼形成不全も存在するため画像検査は必要であり、被曝のない超音波検査は有用である。Graf 法検診の確立には、Graf 法が施行可能な医師や検査技師の増加、エコー技術の習熟や検診体制の整備が必要であると考えられる。

## 文献

- 1) 青木 恵, 末綱 太, 望月充那邦ほか: 当院における超音波を用いた新生児股関節検診について. 八市病誌 29 : 5-10, 2010.
- 2) 古橋弘基, 星野裕信, 松山幸弘: 浜松市乳児股関節健診の現状と検討. 日小整会誌 23(2) : 348-351, 2014.
- 3) Güler O, Şeker A, Mutlu S et al : Results of a universal ultrasonographic hip screening program at a single institution. Acta Orthop Traumatol Turc 50(1) : 42-48, 2016.
- 4) 服部 義, 稲葉 裕, 一戸貞文ほか: 発育性股関節形成不全(脱臼)の全国他施設調査の結果報告. 日小整会誌 26(2) : 343-351, 2017.
- 5) 石田常仁, 山本謙吾: 先天性股関節脱臼に対する乳児検診の現状と超音波検診の有用性. 日小整会誌 23(2) : 271-275, 2014.
- 6) 北川由佳, 本田 恵: 乳児股関節健診, 精査における問題点. 日小整会誌 23(1) : 107-109, 2014.
- 7) 皆川靖子, 関谷 勝, 弦巻正樹ほか: 乳児股関節検診における超音波検査の有用性. 日放会誌 61(6) : 868-873, 2005.
- 8) Omeroğlu H : Use of ultrasonography in developmental dysplasia of the hip. J Child Orthop 8(2) : 105-113, 2014.
- 9) 高橋 牧, 渡辺研二, 本間政文: 新潟市保健所の乳児超音波股関節検診. 日整超会誌 26(1) : 74-81, 2014.
- 10) 武井聖良, 伊藤順一, 小崎慶介: 東京都の 3~4 か月健診における DDH スクリーニング. 日小整会誌 26(1) : 6-13, 2017.

## 二つの創外固定器を用いて橈骨仮骨延長を施行した 小児橈骨遠位骨端線損傷後早期骨端線閉鎖の1例

橋本将吾<sup>1)</sup>・森澤 妥<sup>2)</sup>

1) 独立行政法人国立病院機構埼玉病院 整形外科

2) 独立行政法人国立病院機構埼玉病院 リハビリテーション科

**要旨** 小児橈骨遠位骨端線損傷後早期骨端線閉鎖による前腕変形に対して、二つの創外固定器を用いて橈骨仮骨延長術を施行した。症例は13歳、男性。8歳時に受傷し、近医にて保存的加療となった。徐々に手関節の橈屈変形、尺骨頭の突出、尺側部痛、握力低下の症状が出現した。単純X線像では著明な橈骨短縮、遠位橈尺関節(以下、DRUJ)脱臼を認めた。橈骨遠位骨端線損傷後早期骨端線閉鎖と診断し、橈骨仮骨延長術を施行した。単支柱型創外固定器を橈骨の骨切り部に、角度可変型を第5中手骨と尺骨間に装着し、二つの創外固定器で骨延長を施行した。骨端線損傷後橈骨短縮変形では軽度の場合は従来どおりの一つの単支柱型創外固定器のみの骨延長で可能であるが、高度な橈骨の短縮、DRUJの脱臼も伴っている場合は、本法のように二つの創外固定器を用いた骨延長も治療の選択肢の一つとして考えられた。

### はじめに

橈骨遠位骨端線損傷は6~12歳に好発し、小児骨端線損傷の約39%を占めると報告されており、最も高頻度である<sup>7)</sup>。予後は比較的良好であるが、橈骨遠位骨端軟骨は橈骨長径成長の約75%に寄与しており、骨端線損傷後の早期骨端線閉鎖は重大な成長障害を引き起こす<sup>5)</sup>。高度な橈骨短縮、DRUJ脱臼を伴う橈骨遠位骨端線損傷後早期骨端線閉鎖の1例に対して、変形が高度であり通常の単支柱型を用いた骨延長では不十分と判断し、今回二つの創外固定器を用いて骨延長を施行した。

### 症例

**症例**：13歳、男性。野球部員。

**家族歴と既往歴**：特記すべきことなし。

**主訴**：右手関節変形、尺側部痛、可動域制限、

握力低下。

8歳時に自転車走行中に転倒、受傷した。近医にて単純X像で明らかな骨傷なしと診断され、保存的加療となった。その後、徐々に手関節の橈屈変形、尺側部痛、握力低下の症状が出現したため当院紹介受診となった。初診時身体所見では、手関節は20°の橈屈変形、手関節尺側において尺骨頭の突出を認め、手関節可動域は掌屈70°、背屈70°、前腕可動域は回内85°、回外90°と制限を認めた。単純X線像で橈骨遠位骨端線閉鎖、橈骨遠位端掌側傾斜(以下、VT)5°、橈骨遠位端尺側傾斜(以下、RI)2°、尺骨プラス変異11mm(以下、UV+11mm)、DRUJの脱臼を認めた(図1)。以上より橈骨遠位骨端線損傷(Salter-Harris(以下、S-H)5型)による骨端線閉鎖後の橈骨成長障害と診断し、橈骨仮骨延長術を施行した。手術は掌側から橈骨骨切りを行い、①単支柱型創外

**Key words** : distraction osteogenesis(仮骨延長術), epiphyseal plate injury(骨端線損傷), premature epiphyseal closure(早期骨端線閉鎖)

**連絡先** : 〒351-0102 埼玉県和光市諏訪2-1 独立行政法人病院機構埼玉病院 整形外科 橋本将吾 電話(048)462-1101  
**受付日** : 2018年1月28日



図1. 当院初診時画像所見  
 当院初診時 X 線像 a: 正面 b: 側面  
 VT: 5° RI: 2° UV: +11 mm  
 著明な DRUJ の脱臼を認めた。

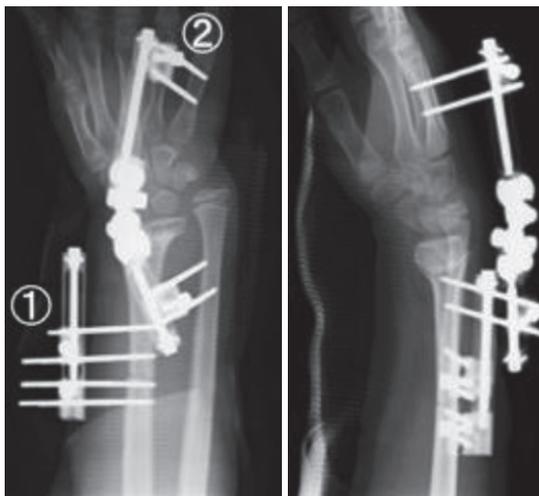


図2. 術後単純 X 線像 a: 正面 b: 側面 a|b  
 二つの創外固定器を用いた仮骨延長術後の X 線画像  
 ① 橈側: 単支柱型創外固定器(Orthofix 社, M103)  
 ② 尺側(第5中手骨-尺骨): 角度可変型創外固定器  
 (Orthofix 社, M511)

固定器(Orthofix 社, M103)を装着した。次に、第5中手骨-尺骨間に②角度可変型創外固定器(Orthofix 社, M511)を装着して終了した(図2)。なお、術中に②を緩めた状態で①を延長して DRUJ が整復できることを確認している。術後1週目から延長開始した(0.5 mm/日)。それ以降は自宅で①の延長操作を施行してもらい、週に1回

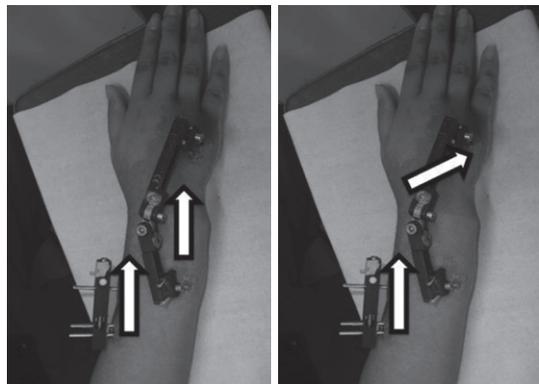


図3. 二つの創外固定器を用いた橈骨仮骨延長術の方法  
 a: Step1 橈側の創外固定器のピンにかかる軟部組織の抵抗を尺側から支え、目的とする方向への延長を容易にする。  
 b: Step2 DRUJ 付近で長軸に延長する力に加えて尺屈する力を与えることで、単支柱型創外固定器の延長効果が減弱されることなく橈骨骨切り部の尺側にも伝達されることを目的とした。

程度通院で①の延長を行いつつ、②は手関節を安定化させる目的で大きな緊張がかからない程度に締結した。具体的には図3に示すように、②を緩めて①を延長、その後②を締結、その際①のピンがたわまないことに留意した(図3-a)。仮骨延長が DRUJ 付近まで到達した段階で、①の延長に加えて②に尺屈方向への力を加えて締結した(図3-b)。この操作は延長量が多い場合、徐々に①の延長の力が橈骨骨切りの尺側部分へ及びにくくなり、ピンはハの字になりがちである。そこで、②を用いて手根骨より遠位の部分を尺側方向へ牽引することで、①の橈骨骨切りの尺側部への延長効果が減弱しないようにした。実際は、術後4週までは0.5 mm/日で延長していたが、仮骨形成が遅く4週以降は0.25 mm/日の延長とした。術後7週でゼロ変異となった。尺骨の骨端線は残っているため当初の橈骨の延長目標は UV-3 mm 程度であったが、②のピン周囲の発赤と浸出液が生じ、ピン周囲感染と判断し術後8週で②を抜去した。その後から①の延長部のネジの回転が固くなり術後9週で回転困難となり延長終了とした。その後橈骨の仮骨の成熟・癒合を待って術後5か月で①を抜去した。②のピン周囲感染は、抜去



図4. 術後2年画像所見

a,b:単純X線像 a:正面 b:側面 VT 19° RI 10° UV +4 mm  
c:CT画像, DRUJの脱臼は整復されている.

a|b|c

後早期に改善した. 術後2年時点で仮骨延長部の骨癒合は得られており, 尺骨+4 mm, External Fixation Index(EFI)136日/cm, CTでDRUJの脱臼も整復されている(図4). 日常生活上支障なく, 野球部にも復帰している. 尺骨の骨端線はまだ閉鎖しておらず, 症状の再燃に関しては注意深い観察が必要と考えている.

### 考 察

橈骨遠位骨端損傷後の早期骨端線閉鎖は, 骨成長障害による橈尺骨長の不均等を生じる<sup>5)</sup>. 骨端損傷の90%以上がS-H 1型または2型であり, 基本的に成長障害を引き起こすことはまれである<sup>2)</sup>. S-H 4型または5型で成長障害が発症し, 全骨端損傷の1~7%と報告されており, 正確な診断と治療介入が予後を左右する<sup>6)7)</sup>. 本例は初診医では骨傷を指摘されなかったことから, S-H 5型の橈骨遠位骨端損傷と考えられる. 相対的な尺骨のプラス変異を来しDRUJの不適合も生じるため, 手関節変形だけではなく手関節可動域制限などの機能障害を来す<sup>2)6)</sup>. 前腕骨の1 cm以上の短縮は症状を呈するといわれている<sup>1)</sup>.

外科的治療としては, 橈骨仮骨延長, 尺骨短縮, Langenskioid法などが行われている. 年長小児では橈骨仮骨延長術が一般的である.

橈骨仮骨延長術では, 単支柱型創外固定器(以下, 単支柱型)またはイリザロフ型創外固定器(以下, イリザロフ型)が用いられる. イリザロフ型は, 3次元的な骨変形の矯正が可能であるが, 刺入するピンの数も多く創外固定器自体も大きいため管理が煩雑で, 学校生活の継続は難しい. また, 患者サイドでの延長処置も難しい. 単支柱型は比較的小さく, 患者サイドでの延長処置も可能である. 本例では, 術前画像で短縮は高度であるが3次元的変形が軽度と判断し, 単支柱型での仮骨延長術を選択した.

従来, 単支柱型での延長では, 延長が進むにつれて骨切り部を挟んでピンがハの字になり, 有効な骨切り部の延長が得られず, RIのみが増加し, 目的とする方向への延長や延長量が得られないことにしばしば直面する<sup>3)</sup>. これは, 延長が橈側からのみのピンの支えによる延長であるため, 延長の力が橈骨骨切り部の尺側にうまく伝わらないという単支柱型の欠点と考える.

橈骨の短縮が高度でDRUJ脱臼も伴っている本例においては、橈側からのみの長軸方向の延長では、延長量不足、延長の力がうまく橈骨骨切り部の尺側へは伝達されず、RIのみが増大してDRUJの整復困難になる可能性が想定された。そのため、上記の単支柱型の欠点を補うべく尺側に創外固定器を装着することを考えた。具体的には、第5中手骨-尺骨間に角度可変型創外固定器を装着し(図3-a)、橈側の創外固定器のピンにかかる軟部組織の抵抗を尺側から支え手関節の安定化を図る(図3-b)。橈骨が延長されDRUJ付近に至るところで、単支柱型創外固定器で長軸に延長する力に加えて角度可変型創外固定器で尺屈する力を与えることで、単支柱型創外固定器の長軸への延長の力が減弱されることなく橈骨骨切り部の尺側にも伝達されることを目的とした(図3)。本症例では、13歳と年長で橈骨短縮の程度が高度であったことから延長に時間がかかり、尺側の創外固定のピン周囲感染が発生し、抜釘を余儀なくされた。それによって、橈側の創外固定の延長が困難となり、結果的に目的とする骨延長量が得られなかった。

尺側の創外固定器を抜去してから橈側の創外固定器の延長が困難となり、延長終了となったことから、尺側の創外固定器が長軸延長に大きな寄与をしていたことが示唆された。より年少児であれば仮骨形成が旺盛で、目的とする骨延長量が得られたと考えている。

本法の欠点として、尺側の創外固定器の装着によって手関節運動が一時的に制限されることが挙げられる。本例でピン周囲感染が生じた原因の一つとして、仮骨形成が遷延し尺側の創外固定器装着が長期になり、創外固定のピンに強い力学的ストレスがかかったことが考えられる。また、回内外運動が一時的に制限されることによる回内外拘縮も危惧される。しかし、小澤ら<sup>4)</sup>は、橈骨遠位

骨端線損傷に対する手関節をまたぐ創外固定でも小児では関節拘縮が少なかったと報告している。本例でも拘縮は生じなかった。骨端線損傷後橈骨短縮変形では軽度の場合は、従来どおりの一つの単支柱型創外固定器のみの骨延長で可能であるが、高度な橈骨の短縮、DRUJの脱臼も伴っている場合は、本法のように二つの創外固定器を用いた骨延長も治療の選択肢の一つとして考えられた。一方、年長児に対する本術式の適応は、慎重に検討する必要がある。本研究の限界としては、症例数が1例であることであり、今後症例を増やして検討していきたい。

## 文献

- 1) Gündeş H, Buluç L, Sahin M et al : Deformity correction by Ilizarov distraction osteogenesis after distal radius physeal arrest. *Acta Orthop Traumatol Turc* 45(6) : 406-411, 2011.
- 2) Lee BS, Esterhai JL Jr, Das M : Fracture of the distal radial epiphysis. Characteristics and surgical treatment of premature, post-traumatic epiphyseal closure. *Clin Orthop Relat Res* 185 : 90-96, 1984.
- 3) 小川貴久, 石井宣一, 品田良太ほか : 橈骨遠位骨端線損傷に伴う骨端線早期閉鎖に対する仮骨延長法の小経験. *骨折* 37(3) : 548-511, 2015.
- 4) 小澤正嗣, 小西池泰三, 岡田芳樹ほか : 年長児の橈骨遠位骨端線損傷に対する創外固定の経験. *骨折* 31 : 363-365, 2009.
- 5) 浦部忠久, 佐々木孝 : 橈骨遠位骨端線離開後に発生した成長障害の治療. *Orthopaedics* 6 : 59-66, 1993.
- 6) Waters PM, Bae DS, Montgomery KD : Surgical management of posttraumatic distal radial growth arrest in adolescents. *J Pediatr Orthop* 22(6) : 717-724, 2002.
- 7) Wilkins KE, O' Brien E : Fracture of the distal radius and ulna. In *Fractures in Children* (Rockwood CA et al ed). Lippincott, Philadelphia, 451-515, 1996.

## ハイドロキシアパタイトブロックを使用した Pemberton 骨盤骨切り術の治療成績

松田 蓉子<sup>1)</sup>・町田 治郎<sup>1)</sup>・稲葉 裕<sup>2)</sup>・中村 直行<sup>1)</sup>  
百瀬 たか子<sup>1)</sup>・赤松 智隆<sup>1)</sup>・秋山 豪介<sup>1)</sup>

1) 神奈川県立こども医療センター 整形外科

2) 横浜市立大学 整形外科

**要旨** 当院では発育性股関節形成不全に対して、ハイドロキシアパタイト(以下、HA)ブロックを使用した Pemberton 骨盤骨切り術を行っている。2010年4月から2016年4月に当院で Pemberton 手術を行った13例14股を調査した。手術時平均年齢は5歳8か月で、7例8股で発育性股関節形成不全の治療歴を有し、over head traction にて4股、観血的整復術にて4股が整復された。手術は Pemberton 手術単独が3股、大腿骨減捻内反骨切り術併用が7股、観血的整復術併用が4股であった。術前 Tönnis 分類は Grade 2 が12股、Grade 3 が2股であった。臼蓋角は術前平均41.7°から最終観察時23.2°へ改善した。Severin 分類はⅠが7股、Ⅱが6股、Ⅲが1股であった。HA ブロックの破損は術中に1股、術後に2股で認めたが、HA ブロックの転位はなかった。HA ブロックを使用した Pemberton 手術は有用であると考えられる。

### はじめに

Y軟骨が開存している小児の発育性股関節形成不全(Developmental Dysplasia of the Hip: 以下、DDH)の遺残性亜脱臼や臼蓋形成不全、未治療の股関節脱臼に対する手術として、Salter 骨盤骨切り術と Pemberton 骨盤骨切り術が広く用いられている。当院では、2010年よりハイドロキシアパタイトブロック(Hydroxyapatite Block: 以下、HA ブロック)を使用した Pemberton 骨盤骨切り術を第一選択としている。今回その治療成績について報告する。

### 対象と方法

2010年4月から2016年4月に当院で Pemberton 手術を行った13例14股を調査した。男児2

例、女児11例、手術時平均年齢は5歳8か月(3歳11か月～8歳9か月)、術後平均観察期間は2年11か月(1年～5年6か月)であった。7例8股でDDHの治療歴を有し、overhead traction にて4股、観血的整復術(Open Reduction: 以下、OR)にて4股が整復されていた。未治療の股関節脱臼は4股、寛骨臼形成不全は2股であった。術前 Tönnis 分類は、Grade 2 が12股、Grade 3 が2股であった。Pemberton 骨盤骨切り術は、Bikini、皮切により前方法で行った。大腿筋膜張筋と縫工筋の間より進入し、中殿筋を骨膜下に腸骨より剥離した(1例のみ大転子骨切りにて進入)。下前腸骨棘と坐骨切痕を同定し、田川ノミにてイメージ下に骨切りを行った。Y軟骨近くまで弓状に骨切りしてから、骨片を下方に引き下げて、HA ブロックを挿入し、臼蓋を形成した。内固定

**Key words** : developmental dysplasia of the hip(発育性股関節形成不全), Pemberton osteotomy(Pemberton 骨盤骨切り術), hydroxyapatite block(ハイドロキシアパタイトブロック)

**連絡先** : 〒 232-0066 神奈川県横浜市南区六ツ川 2-138-4 神奈川県立こども医療センター 整形外科 松田蓉子  
電話 (045)711-2351

**受付日** : 2018年5月10日

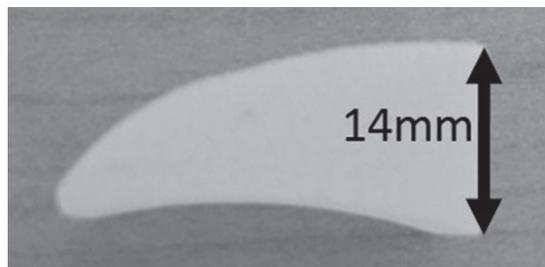


図1. ハイドロキシアパタイト(HA)ブロック(NEOBONE®)

はしなかった. HA ブロックは Aimeric MMT 社製の NEOBONE® を使用した(図1). 手術は Pemberton 骨盤骨切り術単独が3股, 大腿骨減捻内反骨切り術(Derotation Varus Osteotomy : 以下, DVO)併用が7股, OR 併用が4股であった. OR を併用する場合には, 骨盤骨切り前に前方皮切にて進入後, 関節包を全周性に切開した. 整復障害因子を除去した後に, 骨頭が関節内に収まるのを確認した. DVO を併用する場合には, 大腿骨近位外側の別皮切により行った. 未治療の股関節脱臼は, 手術前に全例2~4週間の介達牽引を行った. 術後は4~6週間ギプス固定を行い, 術後2~3か月より部分荷重, 術後3~5か月で全

荷重を許可した.

術前と最終調査時の白蓋角の変化, McKay's clinical evaluation criteria, Severin 分類, 合併症について調査した. さらに術後1年間における白蓋角の変化と, 変化に影響を与える因子として手術時年齢, 手術時体重, 術前 Tönnis 分類, 術前白蓋角, 白蓋角の矯正角度, 荷重開始時期, HA ブロックの破損の有無について調査した.

## 結果

術前白蓋角は平均41.7°(33~50°)であり, 最終調査時には平均23.2°(13~40°)へ改善した. 調査時の McKay's clinical evaluation criteria は, excellent が10股, good が2股, fair が2股であった. Severin 分類は Ia が6股, Ib が1股, IIa が5股, IIb が1股, III が1股であった(表1, 図2). 合併症は, HA ブロックの破損が術中1股, 術後2股認めたが(図3), 転位はなかった. 感染はなく, 輸血を必要とした症例はなかった.

術直後の白蓋角は平均24.3°(11~41°), 術後1年は24.0°(15~36°)であった. 5股で術後1年における白蓋角の増加を認めた. 白蓋角が増加した

表1. 症例一覧

症例	性別	手術時年齢	術後経過観察期間(か月)	先行治療	術前白蓋角(°)	Tönnis 分類	併用手術	術後白蓋角(°)	術後1年白蓋角(°)	調査時白蓋角(°)	McKay's criteria	Severin 分類
1	女	7歳10か月	66		44	2	DVO	31	27	28	excellent	I a
2	女	6歳6か月	64		47	3	OR	31	30	19	good	I a
3	女	5歳3か月	46		37	2	OR	26	20	15	excellent	II a
4	女	3歳11か月	43		42	2	OR	30	35	29	good	II b
5	男	4歳10か月	41	OHT	41	2	DVO	18	15	13	excellent	I a
6	女	5歳9か月	39	OHT	38	2		24	22	19	excellent	I a
7	女	6歳3か月	34	OHT	41	2		22	20	21	excellent	I a
8	女	5歳1か月	29		49	3	OR	15	22	27	fair	II a
9	男	5歳3か月	27	OR	36	2	DVO	19	21	19	excellent	II a
10	女	8歳9か月	27		43	2	DVO	20	28	30	excellent	II a
11	女	4歳9か月	25	OR	33	2	DVO	11	17	17	excellent	II a
12	男	5歳5か月	25	OR	48	2	DVO	26	23	28	excellent	I b
13	女	5歳2か月	22	OR	50	2	DVO	41	36	40	fair	III
14	女	5歳1か月	12	OHT	35	2		26	20	20	excellent	I a

注)OHT : Overhead Traction, OR : Open Reduction, DVO : Derotation Varus Osteotomy

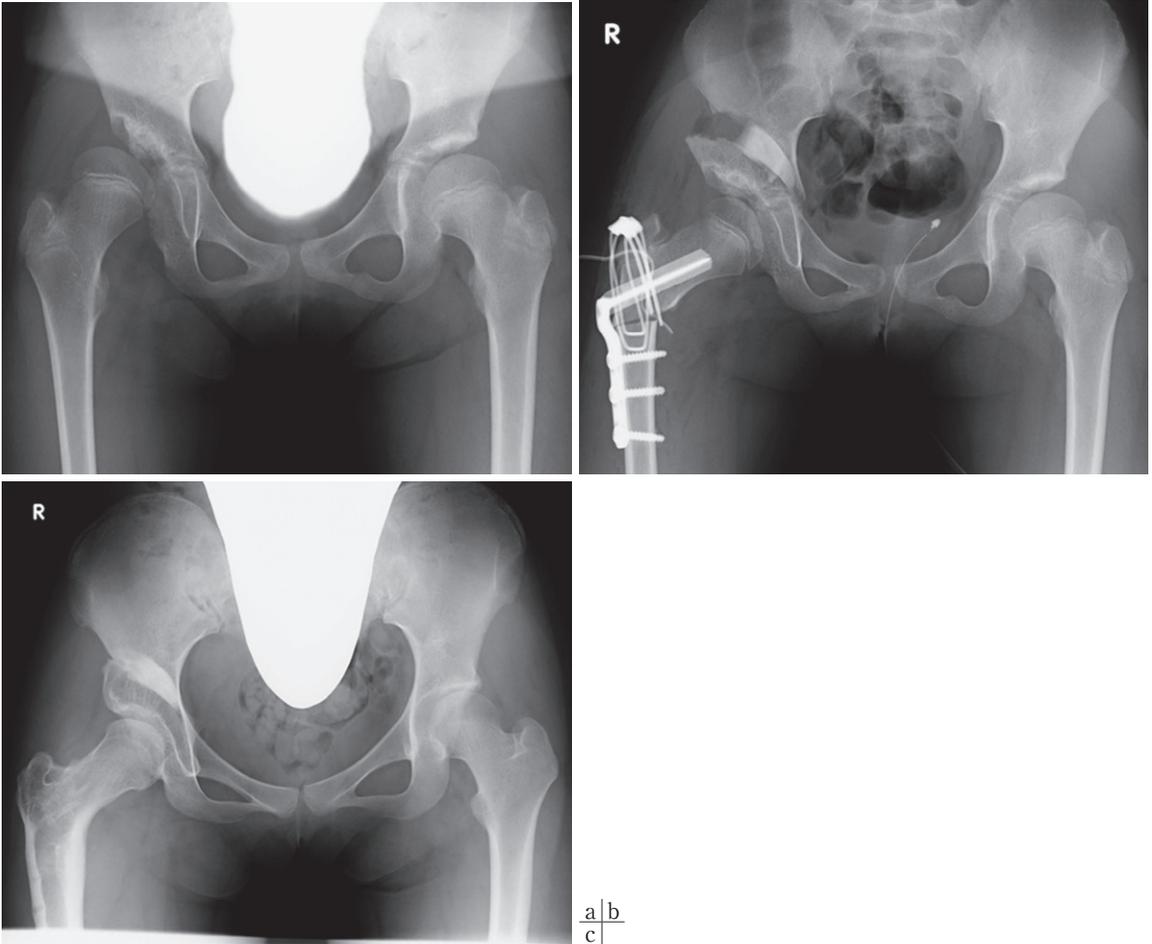


図 2. 症例 1: 7 歳 10 か月, 女子, 右股関節痛にて受診. 治療歴なし.  
 a: 術前の両股 X 線正面像で臼蓋角は右 44°, 左 20°であった.  
 b: 右 Pemberton 骨盤骨切り術と DVO の手術直後.  
 c: 術後 5.5 年. 右の臼蓋角は 28°で, Severin 分類は Ia であった.

5 股とその他の 9 股において, 術後臼蓋角の変化に影響を与える因子の比較検討を行ったところ, 手術時年齢, 手術時体重, 術前 Tönnis 分類, 術前臼蓋角, 臼蓋角の矯正角度, 荷重開始時期, HA ブロックの破損の有無において有意差は認めなかった.

### 考 察

Y 軟骨が開存している小児 DDH の遺残性亜脱臼や寛骨臼形成不全, 未治療の股関節脱臼に対する補正手術として, Pemberton 骨盤骨切り術は広く用いられている. Pemberton らは 94.3% が優れた成績であったと報告している<sup>4)</sup>. また

Wada らは, 7 歳以上の患者に対して Pemberton 骨盤骨切り術を行った 17 例を報告し, McKay's clinical evaluation criteria において 82.3% が excellent または good であった<sup>5)</sup>. Ali らは, Pemberton 骨盤骨切り術は臨床および画像的に優れた結果であったと報告しているが, 脱臼の重症度と年齢が成績に関与していた<sup>1)</sup>. 本症例において, McKay's clinical evaluation criteria は 85.7% が excellent または good であり, Severin 分類は 92% が I または II であった. 未治療の股関節脱臼においても成績は良好であり, 有用であると考えられる. 当院では, 従来 3 歳以上の未治療の股関節脱臼に対して OR と Salter 骨盤骨切り術の合併手

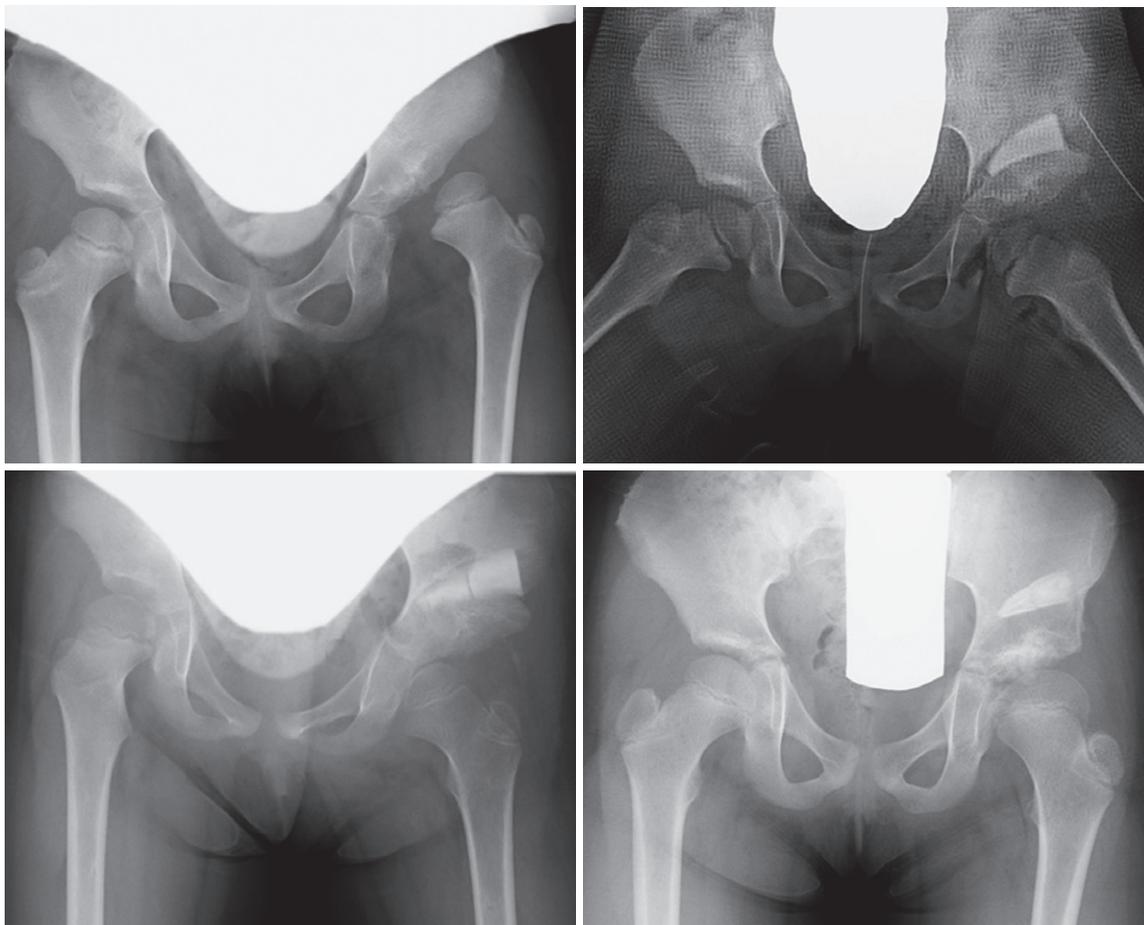


図3. 症例3: 5歳3か月, 女子. 未治療の左先天性股関節脱臼.

a: 術前の両股 X 線正面像にて左股は完全脱臼位で, 白蓋角は右 21°, 左 37°であった.

b: 左 Pemberton 骨盤骨切り術と OR の手術直後.

c: 術後1か月. ギプス内で HA ブロックの破損を認めた.

d: 術後4年. 左の白蓋角は 15°で, Severin 分類は IIa であった.

a/b  
c/d

術を行ってきた<sup>3)</sup>. しかし, 6歳以上の未治療の股関節脱臼が来院したのをきっかけに, 6歳以上の年長者では Salter 骨盤骨切り術より骨片移動がしやすい HA ブロックを使用した Pemberton 骨盤骨切り術を導入した.

亀ヶ谷らは HA ブロックを使用した Salter 骨盤骨切り術について報告している<sup>2)</sup>. 利点として, ①腸骨稜の成長障害がないこと, ②正確な外表計測脚長差 (Spinomalleolus Distance: SMD) を計測するための上前腸骨棘の保存, ③手術時間と出血量の減少を挙げている. 彼らの研究では, 手術時間と出血量は, コントロール群と比較してそれ

ぞれ 139.2 mL から 73.8 mL, 126.7 分から 86.5 分へ減少した. しかし, Salter 骨盤骨切り術では, K-wire での内固定が必要であるため, ブロック破損, 転位の危険性があると考えられる.

Pemberton 骨盤骨切り術では, 内固定の必要がないためより HA ブロックの使用に適している. また, 重症度に応じて同時に観血的整復術や大腿骨骨切り術の併用が必要となるため, 手術はより複雑となり, 手術時間の延長を要する. 本法では自家骨移植を必要としないため, 手技がより簡便となり, 手術時間の短縮が可能である. 術中・術後に3股で HA ブロックの破損を認めたが,

転位や破損による矯正損失はなかった。

一方、術直後と術後1年での臼蓋角を比較すると、臼蓋角が増加している症例を認めた。術後1年間の臼蓋角変化に影響を与える因子は、今回我々が着目した因子の中では明らかにはならなかった。術後観察期間が短い症例が多いため、今後成長終了時の成績と矯正損失、また、その危険因子についてさらなる検討が必要である。

#### まとめ

1) HA ブロックを使用した Pemberton 骨盤骨切り術により臼蓋被覆の改善が得られた。手技がより簡便になり、有用と考える。

2) 術中、術後に HA ブロックが破損した症例があったが、全例で転位はなかった。

3) 術後に臼蓋角が増加する症例があった。関連因子や長期における変化について、今後も検討が必要である。

#### 文献

- 1) Aydin A, Kalali F, Yildiz V et al : The results of Pemberton's pericapsular osteotomy in patients with developmental hip dysplasia. *Acta Orthop Traumatol Ture* **46**(1) : 35-41, 2012.
- 2) Kamegaya M, Shinohara Y, Shinada Y et al : The use of a hydroxyapatite block for innominate osteotomy. *J Bone Joint Surg Br* **76-B** : 123-126, 1994.
- 3) 町田治郎, 奥住成晴, 中村直行ほか : 3歳以上で発見された先天性股関節脱臼に対する靱帯整復と Salter 骨盤骨切り合併手術の治療成績. *日小整会誌* **21** : 263-266, 2012.
- 4) Pemberton PA : Pericapsular osteotomy of the ilium for treatment of congenital subluxation and dislocation of the hip. *J Bone Joint Surg Am* **47** : 65-86, 1965.
- 5) Wada A, Fujii T, Takamura K, Yanagida H et al : Pemberton osteotomy for developmental dysplasia of the hip in older children. *J Pediatr Orthop* **23** : 508-513, 2003.

## 当院における重度心身障害児に対する ITB 療法の治療経験

金城 健<sup>1)</sup>・我謝 猛次<sup>1)</sup>・粟國 敦男<sup>1)</sup>・安里 隆<sup>2)</sup>

1) 沖縄県立南部医療センター・こども医療センター 整形外科

2) 沖縄県立南部医療センター・こども医療センター リハビリテーション科

**要旨** ITB 療法はバクロフェンを脊髄髄腔内に持続的に注入し、痙縮を軽減させる治療法で、当院では 2010 年から導入している。対象は、2017 年 8 月までに当科で ITB ポンプ埋め込み術を施行した 23 例(男児 16 例, 女児 7 例)で手術時平均年齢 9 歳 9 か月であった。基礎疾患は脳性麻痺 15 例, ミトコンドリア脳筋症 3 例, 脳出血後遺症 2 例, その他 3 例で, GMFCS はレベル IV 2 例, レベル V 21 例であった。胃瘻造設ありが 9 例あったが手術に支障はなかった。3 例が先行治療に SDR を受けていた。手術時平均体重 17.3 kg, 手術時平均身長 112.8 cm であった。術後合併症は術後早期のカテーテル機能不全を 1 例で認め、背部カテーテル接続部の処置で改善。腹膜炎に伴うポンプ周囲蜂窩織炎の症例を 1 例認めたが、抗生剤投与のみで抜去せずに改善が得られた。ポンプトラブルや感染での抜去は、これまで認めていない。ITB 療法によって安楽な姿勢の獲得、睡眠障害の改善、更衣や移動など介護負担の軽減を得ることができた。

### はじめに

痙縮治療の選択肢はバクロフェンなどの内服薬、ボツリヌス療法、バクロフェン髄腔内投与治療 (Intrathecal Baclofen Therapy : 以下, ITB 療法), 選択的後根切断術 (Selective Dorsal Rhizotomy : 以下, SDR) があり, 当院では 2000 年より SDR を導入し 2017 年 8 月までに 183 例, ボツリヌス療法は 2006 年より導入して<sup>1)</sup> 174 症例に施行してきた (表 1)。ITB 療法は, GABA 受容体アゴニストである脳血管関門を通過し難いバクロフェンをカテーテルで直接脊髄髄腔内に持続的注入し, 痙縮を軽減させる治療法で, 2007 年には小児に保険適応が承認された<sup>7)</sup>。痙縮は GABA の働きが低下している状態で, バクロフェンは GABA 受容体に作用して痙縮を軽減させる。ポンプへの薬液補充は 3 か月おきに必要で, 専用コ

表 1. 当科の痙縮治療実績

	施行症例数
SDR (2000 年～)	183 症例
BTX 療法 (2003 年～)	174 症例
ITB 療法 (2010 年～)	23 症例

ントローラーで投与量の調整が可能である。

ITB 療法は, 脳性麻痺リハビリテーションガイドラインでも全身性の重度痙縮に対して痙縮の減弱と機能改善を目的としてグレード B で勧められており<sup>5)</sup>, 当院では 2010 年から ITB 療法を導入している。当院の小児痙縮治療において, SDR は両下肢中心の痙縮を呈する痙直型両麻痺の GMFCS レベル I~III が良い適応であり, ITB 療法は四肢や体幹に及ぶ筋緊張亢進を呈するレベル IV~V の重度の寝たきり児を対象としている (表 2, 3)。今回は, 当院における小児重度心身

**Key words** : intrathecal baclofen therapy (バクロフェン髄注療法), spasticity (痙縮), cerebral palsy (脳性麻痺), children with severe physical disability (重度心身障害児)

**連絡先** : 〒 901-1193 沖縄県南風原町字新川 118-1 沖縄県立南部医療センター・こども医療センター 整形外科  
金城 健 電話 (098) 888-0123

**受付日** : 2018 年 2 月 8 日

表 2. 当院の小児痙縮治療指針

	SDR	ITB	BoNT
原因	痙直型両麻痺	脳性麻痺・その他の脳原性疾患	痙縮を来す疾患
ジストニアへの適応	-	+	+
広がり	両下肢	四肢体幹	局所
GMFCS	I～IV	IV～V	I～V
年齢	2.5 歳から 8 歳	ポンプ埋め込み可能な体格	2 歳から

表 3. 患者背景

性別	男 / 女	16 例 / 7 例
原疾患	脳性麻痺	15 例
	ミトコンドリア異常症	3 例
	脳出血後遺症	2 例
	低酸素性虚血性脳症	2 例
	溺水後低酸素脳症	1 例
GMFCS	レベル IV	2 例
	レベル V	21 例
カテーテル先端位置	頸椎	1 例
	上位胸椎 (Th1～4)	6 例
	中位胸椎 (Th5～8)	15 例
	下位胸椎 (Th9～12)	1 例
年齢	平均値(範囲)	9 歳 9 か月 (3 歳 11 か月, 19 歳 3 か月)
体重	平均値(範囲)	17.3 kg (11.0 kg, 29.0 kg)
身長	平均値(範囲)	112.8 cm (96 cm, 136 cm)

障害児に対する ITB 療法の治療経験を報告する。

### 対 象

対象は、2017 年 8 月までに当科で ITB ポンプ埋め込み術を施行した 23 例(男児 16 例, 女児 7 例)。基礎疾患は、脳性麻痺 15 例, ミトコンドリア脳筋症 3 例, 脳出血後遺症 2 例, 低酸素性虚血性脳症 2 例, 溺水後低酸素脳症 1 例で, GMFCS ではレベル IV 2 例, レベル V 21 例であった。手術時平均年齢 9 歳 9 か月 (3 歳 11 か月～19 歳 3 か月), 最終調査時平均年齢 11 歳 2 か月 (4 歳 2 か月～22 歳 1 か月)であった(表 3)。

### 結 果

手術時平均体重 17.3 kg (11.0～29.0 kg), 手術時平均身長 113 cm (96～136 cm)であった。手術

時胃瘻造設ありが 9 例 (39%)あったが, ポンプ埋め込みに支障はなかった。先行治療で SDR を施行していた症例が 3 例あり, 腰椎穿刺困難やカテーテル上行困難症例を認めたが, 最終的にはカテーテル設置可能であった。合併症は術後早期のカテーテル機能不全(キンク)を 1 例で認め, 背部カテーテル接続部の再固定で改善した。腹膜炎に続発したポンプ周囲蜂窩織炎を 1 例認めたが, 腹腔鏡下腹腔内膿瘍ドレナージ後, 抗生剤投与で感染コントロールされてポンプを抜去せずに改善が得られた。ポンプトラブルや感染での抜去は, これまで認めていない。筋バランスの変化による術後一時的な排尿困難を 2 例に認めたが, 術後数日で自然軽快した。過量投与による傾眠傾向を 2 例に認めたが, 薬剤減量で速やかな改善が得られた。

カテーテル設置の高位レベルは, 頸椎:1 例, 上位胸椎 (Th1～4):6 例, 中位胸椎 (Th5～8):15 例, 腰椎:1 例であった(表 3)。腰椎設置となったのは先行治療に SDR が施行されている 1 例で, カテーテル上行困難を認めた。バクロフェン投与量は, 埋め込み時平均 3.2  $\mu\text{g}/\text{kg}/\text{day}$  (1.4～5.7  $\mu\text{g}/\text{kg}/\text{day}$ ) で開始して, 最終平均 6.2  $\mu\text{g}/\text{kg}/\text{day}$  (2.5～11.3  $\mu\text{g}/\text{kg}/\text{day}$ ) まで増量されていた。家族と本人から ITB 療法後改善した点を聴取し, ITB 療法後に体幹反り返りが軽減して安楽な姿勢の獲得(車椅子座位の安定, 仰臥位可能)が得られた症例は 18 例 / 23 例, 介護負担の軽減(更衣や会陰部ケア困難の改善)が得られた症例は 14 例 / 23 例, 睡眠障害(全身筋緊張による夜間中途覚醒)の改善が得られた症例は 8 例 / 23 例だった(表 4)。

### 代表症例

12 歳 2 か月, 男児: GMFCS レベル V (図 1)  
低出生体重で出生した混合型四肢麻痺。四肢体幹の筋緊張亢進により夜間不眠, 車椅子座位困難で, 既往歴に全身筋緊張亢進による横紋筋融解症で急性腎不全となり, 入院加療歴あり。トリアル施行で体幹と四肢の筋緊張軽減が得られ, 12 歳 2 か月時に ITB ポンプ埋め込み術施行。手術

表 4. 症例一覧：術後改善点

症例	性別	基礎疾患	GMFCS	埋め込み年齢	手術時体重 (kg)	手術時身長 (cm)	カテ先位置	安楽な姿勢の獲得	介護負担の軽減	睡眠障害の改善
1	男	MELAS	5	15歳6か月	23	136	Th7	+	+	
2	男	HIE	5	8歳9か月	22	130	Th3			
3	女	CP	4	15歳0か月	21.3	130	C7		+	
4	男	CP	5	12歳5か月	14.6	107	Th3	+		
5	男	MELAS	5	15歳1か月	16.5	135	Th5	+	+	+
6	男	CP	5	12歳6か月	13.8	105	Th6	+		+
7	男	CP	5	15歳8か月	17	132	Th6	+	+	
8	男	ICH	5	9歳8か月	29	128	Th6	+		
9	男	CP	5	5歳5か月	18	108	Th5		+	+
10	男	CP	4	6歳5か月	19.6	106	Th5	+	+	
11	女	CP	5	4歳3か月	16	96	Th6		+	
12	女	CP	5	9歳1か月	25.5	127	Th5	+		+
13	女	ICH	5	10歳8か月	19.8	123	L3	+	+	
14	男	CP	5	4歳8か月	15	100	Th5	+	+	
15	男	CP	5	12歳3か月	14	104	Th6	+		+
16	男	HIE	5	5歳10か月	11	100	Th5	+		
17	女	MELAS	5	19歳3か月	17.6	122	Th6		+	
18	女	CP	5	6歳3か月	13	104	Th7	+	+	
19	男	HIE	5	3歳11か月	12.1	96	Th3	+	+	
20	男	CP	5	5歳7か月	12.3	99	Th1	+		+
21	男	CP	5	4歳3か月	14	104	Th2	+		
22	女	CP	5	5歳7か月	12.6	96	Th5	+	+	+
23	男	CP	5	15歳8か月	20.4	107	Th1	+	+	+

MELAS: Mitochondrial myopathy, Encephalopathy, Lactic Acidosis, Stroke-like episodes (ミトコンドリア脳筋症)

HIE: Hypoxic-Ischemic Encephalopathy (低酸素性虚血性脳症)

CP: Cerebral Palsy (脳性麻痺)

ICH: Intracranial Hemorrhage (脳出血後遺症)

時身長 104 cm, 体重 14 kg であった。母親からの ITB 療法後の改善点として、夜間もよく眠るようになった、笑顔で機嫌がいい、車椅子に長時間安定して座れる、体幹反り返りが改善し仰臥位ができるようになった、術前常に顔を右に向けていたが術後正中も向けるようになった、排尿がスムーズになっていることが挙げられた。

### 考 察

ポンプの設置には体重 15 kg 以上が望ましいとされるが、身長 100 cm 程度でポンプ設置可能な腹部のスペースがあれば、体重 15 kg 以下でもポ

ンプ設置は可能である<sup>34)</sup>。重度心身障害児では皮下脂肪が少ない痩せの症例が多く、ポンプは目立たないように全例で筋膜下に設置している。筋膜下設置最大の利点は感染抵抗性で、ポンプの物理的バリアとポンプ周囲が血流豊富な筋組織に覆われていることで感染を減らすことができる。すなわち、浅層感染を合併しても、筋膜があることで感染の波及を防ぐことができ、血流が豊富であれば細菌に対して抵抗力を発揮する。筋膜下設置の欠点は手術手技が煩雑なことだけで、小児では筋膜下設置が望ましいと考える。胃瘻造設はポンプ設置に支障はなかったが、重度側弯症例では凹

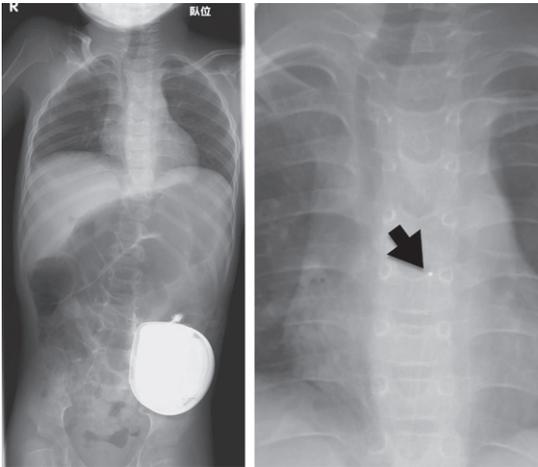


図 1. 代表症例術後 X 線  
a: 術後 X 線  
b: カテーテル位置 Th5

側は上前腸骨棘と下部肋骨の距離が狭くて埋め込みスペースが小さく、凸側は椎体によりポンプ設置位置に限られるが、術前に十分な診察とポンプ設置位置の検討が必要である。基本的にはポンプ設置スペースが十分ある側に設置することにして

いる。  
カテーテル先留置の高位レベルに関して Albright らは<sup>2)</sup>下肢症状が主体の場合には髄腔内カテーテル先端を下位胸椎レベル(Th10~12)に留置し、四肢に症状が及ぶ場合は髄腔内カテーテル先端を頸椎または上部胸椎レベル(C5~Th2)に、さらに体幹に及ぶものや二次性ジストニアの場合は上位頸椎(C1~4)に留置することを推奨し、内山らは<sup>6)</sup>カテーテルを下位胸椎レベルに留置した場合は、上肢への効果は有意差を得るほどの改善は認めず、上肢・体幹痙縮および二次性の全身性ジストニア症例に対しての頸椎レベルへのカテーテル留置により上下肢・体幹の筋緊張が軽減し、上下肢痙縮は有意差をもって改善した結果から、髄腔内カテーテルは上肢および体幹に痙縮が認められる場合は頸椎もしくは胸椎のできるだけ高い位置に留置することが有用であることを報告している。

我々は頸椎・上位胸椎レベル設置の場合は下肢痙縮軽減に乏しい症例を経験することがあり、治

療目標に合わせて医師の裁量で高位レベルを決めることができる。すなわち、体幹反り返りや上肢の痙縮軽減を得たい症例の場合は、カテーテル位置を上位胸椎とし、一方で下肢痙縮が主症状の症例ではカテーテル先を中位から下位胸椎に設置している。また、小児の場合は成長するに従って相対的にカテーテル先高位レベルが下がってくることを経験するので、症例ごとに成長を見越してカテーテル設置位置を検討する必要があり、安全性および十分な管理が必要である。

ITB 療法により四肢・体幹の筋緊張軽減が得られて重度心身障害児の QOL が改善し、介護者の負担軽減を得られたが、アテトーゼやジストニアなどの不随意的筋緊張や外的刺激による筋緊張は残存する症例が多く、内服薬や坐薬の屯用使用やボツリヌス療法の併用を症例ごとに検討する必要がある。

今後の課題は ITB 療法の効果判定方法で、本人と介護者から得た改善点を客観的な指標を用いて報告していく必要があり、模索中である。現時点では最長 5 年の短期成績であり、幸いにもカテーテル関連合併症やポンプトラブル、感染による抜去症例を認めなかったが、引き続き注意深く経過観察する必要があると考える。

## 結 語

重度心身障害児に対する ITB 療法によって安楽な姿勢の獲得、睡眠障害の改善、更衣や移動など介護負担の軽減を得ることができた。

## 文献

- 1) 栗國敦男, 金城 健, 上原敏則ほか: 脳性麻痺児の痙縮に対する選択的後根切断術. 別冊整形外科 64 : 218-222, 2013.
- 2) Albright AL, Turner M, Pattisapu JV : Best-practice surgical techniques for intrathecal baclofen therapy. J Neurosurg 104(4 Suppl) : 233-239, 2006.
- 3) 金城 健, 栗國敦男, 安里 隆ほか: 当院における重度心身障害児に対する ITB 療法の治療経験. 日本脳性麻痺の外科研究会誌 27 : 117-120, 2017.
- 4) 久保田雅也, 寺嶋 宙, 柏井洋文: バクロフェン

- 持続髄注療法. 小児内科 47(11) : 1960-1964, 2015.
- 5) 日本リハビリテーション医学会診療ガイドライン委員会 脳性麻痺リハビリテーションガイドライン策定委員会 : 脳性麻痺リハビリテーションガイドライン, 医学書院, 東京, 121-122, 2009.
  - 6) 内山卓也, 加藤天美 : ITB による痙縮治療の適応と効果. 脳外誌 25(2) : 149-156, 2016.
  - 7) 山口広貴, 加来美紀, 鶴屋英里ほか : ギャバロン髄注(バクロフェン)シンクロメッドポンプシステム 特定使用成績調査—最終報告—. 臨床医薬 32(6) : 469-509, 2016.

## 二分脊椎における膝関節屈曲拘縮に対しエイトプレートを用いた前方骨端線発育抑制術を行った3例の検討

北九州市立総合療育センター 整形外科

畑野 美穂子・松尾 圭介・河村 好香  
畑野 崇・鳥越 清之

**要旨** 【目的】二分脊椎患者における膝関節屈曲拘縮において、近年、エイトプレートを用いて前方骨端線発育抑制術を行っており、3例の短期成績を報告する。【対象と方法】2013年から2016年までに当センターにて二分脊椎患者で膝関節屈曲拘縮に対してエイトプレートを用いた3例(男児1例、女児2例)。手術時年齢は9~12歳(平均10歳)、術後経過観察期間は1年2か月~3年9か月(平均2年9か月)であった。各々に対し、手術前、最終観察時の膝関節可動域を比較した。【結果】3例とも術前に認めていた膝関節伸展制限およびcrouch gait(しゃがみ肢位)が改善した。2例は術後2年、1例は術後3年で抜釘となった。【結論】二分脊椎患者の膝関節屈曲拘縮の変形矯正を行う目的でエイトプレートを使用し大腿骨および脛骨前方の骨端線発育抑制術を行った。エイトプレートでの治療は筋解離術を最小限にでき、筋力を温存しつつ膝伸展が再獲得できる方法として期待される。

### はじめに

二分脊椎患者は麻痺レベルによってさまざまな下肢の運動障害を有する。膝関節の屈曲拘縮は二分脊椎患者にとって立位や歩行を困難にさせ、ADLを低下させる原因の一つになり得る<sup>1)</sup>。

膝関節屈曲拘縮の治療目的で、筋解離術や骨切り術等での治療が施行されてきた。しかし、二分脊椎患者では、疾患の特性として筋力のバランスが不良であり、筋を扱う手術では十分な拘縮改善ができない症例もあることや骨切り術後の後療法で長期間の免荷を行うと筋力回復の遅延を来し、歩行能力を低下させてしまうことが多かった。内反膝や外反膝に対してステーブルを使用した骨端成長抑制術も施行されていた<sup>2)</sup>が、ステーブルの脱転や矯正力不足の問題点も多く、最近エイトプ

レート(Orthofix)による骨端線抑制術を行う施設が増えてきている。エイトプレートは2004年Stevensらがtension band plateとして開発、2007年に報告した方法<sup>5)6)</sup>で、膝関節屈曲拘縮に対して脳性麻痺<sup>7)</sup>、先天性多発性関節拘縮症<sup>3)</sup>、二分脊椎患者<sup>8)</sup>における使用例も多数報告されている。日本では2011年末から使用が可能となり、当院でも麻痺性疾患の膝関節屈曲拘縮の治療目的で2012年よりエイトプレートを使用している。今回、二分脊椎患者においてエイトプレートを用いて前方骨端線発育抑制術を行い、膝関節屈曲拘縮に対する治療を行った3例について以下に報告する。

### 対象と方法

2013~2016年に膝の屈曲拘縮に対してエイト

**Key words** : spina bifida(二分脊椎), eight plate(エイトプレート), flexion contracture(屈曲拘縮), epiphysiodesis(骨端線発育抑制), Sharrard classification(Sharrard分類)

**連絡先** : 〒 802-0803 福岡県北九州市小倉南区春ヶ丘 10-2 北九州市立総合療育センター 畑野美穂子  
電話(093)922-5596

**受付日** : 2018年3月14日

表 1. 全症例まとめ

	性別	手術時年齢	術後経過観察期間	Sharrard分類	* Hoffer分類	歩行補助具
症例 1	女	9歳	1年2か月	4群	CA	AFO
症例 2	女	8歳	3年8か月	3群	HA	AFO
症例 3	男	12歳	3年9か月	4群	CA	AFO

\* Hoffer 分類

CA : Community Ambulator

HA : Household Ambulator

プレートを用いて前方骨端線発育抑制術を行った二分脊椎患者3例5膝を対象とした(表1)。性別は男児1例2膝, 女児2例3膝で, Sharrard分類の内訳はⅢ群が1人, Ⅳ群が2人であった。Hoffer分類の移動機能はSharrardⅢ群の1人はHousehold ambulatorでSharrard分類Ⅳ群の2人はAFO(Ankle Foot Orthosis: 短下肢装具)を装着しCommunity ambulatorであった。手術時年齢は9~12歳(平均10歳), 術後経過観察期間は1年~3年9か月(平均2年9か月)であった。適応年齢に関しては, 8歳前後から成長終了まで2年程度の猶予のある年齢の患者を対象としている。手術方法は, 大腿骨遠位骨端線と脛骨近位骨端線の内側と外側のやや前方に3~4 cmの皮切を加え, 関節包を切開して骨膜上にエイトプレートを設置した。エイトプレート挿入時の注意点は, 関節包まで切離し, プレートと骨膜の間に関節包の挟み込みのないように注意し, 挿入後, 創閉鎖前に必ず膝関節屈曲伸展を行い, 可動域制限のないことを確認している。プレートは12 mmと16 mm, スクリューは16 mm, 24 mm, 32 mmがあり各々症例に合わせて選択した。膝関節の関節可動域, レントゲン撮影を行い, 術前と最終調査時での比較を行った。

### 結 果

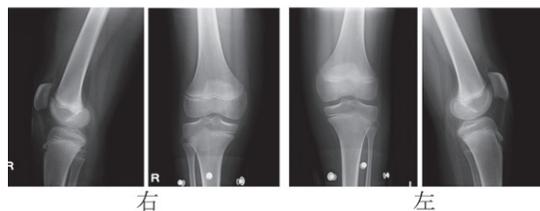
**症例 1:** 手術時年齢は9歳, Sharrard分類Ⅳ群で, AFO装着下に独歩可能であった。膝関節可動域は, 術前に伸展が両側-20°であったが, 最終調査時(術後1年2か月), 右0°, 左-5°と

表 2. 手術前と最終調査時の膝関節可動域

	最大屈曲(°)				最大伸展(°)			
	術前		最終調査時		術前		最終調査時	
	右	左	右	左	右	左	右	左
症例 1	155	160	155	160	-20	-20	0	-5
症例 2	150	150	150	150	-10	-25	-5	0
症例 3	160	160	160	160	-20	-20	0	0

症例 2 の右膝は非手術側

a.



b.



図 1. X線像

a : 手術前のレントゲン写真

b : 手術後約1年2か月のレントゲン写真, エイトプレートのハの字が拡大し最大伸展位で0°が得られている

なった(表2)。X線にても最終調査時には膝関節屈曲拘縮が明らかに改善されていた(図1-a, b)。最終調査時の1年2か月時点では抜釘は行っていない。

**症例 2:** 手術時年齢は8歳, Sharrard分類Ⅲ群でAFO装着下に介助歩行が可能であった。膝関節可動域は, 術前に伸展が右-10°, 左-25°であり, 左側のみ手術を行った。術後3年6か月に抜釘を行った。最終調査時(術後3年8か月)の時点で手術側の左側の可動域は0°であった(表2)。X線では膝関節屈曲拘縮の改善を認めた。

**症例 3:** 手術時年齢は12歳, Sharrard分類Ⅳ群でAFO装着下に独歩可能であった。抜釘は術

後2年8か月に行った。関節可動域は、術前に伸展が両側 $-20^{\circ}$ であったが、最終調査時(術後3年9か月)の時点で両側 $0^{\circ}$ となった(表2)。X線では最終調査時には膝関節伸展が可能となった。全例X線にて明らかな骨形態変化は認められなかった。すべての症例で最終調査時には、手術前に比較して立位の膝関節屈曲位が改善し、歩行時に全周期で認めていた膝関節の過屈曲が改善した。

## 考 察

二分脊椎患者では、麻痺レベルによってさまざまな下肢の運動障害を示し、特に立位・歩行可能な患者では、膝関節屈曲拘縮は予防、改善すべき問題である。二分脊椎患者のSharrard分類Ⅲ群からⅤ群について同じ麻痺レベルで比較したところ、膝関節屈曲拘縮 $20^{\circ}$ 未満の患者の方が歩行可能である患者数が多いと報告されている<sup>9)</sup>。また、二分脊椎患者にかかわらず、膝関節屈曲拘縮角度が進行すると、歩行時の酸素消費量が増加するといった報告もあり<sup>4)</sup>、膝関節屈曲拘縮は歩行時に過剰なエネルギーを必要とし、疲労の原因ともなるため、歩行能力を低下させる原因ともなる。今回我々の調査した3例のうち2例は歩行可能な患者であり、術後の状況として主観的ではあるが、患者本人の満足度は高い傾向にあった。また、膝関節屈曲拘縮に対しての手術は、膝関節周囲の筋解離等の軟部組織手術を単独で行う治療や骨切りを単独で行う治療ないしは組み合わせで行う治療の選択肢もあるが、術後に長期間の免荷期間を要する場合もあり、筋力低下を招き、運動レベルの低下、歩行能力の低下が危惧される。エイトプレートによる前方骨端線抑制は、膝関節周囲の筋にダメージを及ぼす影響も少なく、膝関節の屈曲拘縮が改善される治療法であり、今までに起きた合併症としては、脳性麻痺の膝関節屈曲拘縮に対しての手術症例ではあるが、術後6か月でプレートのバックアウトを認めた症例が1例のみであり、その他のエイトプレート手術症例は術後経過

も問題なく、膝関節屈曲拘縮の改善を認めている。エイトプレートでの治療は、筋力を低下させるリスクが少なく、術後の回復も早くなり、二分脊椎患者にとって膝関節屈曲拘縮の治療に有用であると考えられた。

## 結 語

二分脊椎の膝関節屈曲拘縮に対して、エイトプレートによる大腿骨・脛骨前方の成長抑制で治療を行った3症例を報告した。3症例とも緩徐な膝関節屈曲拘縮の改善が得られ、エイトプレートは二分脊椎の膝関節屈曲拘縮に対して有用な治療法であると考えられた。

## 文 献

- 1) 芳賀信彦：二分脊椎児に対するリハビリテーションの現況。Jpn J Rehabil Med 46 : 711-720, 2009.
- 2) Kramer A, Stevens PM : Anterior femoral stapling. J Pediatr Orthop 21 : 804-807, 2001.
- 3) Palocaren T, Thabet AM, Rogers K et al : Anterior distal femoral stapling for correcting knee flexion contracture in children with arthrogryposis-preliminary result. J Pediatr Orthop 30 : 169-173, 2010.
- 4) Rueter K, Pierre M : Energy cost and gait characteristics of flexed knee ambulation. Atlas of Orthotics 154-155, 1985.
- 5) Stevens PM : Guided growth for angular correction. J Pediatr Orthop 27 : 253-259, 2007.
- 6) Stevens PM, Klatt JB : Guided growth for pathological physes. J Pediatr Orthop 28 : 632-939, 2008.
- 7) 坂本和也, 松尾圭介, 河村好香ほか：膝関節屈曲拘縮に対する eight plate を用いた変形矯正。日小整会誌 25(2) : 287-292, 2016.
- 8) Spiro AS, Babin K, Lipovac S : Anterior femoral epiphysiodesis for the treatment of fixed knee flexion deformity in spina bifida patients. J Pediatr Orthop 30 : 858-862, 2010.
- 9) Wright JG, Menelaus MB, Broughton NS et al : Natural history of knee contractures in myelomeningocele. J Pediatr Orthop 11 : 725-730, 1991.

## 当院における DDH に対する overhead traction 法の短期治療成績

西山正紀<sup>1)</sup>・山田 総平<sup>1)</sup>・中野 祥子<sup>2)</sup>  
西村 淑子<sup>2)</sup>・二井 英二<sup>3)</sup>

1) 国立病院機構三重病院 整形外科

2) 三重県立子ども心身発達医療センター 整形外科

3) 鈴鹿医療科学大学

**要 旨** 我々は、Developmental Dysplasia of the Hip (DDH) に対し、Rb 装具で整復されない例や、高位脱臼例、初診時に生後7か月を超える場合は、overhead traction 法(以下、OHT 法)を行っている。当院の OHT 法の治療法、治療成績について報告する。対象は、平成17年4月から平成29年3月までに、国立三重病院で OHT 法を開始した30例30関節である。OHT 法の開始時年齢は、生後6か月から1歳10か月、平均9.1か月であった。水平牽引は約4週間、垂直外転牽引は約1週間、開排位膝上牽引は Rb 装具装着下、重錘を漸減して整復に導き、中心化の進行を確認しつつ約2週間施行した。最後に、ローレンツ型開排装具を装着して退院とした。OHT 法により30例30関節に整復が得られ、大腿骨頭壊死は生じていない。Rb 装具装着下に開排位膝上牽引期間を延長することで、入院期間は長期となるが、低侵襲で安全に治療を行うことができた。

### はじめに

我々は、Developmental Dysplasia of the Hip (DDH) に対しリーメンビュージェル(Rb)装具で整復されない例や、山室 a 値 6 mm 未満の高位脱臼例、開排制限 30° 以下に改善しない脱臼例、初診時に生後7か月を超える場合は、overhead traction(OHT)法を行っている。当院の OHT 法、治療成績について報告する。

### 対象と方法

対象は、国立三重病院で小児整形外科治療を開始した平成17年4月から平成29年3月までの12年間に、奇形性脱臼や麻痺性脱臼を除いて OHT 法を施行した、DDH の30例30関節、男子3例、女子27例である。OHT 法の開始時年齢

は、生後6か月から1歳10か月、平均9.1か月であった。

治療歴は Rb 法不成功の13例、Rb 法適応外(山室 a 値 6 mm 未満の高位脱臼例、開排制限 30° 以上の脱臼例)の乳児10例、歩行開始後に脱臼と判明した幼児7例であった。

OHT 法は、服部らの名古屋大学式を基本に、開排位膝上牽引に一部変更を加えて行っている。牽引は、体重 7 kg 以下は 1.5 kg、体重 7 kg 以上は 2.0 kg、歩行を始めた幼児は 2.5 kg を目安とした。

水平牽引は約4週間行い(図1-a)、骨頭骨端核が Y 軟骨線より下降しない場合は、重錘の増量、水平牽引期間を延長した。

垂直外転牽引は約1週間で、垂直牽引(図1-b)から屈曲を強め、外転角は1日に10°ずつ上げ、

**Key words** : developmental dysplasia of the hip (發育性股関節形成不全), overhead traction (オーバーヘッド牽引治療), non-surgical reduction (非観血的整復)

連絡先 : 〒514-0125 三重県津市大里窪田町 357 国立病院機構三重病院 整形外科 西山正紀 電話(059)232-2531  
受付日 : 2018年2月18日

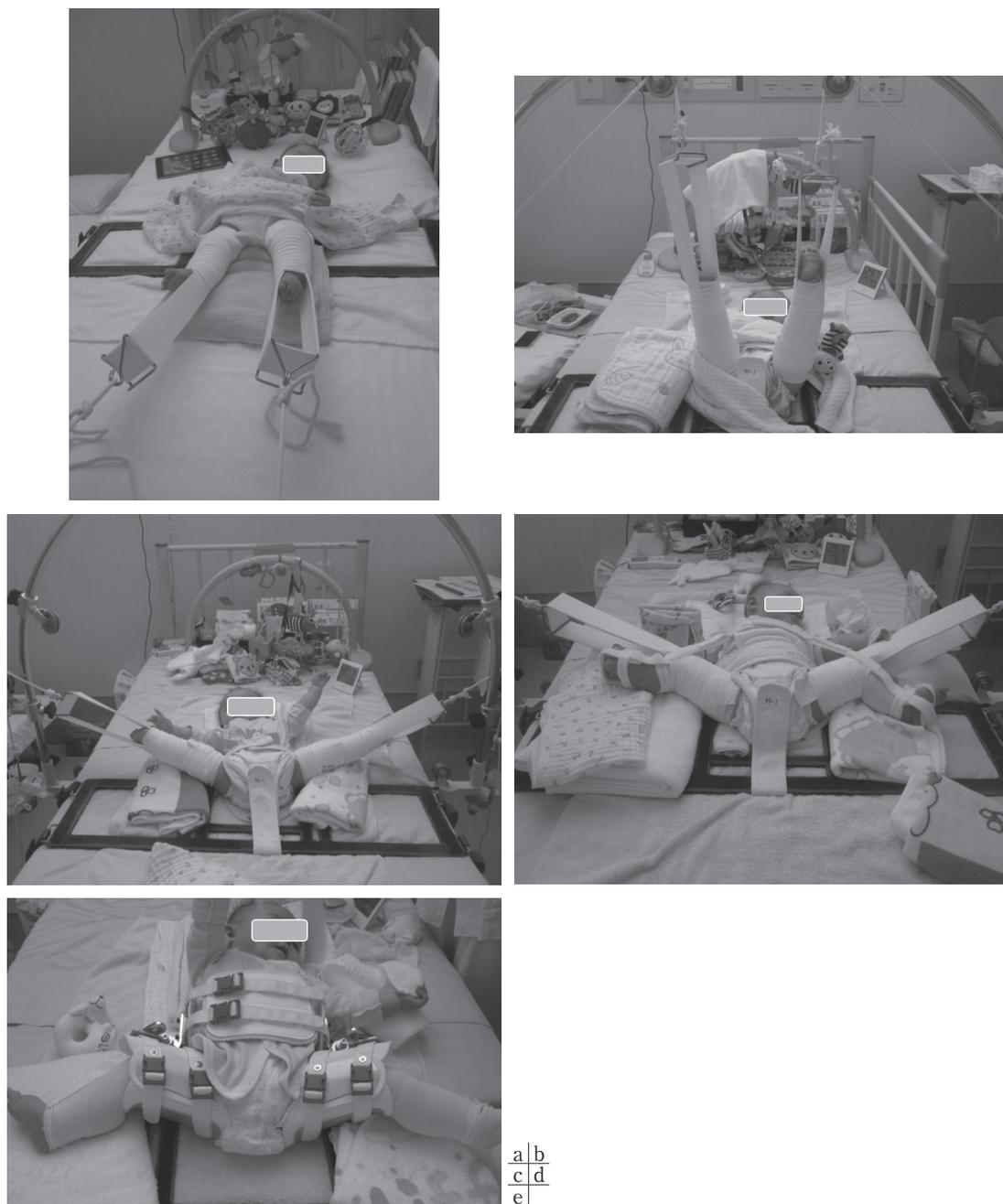


図 1. OHT 法

- a: 水平牽引 約 4 週間施行
- b: 垂直外転牽引 1 日目 屈曲 90° 外転 10°
- c: 垂直外転牽引 7 日目 屈曲 110° 外転 70°
- d: 開排位膝上牽引 Rb 装具装着下に約 2 週間施行
- e: 開排装具 OHT 法後に約 4 か月間装着

最大外転 70°, 屈曲 110° とした (図 1-c).

最終牽引の開排位膝上牽引 (図 1-d) は, Rb 装

具装着下に, 重錘を 1 日約 0.3 kg ずつ, 最小 0.5 kg まで減量して整復に導き, 中心化の進行を確

認しつつ約 2 週間施行した。この間に開排装具の採寸を行い、牽引の最後に、覚醒状態で透視下動態撮影にて安定性を評価し、2 週間で完成したローレンツ型開排装具を終日装着した(図 1-e)。抱き上げを含めて慎重に離床を進め、安全を確認して退院とした。

治療中の画像診断には、単純 X 線像と超音波水平断層像を用いて評価した。開排装具は角度調節可能で、約 4 か月間装着し、最初の 2 か月は開排位のまま、装具は終日着用で入浴禁止とした。その後、屈曲角度を減じていき、徐々にカフも上げて緩めに装着した。

## 結 果

OHT 法により Rb 法不成功の 13 例、Rb 法適応外の乳児 10 例、歩行開始後に脱臼と判明した幼児 7 例の 30 例 30 関節全例に非観血的な整復が得られ、再脱臼は見られなかった。開排位膝上牽引期間は平均 17.5 日(15~28 日)、入院期間は平均 2 か月 1 週(1 か月 3 週~3 か月 1 週)であった。評価時年齢平均 4 歳 7 か月で大腿骨頭壊死は生じていない。

## 代表症例

生後 1 か月、女兒、左 DDH

**現病歴:** 生後 1 か月で、著明な開排制限のために当院紹介となった。日常生活指導を行うが、開排制限が左 60° から 45° までにしか改善しないため、Rb 法を施行せずに生後 6 か月時に(図 2)、OHT 法を施行した。

水平牽引 4 週間、垂直外転牽引 1 週間で外転 70° 屈曲 110° となり、骨頭は入口部外側に位置した。開排位膝上牽引とし、Rb 装具を装着して、重錘を両側 0.3 kg 減量した。以後も 1 日 0.3 kg で、0.5 kg まで減量を進めた。

開排牽引 2 日目、機嫌は悪く、左鼠径部が腫脹し、左膝を動かさず、整復位を確認し、開排装具の採寸を行った。

開排牽引 4 日目、機嫌は回復し、左膝を伸展し始めた。



図 2. OHT 法前の生後 6 か月時、女兒の X 線像

開排牽引 5 日目、膝の屈伸は増えた。超音波水平断層像では整復位であるが、介在物があり、左の恥骨大腿骨頭間距離が約 3 mm 長い(図 3-a)。

開排牽引 12 日目で約 2 mm 長いが、骨頭の中心化は進行した(図 3-b)。

開排牽引 15 日目、Rb 装具を緩めて覚醒状態で動態撮影を行った。外転 45°、屈曲 45° に減じても適合は良好で(図 4)、牽引を終了して開排装具を装着した。

開排装具 4 日目、整復から約 2.5 週で、超音波にて介在物ほぼ消失し、恥骨大腿骨頭間距離の左右差はなくなり(図 3-c)、退院となった。

介在物の縮小が早期に順調に進み、安定性が得られた、Rb 法適応外の症例である。

## 考 察

難治性 DDH に対して行われる牽引療法は、徒手整復前の前治療<sup>4)</sup>と、整復に導くための治療に大別される<sup>3)6)7)</sup>。OHT 法<sup>1)</sup>は、DDH のうち、Rb 装具で整復されない例や Rb 法適応外の症例での治療に有用である。我々は、難治例に対し、整復を得るために服部らの名大式 OHT 法<sup>2)</sup>を基本的に治療を行っている<sup>5)</sup>。

服部ら<sup>2)</sup>は、OHT 法で整復後、ギプス固定を行った翌日に脱臼した難治例に対し、再度整復位での安定化のため外転位膝上牽引を 2 週間続け、再度ギプス固定を行って整復位を保持できたことを報告した。開排位持続牽引整復法の鈴木<sup>6)</sup>は、

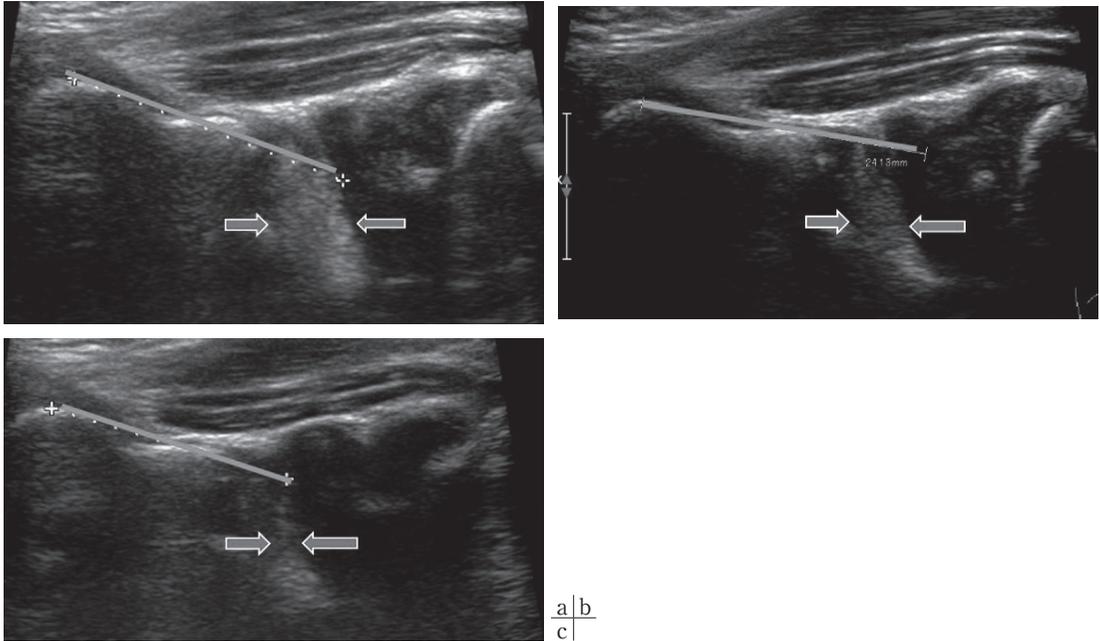


図 3. 開排位水平断超音波断層像での骨頭中心化の進行(直線)と介在物縮小(矢印)

- a : 開排位膝上牽引 5 日目
- b : 開排位膝上牽引 12 日目
- c : 開排装具, 整復から約 2.5 週



図 4. 開排位膝上牽引終了時透視下動態撮影像屈曲 45° 外転 45°

第 3 段階の骨頭侵入過程で, 約 1 週間かけて重錘を減らし, 骨頭の求心性位を高め, 第 4 段階のギプス固定により, さらに骨頭が臼蓋底に侵入し, 安定化するとしている. 整復後の沈み込みを促す期間に安定性が向上し, 牽引, ギプスから装具に移行している.

我々は, 開排位膝上牽引で重錘を減量して骨頭を整復し, 関節内介在物が縮小して骨頭が臼蓋に

沈み込んでいく, 特に不安定な初期に牽引臥床を保ち, 2 週間待機した. そして, 以前に整復後再脱臼した経験から, 開排牽引中 Rb 装具を装着して再脱臼の防止に努めた. Rb 法適応外の提示例のごとく, 介在物の消退の早い例では, この間にほぼ消失することもある.

Rb 不成功例, 歩行開始後の幼児例においても全例整復され, 再脱臼はみられなかった. 中心化に期間を要する例においても開排位膝上牽引で整復後, 最初の 2 週間を待機, 維持し, 慎重にローレンツ型開排装具に移行すれば, 入院臥床期間は長くなるが, 低侵襲で再脱臼せず治療を行える可能性がある.

### 結 語

- 1) OHT 法により 30 例全例に整復が得られ, 大腿骨頭壊死は生じていない.
- 2) 約 2 週間の開排位膝上牽引で中心化を促し, 慎重にローレンツ型開排装具に移行することで, 低侵襲に治療を行える可能性がある.

文献

- 1) Daoud A, Saighi-Bououina A : Congenital dislocation of the hip in the older child. The effectiveness of overhead traction. *J Bone Joint Surg* **78(A)** : 30-40, 1996.
- 2) 服部 義, 北小路隆彦, 鬼頭浩史 : 難治性先天性股関節脱臼の治療—OHT 法による保存的整復へのこだわり. *日小整会誌* **17(2)** : 313-318, 2008.
- 3) 石田勝正 : Over-head traction の改良法. *整形外科 Mook* **25** : 57-66, 1983.
- 4) Langenskiold A, Paavilainen T : The effect of prereduction traction on the results of closed reduction of developmental dislocation of the hip. *J Pediatr Orthop* **20** : 471-474, 2000.
- 5) 西山正紀, 山田総平, 中野祥子 : 先天性股関節脱臼に対する overhead traction 法の治療経験. *臨整外* **47(11)** : 1113-1117, 2012.
- 6) 鈴木茂夫 : 開排位持続牽引整復法. *整形外科* **56** : 859-864, 2005.
- 7) 山田順亮 : 私が体験した先天性股関節脱臼治療法の変遷. *別冊整形外科* **32** : 2-7, 1997.

## 小児の筋電義手の訓練と公費支給に至るまでの課題を考える

山本和華<sup>1)</sup>・伊藤順一<sup>1)</sup>・藤原清香<sup>2)</sup>・小崎慶介<sup>1)</sup>  
北村大祐<sup>1)</sup>・田中紗代<sup>1)</sup>・田中弘志<sup>1)</sup>

1)心身障害児総合医療療育センター 整形外科

2)東京大学医学部附属病院 リハビリテーション科

**要旨** 国内で小児の筋電義手訓練を実施している施設は限られており、障害者総合支援法で小児に対して筋電義手が支給された例は少ない。当センターは公設民営の療育施設であるが、先天性上肢形成不全児の保護者からの要望を受け、小児の筋電義手訓練のプログラムに着手した。障害者総合支援法で支給が下りるには筋電義手が日常生活で使いこなせることが条件とされる。だが、訓練過程で使用する筋電義手は、費用の問題等もあり、訓練を希望するすべての患児へ提供することは困難である。センターでは備品として購入し貸与可能としたが、プログラムを同時期に受け入れる人数は制限している。また、現状の支給条件をクリアするために、効率的な訓練が必要と考え、医療型障害児入所施設の特徴を活かした入院集中訓練プログラムを検討している。東京都で小児に対し筋電義手の公費支給がなされた自治体は数例しかなく、医療者側と自治体との間、また、自治体間でも情報が不足していることが分かった。申請を行う時期とその際に医療者側が提示すべき内容についても検討した。

### 目的

国内では小児の筋電義手訓練を実施している施設は限られており、障害者総合支援法の下で小児に対して筋電義手が支給された例は少ない。今回、当センターは先天性上肢形成不全児の保護者からの要望を受け、小児の筋電義手訓練に着手した。本稿では、公設民営の療育施設が小児の筋電義手訓練に取り組んだ結果と、公費支給に至るまでの課題について考察したので報告する。

### 対象・方法

心身障害児総合医療療育センターは、東京都板橋区にある医療型障害児入所施設で、心身の発達に問題をもつか障害の疑いのある乳幼児の診断と

早期訓練指導、小児整形外科疾患の診察と手術を含む治療を行っている。2012年9月から、小児に対する筋電義手訓練プログラムを作成し運用を開始した。対象は、筋電義手を含めた義手訓練を希望する先天性上肢形成不全児とした。訓練の流れは図1に示すように、医師が初診時に訓練の流れについてオリエンテーションを行い、同意書を取った後に、上肢機能の評価と計測を実施する。ここで作業療法を処方し、初回リハビリテーションを開始とした。訓練は外来で実施し、頻度は月2回とした。訓練は、患肢に重錘50~200gを装着させ患肢筋力増強を図った。これは筋電採取可能となる筋ボリュームを得ること、かつ筋電義手の重量に耐え得る筋力を獲得するためである。この訓練と並行し、装飾義手の作製を行った。また、

**Key words** : myoelectric prosthetic hand(筋電義手), pediatric(小児), rehabilitation(訓練)

**連絡先** : 〒 173-0073 東京都板橋区小茂根 1-1-10 心身障害児総合医療療育センター 整形外科 山本和華  
電話 (03)3974-2146

**受付日** : 2018年3月8日

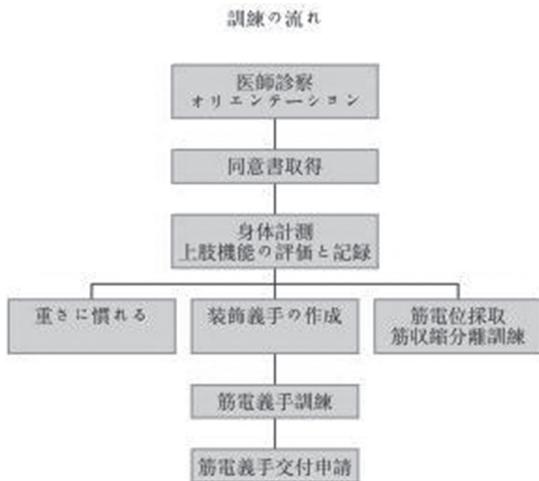


図 1. 筋電義手訓練の流れ

筋電位採取と筋収縮分離訓練を Myoboy<sup>®</sup>(Ottobock 社)を用いて段階的に行った。これらの訓練の後、実際に筋電義手を訓練時および日常生活で装着し実用化を図った。最後に、十分に操作可能となった段階で交付申請を行うこととした。

## 結 果

2013 年から 2017 年 10 月までにプログラムを開始した児は 4 名であり、初診時年齢は 0 歳 11 か月～2 歳 9 か月であった。4 症例中 3 例が筋電義手を使用した訓練に至った。1 症例は、保護者の希望で筋電義手を使用した訓練を実施する前に転院となった。1 症例は筋電義手訓練を 1 年間実施後、他院に転院となった。結果として、2 症例が当センターで筋電義手を使用した訓練を継続している。

ここでは最初に筋電義手を使用開始した 2 例の経過について報告する。症例 1 は初診時年齢 2 歳 2 か月、先天性横軸形成障害(手根型)の女児で、手根骨が触知可能であり、かつ手関節の掌背屈が自動運動で 20° 可能であった。症例 2 は初診時年齢 2 歳 9 か月、左先天性横軸形成障害(前腕型)の男児で、手関節は欠損していたが、自動運動で肘関節屈曲 120°、伸展 0° 可能であった。それぞれ精神運動発達遅滞はなかった。症例 1 と症例 2 は訓練を開始した時期はほぼ同時であったが、症例

1 は訓練開始後 7 か月で筋電義手の使用を開始、症例 2 は訓練開始後 2 年 1 か月で筋電義手の使用を開始できた。この差は当センターの筋電義手のレンタル制度の事情により生じた。症例 1 は 1 年間の期限で、Ottobock 社より筋電義手のパーツを借用することができた。ただし、借用できるパーツには限りがあったため、症例 2 は症例 1 の訓練期間中は、筋電義手訓練や筋電義手の使用を待つこととなった。そこで症例 2 は、待機期間中は作業性の高い手先具である Greek series infant hand<sup>®</sup>(TRS 社)を使用し義手での活動内容の拡大を図るとともに、能動義手訓練も施行した。幸い、手先具の使用状況を分析することで、筋電義手に期待する機能を明らかにすることができた。手先具で把持するためには、その母指と示指の間を開くのに必ず健側か介助者に援助してもらう必要がある。そのため、ひも通しのような繰り返しの把持と解放を繰り返す作業では手間がかかり、意欲が維持できなかった。また、把持してもその力が弱く、把持したものが落ちてしまう、位置や向きがずれてしまうといったことが、縄跳びやトランプ、ハサミ等の工具を使った空間活動でたびたびみられた。そのため、筋電義手には健側や介助者の援助がなくとも、義手の動きのみでものが把持できること、把持力が高く安定することが期待された。

症例 1 は 1 年間筋電義手を使用し良好な操作性が獲得できたため、公費による支給の申請を実施したが、筋電義手を常用する状態にないという判断で、受理されなかった。借用したパーツを返却後も装飾義手や手先具を用いて訓練を継続したが、通院困難となり転院となった。症例 2 は筋電義手の使用を開始して 2 年 5 か月で日常生活での使用が定着し、申請を予定している。

その間成長に伴いサイズが合わなくなり、2 回ソケットの再作製を必要とした。同時に使用していた手先具、装飾義手も活動性が上がるにつれ、修理や強度の向上を必要とした。

## 考 察

今回のプログラムを実施して、当センターにおける小児筋電義手訓練の問題点としては、①ハードの不足、②訓練頻度の不足、③支給申請の際の情報と前例症例の不足があると考察した。これら三つの課題の克服が、公費による支給を目指すことにおいて必要と考え、それぞれについて検討し対策を行った。

まず訓練用の筋電義手の確保であるが、当センターに対する寄付金と、センター内研究費を資金として、筋電義手ユニットを購入した。そこで筋電義手ユニットのレンタルは、装飾グローブ代3万円、筋電義手制作費(装具業者への支払い)3万円、保証金1万円で貸与できるようになった。貸与期間は原則的に1か月以上からとした。センター備品の筋電義手の購入により、本プログラムで筋電義手を使用した訓練は同時期に2名まで可能となった。現在、訓練プログラムの受け入れ人数は同時期に3名までに制限している。今後、筋電義手のパーツの購入あるいは借用できる数が増えれば、受け入れ人数を増やすことができると考えている。

症例1は義手パーツの借用期間が1年間であったことから、筋電義手を使用して1年で公費による支給申請を行った。結果として申請が受理されなかったが、1年の期間が十分な期間でなかったと考えている。この症例の経験から、訓練開始から学校や園活動等、日常生活での常時使用を目指す数年間かかること、また、その間には小児であるため成長に伴う調整や、多様化する活動内容に伴う破損による修理がたびたび必要であることも明らかになった。つまり、長期間にわたり本人用に近い形での訓練義手を提供できなければ、有効な訓練プログラムとしては十分でない。兵庫県立リハビリテーション中央病院は、「小児筋電バンク」を運用し、訓練用の筋電義手を貸与している<sup>2)</sup>。これは非常に有効なシステムであり、このような先例に倣ったシステムの構築が、ハードと訓練期間の確保において有効であると考えられる。

今後も各地域の患児が訓練を実施できるように、このような体制を整えられることが重要である。

訓練の効率化についてもここで考察する。当センターの今回のプログラムでの外来訓練頻度は月2回である。筋電義手訓練を実施している他施設の報告より、筋電義手導入時期は週2~3回の訓練が望ましいと考えているため、現状は頻度として十分とはいえない。しかし、都市型の医療型障害児入所施設では、外来訓練の頻度をこれ以上確保することは、対応すべき症例の数や作業療法士の人数も考慮すると限界がある。そこで、訓練の質と量を確保するために、今後は入院集中訓練を予定している。過去の報告では、入院集中訓練を実施すると1日の筋電義手装着時間が長い<sup>3)</sup>、とされている。入院訓練の時期としては、筋電義手の導入時期で、期間は就学前であれば4~8週間、就学後であれば休暇を利用して4週間程度が効果を見込めると考えている。さらに、医療型障害児入所施設の長所は、病棟内に保育士が常駐していることで、作業療法の時間以外にも病棟内で筋電義手を使用した活動が可能なことである。医師と作業療法士が連携して活動内容を指導し、保育士も訓練の担い手となることで、両親への指導も行えたと考えている。また、通院時間はおおむね2.5時間以内が適当と考えるが、これでは適切な外来訓練を実施できない患児も存在する。遠方の患児の入院集中訓練を受け入れ、情報提供をしつつ、地元の施設にフィードバックすることも検討している。

最後に、筋電義手申請に関わる情報の共有について考察する。筋電義手は、国内でも小児への支給事例がまだわずかで、その情報は共有されているとは言い難い。支給には筋電義手を使いこなせることが前提とされているが、実際に申請が受理されるかどうかは、最終的には自治体の判断となる。東京都においても支給例のある自治体は数例であり、ほとんどの自治体が支給の申請や相談すらも経験がないという現状である。この実態からは、自治体間での情報共有も不足していることも伺える。申請側も情報提供の工夫が必要である。

例えば、申請の際は訓練の記録や自宅と保育園等での画像記録を提出すると、実態の把握に役立ち、適切な判断材料になる。また、今回実際に申請を行った区の担当者より、申請受理の条件として、“日常生活活動で筋電義手が必須であること”との意見を得た。一方、過去の筋電義手を長期間にわたって使用している小児の報告例では、バイオリンやフラワーアレンジメント等での特殊な活動での使用<sup>1)</sup>や、1日1~2時間程度の使用<sup>4)</sup>と必ずしも日常生活動作での使用に限らない。この点から、上肢使用拡大によるQOLの向上と障害者総合支援法に基づくADL確保の立場には乖離があることも分かった。申請の際には、縄跳びや楽器演奏等が学校活動で必要であり、かつその活動を持続予定であることを示すことも有用であると考えている。

申請の時期としては、使用開始年齢にもよるが、就学時が一つの目安ではないだろうか。小児にとっては、義務教育の場で学習ないし活動の機会を損失しないことが今後の社会生活を送る上で重要と考えるためである。

筋電義手を小児に訓練させる意義としては、これまでの当センターの経験から、筋電義手を使用することで、安定した空間動作が両手で実施でき、ハサミを使用した工作活動等のさまざまな活動が可能となる現実を目の当たりにした。また、手先具を使用した活動状況と比較すると、これら

の活動の多くが、筋電義手を使用することで健側や介助者の援助なしで実施可能であり、活動を中断することなく行えた。他児と同様の労力と時間で活動を行えることは、筋電義手を導入する上で評価すべき点として印象に残った。今後も小児の筋電義手に関して、小児医療に関わる医療職はもちろんのこと、申請を受け付ける自治体の理解が深まることを願ってやまない。

## 結 論

小児の筋電義手訓練に取り組んだ。訓練用の筋電義手の確保、公費による支給については課題が多い。他施設や自治体と連携をとりつつ、訓練を希望する患児が訓練を受けられかつ継続できる環境を構築していきたい。

## 文献

- 1) 陳 隆明, 柴田八衣子, 溝部二十四: 小児における電動義手の使用状況. *J Clin Rehabil* 17(6): 608-610, 2008.
- 2) 陳 隆明: 筋電義手を利用した小児リハビリテーション. *Jpn J Rehabil Med* 53: 379-384, 2016.
- 3) Egermann M, Kasten P, Thomsen M: Myoelectric hand prosthesis in very young children. *Int Orthop* 33: 1101-1105, 2009.
- 4) Toda M, Chin T, Shibata Y: Use of Powered Prosthesis for Children with Upper Limb Deficiency at Hyogo Rehabilitation Center. *PLoS One* 10(6): e0131746, 2015.

## 小児外反扁平足に対する距骨下関節制動術

岡 佳 伸<sup>1)</sup>・金 郁 喆<sup>2)</sup>・吉 田 隆 司<sup>3)</sup>・西 田 敦 士<sup>1)</sup>  
中 瀬 雅 司<sup>4)</sup>・和 田 浩 明<sup>3)</sup>・久 保 俊 一<sup>3)</sup>

1) 京都府立医大大学院 運動器機能再生外科学 小児整形外科部門

2) 宇治武田病院 小児運動器・イリザロフセンター

3) 京都府立医大大学院 運動器機能再生外科学

4) 舞鶴赤十字病院 整形外科

**要 旨** 小児期の扁平足は経年的に自然矯正されるとされているが、矯正が起こらず変形が持続する例も存在する。低侵襲な距骨下関節制動術を行ったので報告する。外反扁平足のうち、両側性、症状がある、1年以上の装具療法で改善がない、のすべてに該当するものを適応とし、99例中本法を行った4例8足を対象とした。足根洞から踵骨へscrewを1本挿入し、距骨下関節の外がえしを制動した。術前後の足関節底背屈可動域、立位単純X線側面像におけるMeary角とcalcaneal pitch angleを計測、症状の推移と合併症を調査した。可動域に変化はなく、症状と変形は改善、単純X線ではMeary角は有意に改善していたが、screwのゆるみを4足に認めた。距骨下関節制動術により変形は改善したが、screwの選択には改善の余地がある。小経験であり長期経過観察は必要だが、適応を限定すれば本法は考慮してよい術式と考える。

### はじめに

小児期の扁平足はflexible flatfootが代表的で、有病率は7~10%とされており<sup>1)</sup>、生理的で、思春期までに自然軽快するとされている<sup>9)</sup>。しかし、一部には経時的な矯正が起こらず、変形や症状が持続する症例も存在する<sup>7)</sup>。治療介入としては保存療法として運動療法の指導、アーチサポートや整形靴などの装具療法が一般的だが、解剖学的改善には乏しいとされており<sup>2)</sup>、重症例には手術療法として距踵関節固定術や外側支柱延長術などの骨性手術が行われる。比較的低侵襲な治療法として距骨下関節制動術が報告されており、当科で適応を限定して同手術を行ったのでその成績と問題点を報告する。

### 対象と方法

小児外反扁平足のうち、症候性である、両側性、足底板を用いた保存療法を1年以上行っても扁平足や症状の改善がない、のすべてに該当するものを本法の適応とした。当院通院中の99例のうち、本法を行った4例8足を対象とした。全例がCater徴候3/5以上を満たす全身関節弛緩症を伴っていた。男児3例女児1例で、既往歴は自閉症、軽度発達遅滞、ADHDと特になしが各1例であった。初診時平均年齢は2歳11か月(1歳10か月~4歳7か月)、手術時平均年齢は8歳9か月(6歳4か月~11歳2か月)で、術後平均13か月(1か月~26か月)の経過観察を行った。術前の症状として、全例が歩行時の足部痛やだるさの訴

**Key words** : pediatric flatfoot(外反扁平足), arthroereisis(関節制動術)

**連絡先** : 〒 602-8566 京都府京都市上京区河原町広小路 465 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(整形外科教室) 岡 佳伸 電話(075)251-5549

**受付日** : 2018年4月4日

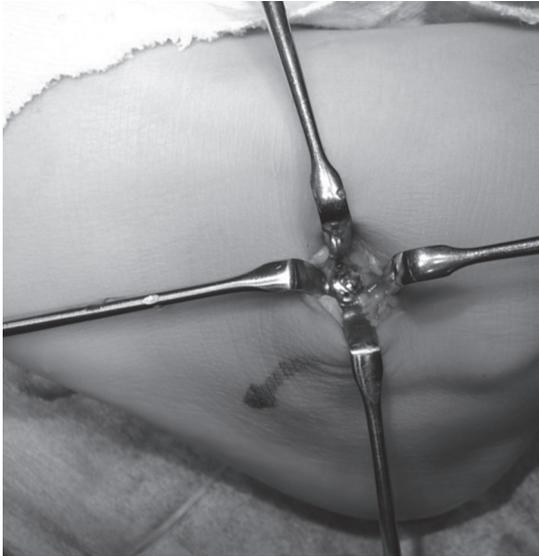


図1. 足根洞から1本のscrew挿入を経皮的に行い、適切な深さまで挿入した。

えにより長距離歩行が不可能で生活に支障を来していた。保存療法として全例にinner wedgeをつけたarch supportを作製し装着した。手術は全身麻酔下に仰臥位とし、Jeroschらの方法<sup>5)</sup>を参考に足根洞に小切開を入れ、後距踵関節面の前方から踵骨にscrewを1本挿入し、距骨外側突起が踵骨溝に入り込みすぎないように突出させ、screw headで距骨下関節の外がえしを制動させた(図1)。検討項目は術前後での足関節底背屈可動域の変化、症状の変化、術後合併症の有無、単純X線立位側面像における距骨第1中足骨角(talo-first metatarsal angle: Meary角)とcalcaneal pitch angleとした。統計はWilcoxon's signed-rank testを用い $p < 0.05$ を有意とした。

### 結果

変形は術直後から、症状は術後疼痛や跛行が改善する術後1~6か月で全例消失した。足関節可動域は術前背屈 $35.7(\pm 7.9)^\circ$ 、術后背屈 $30.7(\pm 4.5)^\circ$ 、術前底屈 $55.7(\pm 4.5)^\circ$ 、術後底屈は $53.6(\pm 4.8)^\circ$ であり有意差を認めず、術前後での足関節底背屈可動域の低下は見られなかった。単純X線では術前Meary角は $24.6(\pm 14.9)^\circ$ 、calcaneal pitch angleは $8.9(\pm 4.2)^\circ$ であり、最終観察時



図2. 術前足部単純X線立位側面像。著しい扁平足を認める。

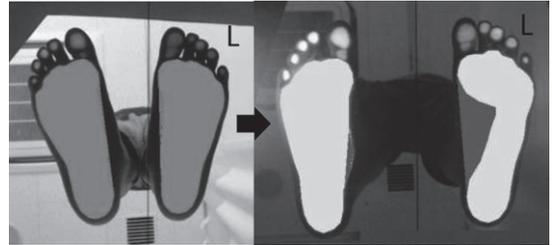


図3. 術前後の両側Footprint。術後に左側のアーチ形成を認める。

Meary角は $10.1(\pm 4.9)^\circ$ 、calcaneal pitch angleは $9.4(\pm 2.1)^\circ$ であった。術前後でMeary角は有意に改善していた( $p < 0.05$ )。全例で術後1~6か月間screw挿入部に軽度の圧痛や疼痛を訴えたが最終的に消失した。単純X線上ではscrewのゆるみを4足に認めた。

### 代表症例

6歳・男児で、既往歴特になくgeneral joint laxityがあり、両側とも高度の扁平足のため足部痛の訴えと長距離歩行の困難さがあり足底板による保存療法を行ったが改善が見られず手術を計画した。術前Meary角は $37^\circ/36^\circ$ であった(図2)。4.5 mm full thread screwを用いてまず左側の距骨下関節制動術を行った。術後1年でMeary角は $42^\circ/16^\circ$ と改善しており、Footprintや後足部所見からも変形と症状は改善していた(図3, 4)。しかし、単純X線上でscrewのゆるみを認めたため、術後2年で右側の手術時に6.5 mm cancellous full thread screwに変更して入れ替えを行い(図5)、Meary角は $19^\circ/8^\circ$ と術後2年2か月の最終経過観察時点で症状と変形は改善している。

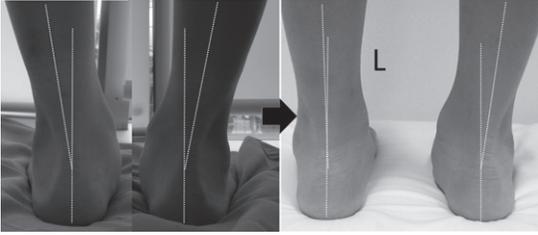


図4. 左側術前後の後足部肉眼所見  
踵外反は改善した。



図5. 最終経過観察時単純 X 線像  
扁平足は改善している。

## 考 察

小児期扁平足はよく見られるが、定義はなく<sup>2)10)</sup>、大多数は自然軽快するものの<sup>9)</sup>変形に伴う症状が持続する症例を経験する<sup>7)</sup>。特に全身関節弛緩症に伴う外反扁平足は小児期に問題を呈しやすく、変形が残存しやすいとされている<sup>3)4)6)</sup>。治療は大多数に経過観察を含む保存療法が行われているが、保存療法に反応しない重症例には距踵関節固定術(Grice procedure)や外側支柱延長などの骨性手術、靭帯縫縮術が行われている。

距骨下関節制動術(arthroereisis)は、本邦ではあまり行われていない術式だが多数の報告がある手術法であり、その方法には主に二つの術式が採用されている。一つは calcaneo-stop procedure で、ほとんどの場合経皮的に足根洞から踵骨へと、もしくは距骨へと screw を1本挿入し距骨外側突起が踵骨溝へと落ち込まないようにして距骨下関節の過度な外がえしを制動する。もう一つは距踵間の踵骨溝に専用の interference screw を挿入しこれも距踵関節を関節外で制動させる方法である。現在のところ、後者の専用インプラントを挿入する方法での arthroereisis が多く行われているようである。Jerosch らは calcaneo-stop 法で平均 11.9 歳、18 例 21 足の症例を報告し、2.7 年の経過において Meary 角は 12° 改善したとし

ており<sup>5)</sup>、Pavone らは平均 11 歳の扁平足 242 例 410 足に同様の手術を行い、平均 88 か月の経過で単純 X 線学的パラメーターはすべて改善し、満足度の VAS で 96.83% が Excellent もしくは Good であったと報告している<sup>8)</sup>。

本経験において、平均年齢は 8 歳 9 か月とやや低いものの平均 13 か月の経過で Meary 角は平均 14.5° 改善し、一定の効果を確認できた。短期であるため隣接関節への影響も特に認めず、足関節の可動域も明らかな低下は認めなかった。しかし、適応や抜釘のタイミングについては報告によって異なり、長期経過についても現在のところ報告がなく未解決のままである。本経験においても、矯正損失には至らないもののインプラント選択の方針が決定するまでは高頻度の screw のゆるみを経験した。現在は、6.5 mm solid cancellous screw を踵骨底側の骨皮質を越えて挿入することで screw のゆるみは認めておらず、刺入深度に関しても荷重位での距舟関節の落ち込みを術中に透視で確認して決定しており、screw の選択や刺入位置、刺入深度に関しては最適な条件の検討が必要であると考えた。抜釘に関しても 1.5~3 年で、もしくは足部成長終了時に抜釘するとの報告が多いが<sup>5)8)</sup>本症例では比較的若年の症例が多いこともあり、2 年を超えた症例においても抜釘はまだ行っていない。抜釘後も、足根洞周囲に豊富に存在する固有知覚の自由終末を刺激することによって矯正位が維持されるとされているが、本症例でも長期経過を確認していきたい。若年での関節固定は隣接関節への影響が無視できないため、観血治療を選択せざるを得ない場合は、低侵襲で関節そのものに影響を与えにくい本術式は中間的な治療として適応されてもよいのではないかと考える。

## まとめ

全身関節弛緩症に伴う外反扁平足 4 例 8 足に対して距骨下関節制動術を行い、短期的にはあるが症状、扁平足変形は改善した。術後早期の疼痛も経過中に消失したが、screw のゆるみを認める

例があり, screw の選択や刺入深度には改善の余地があると考えた。小経験であり長期の経過観察は必要だが, 本法は適応を限定すれば考慮してよい術式と考える。

#### 文献

- 1) Barry RJ, Scranton PE Jr : Flat feet in children. Clin Orthop Relat Res **181** : 68-75, 1985.
- 2) Bauer K, Mosca VS, Zions LE : What's New in Pediatric Flatfoot? J Pediatr Orthop **36**(8) : 865-869, 2016.
- 3) Chen KC, Tung LC, Tung CH et al : An investigation of the factors affecting flatfoot in children with delayed motor development. Res Dev Disabil **35** (3) : 639-645, 2014.
- 4) El O, Akcali O, Kosay C et al : Flexible flatfoot and related factors in primary school children : a report of a screening study. Rheumatol Int **26** (11) : 1050-1053, 2006.
- 5) Jerosch J, Schunck J, Abdel-Aziz H : The stop screw technique-a simple and reliable method in treating flexible flatfoot in children. J Foot Ankle Surg **15**(4) : 174-178, 2009.
- 6) Lin CJ, Lai KA, Kuan TS et al : Correlating factors and clinical significance of flexible flatfoot in preschool children. J Pediatr Orthop **21** (3) : 378-382, 2001.
- 7) Miller GR : The operative treatment of hypermobile flatfeet in the young child. Clin Orthop Relat Res **122** : 95-101, 1977.
- 8) Pavone V, Costarella L, Testa G et al : Calcaneo-stop procedure in the treatment of the juvenile symptomatic flatfoot. J Foot Ankle Surg **52**(4) : 444-447, 2013.
- 9) Staheli LT, Chew DE, Corbett M : The longitudinal arch. A survey of eight hundred and eighty-two feet in normal children and adults. J Bone Joint Surg Am **69**(3) : 426-428, 1987.
- 10) Uden H, Scharfbillig R, Causby R : The typically developing paediatric foot : how flat should it be? A systematic review. J Foot Ankle Res **15** : 10-37, 2017.

## 麻痺性の股関節・膝関節屈曲拘縮に対する広範囲観血的拘縮解離手術

名倉 温雄<sup>1)</sup>・和田 晃房<sup>1)</sup>・武田 真幸<sup>1)</sup>  
杉田 健<sup>1)</sup>・窪田 秀明<sup>1)</sup>・中村 幸之<sup>2)</sup>

1) 佐賀整肢学園こども発達医療センター 整形外科

2) 福岡市立こども病院 整形・脊椎外科

**要旨** 【目的】股・膝関節の重度屈曲拘縮に対する広範囲観血的拘縮解離手術を報告する。【対象・方法】対象は、麻痺性疾患により股・膝関節屈曲拘縮を呈する4例6肢であった。手術方法は、股関節内側の皮切から長内転筋腱・薄筋を切離後、股関節外側から大腿外側を通り膝関節遠位脛骨粗面に至る一皮切で股・膝関節の広範囲屈曲拘縮解離(大腿筋膜・腸脛靭帯切除、縫工筋・大腿直筋下方移行、腸腰筋腱切離、大腿二頭筋腱Z延長、腓腹筋外・内側頭切離、半腱様筋・半膜様筋腱切離、膝関節後方関節包解離)を行った。大腿骨近位部で伸展短縮骨切りも行った。【結果】手術時平均年齢27.0歳(17.3~37.6歳)、術後平均観察期間1年2か月(5か月~1年10か月)であった。屈曲拘縮の軽減・軽快により2例で腹臥位・仰臥位などの姿勢が安定し2例で歩行訓練も可能となった。【結論】広範囲観血的拘縮解離手術の侵襲は大きい、姿勢の改善や起立歩行能力の改善が期待できる。

### はじめに

脳性麻痺などの中枢神経系の麻痺では四肢や体幹の痙性のため、時間の経過とともに関節の拘縮が生じる。股関節や膝関節の屈曲拘縮が重度となると、起立・歩行などの運動機能の低下だけでなく姿勢も制限されるようになる。さらには疼痛・褥瘡の発生、会陰部周囲の衛生面の問題や衣服着脱の煩雑さなど、患者や介助者の負担も重くなる。

我々は、麻痺による股関節・膝関節の重度屈曲拘縮を伴う症例に対して、広範囲観血的拘縮解離手術を行ってきたので、その術中・術後経過について報告する。

### 対象と方法

対象は、麻痺により股関節・膝関節とも重度の

屈曲拘縮を呈する4例6肢で、原疾患は、脳性麻痺3例4肢(痙直型2例、アテトーゼ型1例)、橋髄鞘崩壊症1例2肢であった。全例男性であった。

手術方法は、側臥位で、まず、股関節を可及的外転外旋位とし、股関節内側に3cmの皮切から長内転筋腱・薄筋を切離する。次に、股関節を中間位に戻し、50cm以上にわたる股関節外側から大腿外側を通り、膝関節遠位の脛骨粗面に至る皮切を加える。皮下を広く剥離して、大腿筋膜・腸脛靭帯を一面に露出して、これを全長にわたって切除する。股関節では、縫工筋と大腿直筋の下方移行または切離、腸腰筋・大腰筋の切離を行い、股関節を十分伸展させて腹臥位を容易にとれるようにするため、大腿骨転子部伸展短縮骨切り(DePuy Synthes社, LCP Pediatric Hip Plate)を行う。内旋拘縮の強い例では減捻も加えている。

**Key words** : lower extremity contracture(下肢拘縮), paralytic disease(麻痺性疾患), walking ability(歩行能力), range of motion(関節可動域), position(姿勢)

**連絡先** : 〒 849-0906 佐賀県佐賀市金立町金立 2215-27 佐賀整肢学園こども発達医療センター 名倉温雄  
電話(0952)98-2211

**受付日** : 2018年2月26日

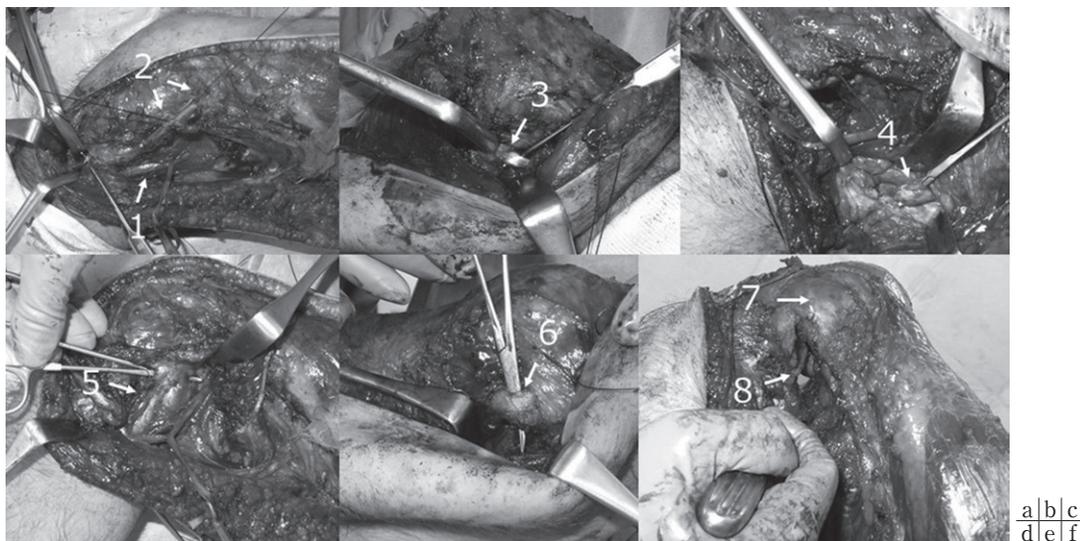


図1. 広範囲観血的拘縮解離術(膝周囲)  
 a : 1 = 腓骨神経, 2 = 大腿二頭筋腱(Z状切離)  
 b : 3 = 半腱様筋  
 c : 4 = 半膜様筋腱  
 d : 5 = 腓腹筋外側頭  
 d : 6 = 腓腹筋内側頭  
 f : 7 = 大腿骨顆部, 8 = 膝関節後方解離

股関節脱臼を伴っている場合は観血的脱臼整復術も追加する。膝関節では、まず外側から、神経麻痺を避けるために腓骨神経は直視下に展開して、前方コンパートメント、外方コンパートメントの中隔部分を解離して神経を剥離し保護する。次に、大腿二頭筋腱のZ状延長、腓腹筋外側頭の切離を行う。膝内側へは、大腿部前面の皮膚を膝蓋骨が露出するように大きく翻転させることで膝の内側に到達できる。そこで、腓腹筋内側頭を切離し、症例に応じて半腱様筋・半膜様筋腱の切離を行い、脛骨神経などの神経血管束に注意しながら、膝関節後方関節包の解離を行う(図1)。

### 結果

手術時平均年齢は27歳0か月(17歳4か月～37歳7か月)、術後平均観察期間は1年2か月(5か月～1年10か月)であった(表1)。術前の運動能力は、自力移動が不可、腹臥位が不可で仰臥位も安定せず、主に側臥位で過ごしている脳性麻痺が2例、自力移動が著明に制限されている脳性麻痺

と橋髄鞘崩壊症が1例ずつであった。術前の膝関節平均伸展角度は $-53^{\circ}$ ( $-30^{\circ} \sim -100^{\circ}$ )、股関節平均伸展角度は $-48^{\circ}$ ( $-30^{\circ} \sim -80^{\circ}$ )であった。術中出血量は544 mL(142～1550 mL(1550 mLは両側同時手術例))で、輸血は平均4単位(2～8単位)必要とした。術後、下肢神経麻痺症状や下肢循環障害、皮膚トラブルや感染症は認めなかった。術後の運動能力は、自力移動が不可で主に側臥位で過ごしていた2例は、仰臥位や腹臥位が安定してとれるようになった。自力移動が著明に制限されていた2例は、自力移動を再獲得できた。最終観察時、筋緊張は軽減し、とれる肢位や運動レベルが改善した状態で維持できており、介助者の負担も大きく軽減された。

### 症例提示

**症例1** : 17歳、男児 : 痙直型脳性麻痺(Gross Motor Function Classification System(GMFCS)レベルIV)(図2)。両股関節と両膝関節の屈曲拘縮に対して、Orthopaedic Selective Spasticity

表 1. 症例一覧

症例	手術時年齢 (歳)	神経疾患	手術歴	術前 運動能力	手術側	術前 股関節伸展	術前 膝関節伸展	手術	術後 運動能力
1	17.3	脳性麻痺 (痙直型)	7歳 両股・膝 OSSCS 13歳 両股・膝 OSSCS	介助立位	右	-40°	-45°	広範囲拘縮解離 転子部 30° 伸展 3 cm 短縮	装具装着して 歩行能力の 再獲得
					左	-45°	-45°		
2	33.9	脳性麻痺 (アテトーゼ型)		側臥位 のみ	左	-60°	-60°	広範囲拘縮解離 転子部 45° 伸展 5 cm 短縮	仰臥位 腹臥位 可能
3	37.6	橋髄鞘崩壊症		立位不能	右	-30°	-35°	広範囲拘縮解離 転子部 30° 伸展 1.5 cm 短縮	装具装着して 歩行能力の 再獲得
					左	-30°	-30°		
4	18.2	脳性麻痺 (痙直型)	17歳 左股関節 OSSCS	側臥位 のみ	左	-80°	-100°	広範囲拘縮解離 転子部 30° 伸展 5 cm 短縮	仰臥位 腹臥位 可能



図 2. 症例 1

- a: 術前
- b: 術中伸展位
- c: 術中屈曲位
- d: 術直後
- e: 術前股関節正面 X 線像
- f: 術後股関節正面 X 線像
- g: 術後歩行能力の再獲得

Control Surgery (OSSCS) を7歳時と13歳時に施行するも、股関節・膝関節の屈曲拘縮の遺残・悪化により運動能力は徐々に低下し、12歳までは長下肢装具を使用して歩行器歩行であったが、今回の術前では介助立位をかろうじてとれる程度で歩行不能であった。床上での移動は両下肢内旋位でいざり移動であった。両股関節・膝関節の屈曲拘縮の改善による立位・歩行能力の再獲得を目的に、両側同時広範囲観血的拘縮解離術を行った。また、術後も床上では正座・割り座をしたいという本人・家族の希望があったため、膝の深屈曲は維持しておく必要性を考慮し、大腿骨顆上部での伸展骨切りは選択しなかった。大腿骨転子部では、伸展30°、減捻15°、短縮3 cmの矯正骨切りを行った。手術時間9時間48分、術中出血1550 mLで、術中術後で要した輸血は4単位であった。術後、長下肢装具を装着して、起立や歩行器歩行が可能となった。

**症例2:** 34歳、男性：アトローゼ型脳性麻痺 (GMFCS レベルV)。特に、左股関節・膝関節の屈曲拘縮が強く、以前に他院で頸椎手術に臨んだが、全身麻酔下でも屈曲拘縮のために腹臥位がとれず、中止になった既往があった。屈曲拘縮を改善させて頸椎手術を受けることができ、日常生活でも仰臥位や腹臥位をとることができるように、左下肢広範囲観血的拘縮解離手術を行った。大腿骨転子部では、両側で、伸展45°、減捻25°、短縮5 cmの矯正骨切りを行った。手術時間8時間3分、術中出血550 mLで、術中術後で要した輸血は8単位であった。術後、腹臥位が可能となり、後日、腹臥位での頸椎手術も無事に終えた。

**症例3:** 37歳、男性：橋髄鞘崩壊症。発症により四肢麻痺、意識障害が生じ、意識障害は回復したが、四肢麻痺による下肢屈曲拘縮が残存し立位不可能であった。片側ずつ広範囲観血的拘縮解離手術を行った。大腿骨転子部では、両側で、伸展30°、短縮1.5 cmの矯正骨切りを行った。術後、歩行能力を再獲得した。

**症例4:** 18歳、男児：痙直型脳性麻痺 (GMFCS レベルV) (図3)。重度の四肢拘縮があり、17歳



図3. 症例4 広範囲観血的拘縮解離手術 全体像  
1: 上前腸骨棘  
2: 大転子  
3: 大腿骨顆部

時に OSSCS を施行するも屈曲拘縮が遺残し、広範囲観血的拘縮解離術を行った。大腿骨転子部では、伸展30°、減捻20°、短縮5 cmの矯正骨切りを行った。左膝の伸展角度が術前-100°から術後-5°にまで改善し、仰臥位や腹臥位が安定し、家人の満足度も高かった。

## 考 察

股関節や膝関節の屈曲拘縮が進行し重度となると、運動能力の低下だけでなく、腹臥位や仰臥位でさえとることが困難となり、疼痛を生じ、QOLや生命にまで大きく悪影響を及ぼすと報告されている<sup>2)</sup>。下肢の屈曲拘縮に対しては、軽度から中等度であれば、理学療法、serial cast, splintingなどの保存・装具療法から、膝関節後方関節包解離術<sup>1)</sup>、大腿骨顆上部での伸展短縮骨切り術<sup>3)</sup>、OSSCS<sup>7)</sup>や大腿骨顆部前方の eight-Plate<sup>®</sup>を用いた成長抑制術<sup>6)</sup>などの手術療法でも対応可能である。我々は、前述の治療法では矯正困難な重度の股関節や膝関節の屈曲拘縮に対して、広範囲観血的拘縮解離術を行い、股関節と膝関節の屈曲拘縮を同時に改善させた。GMFCS レベルVの脳性麻痺患者の股関節と膝関節の重度屈曲拘縮に対して、股関節屈曲拘縮解離と膝関節離断の同時手術を行い、ADLやQOLの改善が得られたという報告もあるが<sup>2)</sup>、膝屈曲拘縮に対して膝離断まで行うことは、日本ではなじまない。また、股関節屈曲拘縮に対する大腿骨転子部伸展

短縮骨切り術に加えて、膝関節でも大腿骨顆上部での伸展骨切り術を併用すればより容易に膝伸展が可能となる。しかし、日本の和式生活では、床上移動、正座や割り座などで膝関節の深屈曲を必要とする。術後、膝の屈曲制限が生じて深屈曲が行えなくなる可能性に鑑み、大腿骨顆上部での伸展骨切り術を併用しなかった<sup>5)8)</sup>。一方、股関節の屈曲拘縮に対してGirdlestone手術を行うことは、術後、股関節の安定性が欠損するので、避けるべきと考えている。

我々の手術方法により、GMFCS レベルVの脳性麻痺児で下肢屈曲拘縮により腹臥位や仰臥位でさえとれないなど著しく姿勢が制限されている症例では、とれる姿勢が増える。GMFCS レベルIVで幼児期から学童期までは介助歩行が可能であったが、成人になるにつれて下肢屈曲拘縮が増悪し、運動能力が低下している症例では、運動能力の改善が期待できる。GMFCS レベルVの重度の脳性麻痺児に対して、今回のような侵襲の大きい手術は全身状態悪化のリスクが少なくはない。しかし、とれる姿勢が増えるということは、褥瘡や重度感染症、骨折を予防することにつながり、また、仰臥位や腹臥位だけでなく、座位も安定することで上肢の自由度も増え、患者のADL改善に大きく寄与すると考える。GMFCS レベルIVの患児は、一般的には、幼少期からの訓練により介助下に歩行能力は獲得できたとしても、青年期から大人になると体格が大きくなり、運動能力は徐々に低下する。我々の症例1はその典型例で、学童期でのOSSCS だけでは下肢の屈曲拘縮を改善させることができず、さらに拘縮が強くなり、運動能力が低下していた。患児・家族の運動能力を改善したいという希望をもとに、術前の運動レベル、年齢、機能評価を踏まえた上で、我々の手術方法により歩行能力の再獲得という優れた結果が得られた。我々の広範囲観血的拘縮解離術により、術中に膝の伸展角度は0～-5°まで改善した。機能的な歩行能力の獲得・維持には、少なくとも伸展角度は-20°以下の必要があると報告されており<sup>4)</sup>、GMFCS レベルIVの運動能力の改善に影

響したと考える。

我々の広範囲観血的拘縮解離術の手術内容は、これまでの数々の屈曲拘縮に対する手術方法の報告の中でも侵襲は大きいといえるが、広範囲観血的拘縮解離手術と通常の解離術との違いは、大腿筋膜・腸脛靭帯の切除に加えて、同一術野による広汎な展開が可能となり、通常の解離術では、不十分となることが多い膝関節の後方解離や、必要な筋解離を十分に行えることである。実際、大腿骨転子部伸展短縮骨切りを行う前に、この拘縮解離術を行うだけでも股関節や膝関節の屈曲拘縮は、かなり軽減しており、股関節に若干の過伸展まで可能にすることで、術後、腹臥位を楽にとれるようにしている。ただ、症例1は両側同時手術で出血が多く、症例2は片側例であったが術中・術後出血が多く、他の症例も含めて他家血輸血を要している。この術式を必要とする症例は、全身状態や予備能力が必ずしも十分ではない場合が多く、リスクの高い症例に対して、あえてこの術式を選択し行うには、自己血貯血を備えて、出血も必要最小限にする手術手技の習熟、他科も含めた周術期のチームワークなどの条件が必要である。

我々の報告の限界としては、まだ症例数が少なく、術前の麻痺の程度や生活レベルも異なることが挙げられる。また、今回得られた結果は、全例で下肢拘縮の軽減やADLの改善が得られたが、術後観察期間が短期であり、今後、中～長期の経過観察が必要である。

多くの施設で、今回挙げた同様の症例に対して経過観察で過ごされている例が多いと推察するが、我々の手術は、重度の股関節、膝関節拘縮を呈する患者に対する新たな外科的アプローチとして患者や介助者に提案できると考える。

## 結 論

股関節と膝関節の重度屈曲拘縮の4例6肢に対する広範囲観血的拘縮解離手術を報告した。いずれの症例も、著しい両股・膝関節の屈曲拘縮や下肢のはさみ肢位が解消することで、運動能力が改善されたり、姿勢のパターンが増えたりと、患者

の ADL の改善, 介助者の負担軽減につながった。

#### 文献

- 1) Bosse H, Feldman DS, Anavian J et al : Treatment of knee flexion contractures in patients with arthrogryposis. J Pediatr Orthop 27(8) : 930-937, 2007.
- 2) Cipriano C, Keenan MA : Knee disarticulation and hip release for severe lower extremity contractures. Clin Orthop Relat Res 462 : 150-155, 2007.
- 3) DelBello D, Watts HG : Distal femoral extension osteotomy for knee flexion contracture in patients with arthrogryposis. J Pediatr Orthop 16(1) : 122-126, 1996.
- 4) Hoffer MM, Swank S, Eastman T et al : Ambulation in severe arthrogryposis. J Pediatr Orthop 3(3) : 293-296, 1983.
- 5) Joseph B, Reddy K, Varghese RA et al : Management of severe crouch gait in children and adolescents with cerebral palsy. J Pediatr Orthop 30(8) : 832-839, 2010.
- 6) Klatt J, Stevens PM : Guided growth for fixed knee flexion deformity. J Pediatr Orthop 28(6) : 626-631, 2008.
- 7) Matsuo T : Cerebral palsy : Spasticity-control and orthopaedics—An introduction to orthopaedic selective spasticity-control surgery (OSSCS)—, Soufusha, 220-322, Tokyo, 2002.
- 8) 和田晃房, 中村幸之, 武田真幸ほか : 脳性麻痺の股関節と膝関節の重度屈曲拘縮変形に対する広範囲観血的拘縮解離手術. 日本脳性麻痺の外科学研究会誌 27 : 51-58, 2017.

## エイトプレートを用いた骨端成長軟骨発育抑制術の治療成績

佐賀整肢学園こども発達医療センター

杉田 健・和田 晃房・窪田 秀明  
武田 真幸・名倉 温雄・谷口 美緒

**要旨** 当院でのエイトプレートを用いた骨端成長軟骨発育抑制術の治療成績を報告する。2012年1月～2017年12月にエイトプレートを用いて骨端成長軟骨発育抑制術を行った57例112変形のうち、抜釘まで行った33例72変形を対象とした。手術時平均年齢は10歳で、脚長不等11肢、内反膝17膝、外反膝29膝、足関節外反9足、大転子高位3股、膝屈曲拘縮2膝であった。骨端線早期閉鎖やスクリューの破損、脱転した例はなかった。内反膝と外反膝の2膝で、抜釘後に再変形を認めた。エイトプレートは手技が容易で合併症が少なく、脚長不等、内反膝、外反膝、足関節外反、膝屈曲拘縮の矯正に有効であった。しかし、大転子高位では十分な矯正が得られなかった。

### 序文

当院では、2012年より下肢の脚長補正や変形矯正に ORTHOFIX 社 (Italy)・The eight-plate™ Guided Growth System (エイトプレート) を使用しており、今回、その治療成績を報告した。

### 対象・方法

対象は2012年1月から2017年12月までに当院でエイトプレートを用いて脚長補正や変形矯正を行った57例112変形のうち、抜釘術まで行った33例72変形を対象とした。基礎疾患は、発育性股関節形成不全8例、バルテス病3例、化膿性股関節炎後変形4例、X脚6例、O脚2例、Blount病1例、大腿骨頭すべり症1例、片側肥大・下肢低形成7例、外傷後脚長不等1例、先天性垂直距骨1例、先天性内反足2例、二分脊椎・総排泄腔外反3例、脳性麻痺1例、脊髄膜瘤1例、ダウン症候群1例、先天性腓骨列欠損症1例、先天性多発性関節拘縮症2例、先天性無痛無汗症

1例、爪膝蓋骨症候群2例、点状軟骨異形成症1例、多発性外骨種1例、先天性多発奇形2例であった。

脚長不等(図1)では大腿骨遠位もしくは脛骨近位、またはその両方に、内反膝(図2)では大腿骨遠位外側もしくは脛骨近位外側、またはその両方で、外反膝(図3)では内側の成長軟骨板をまたいで遠位および近位に挿入した。足関節外反(図4)では脛骨遠位内側に、大転子高位(図5)では大転子部に挿入した。膝屈曲拘縮(図6)では大腿骨遠位前方で、膝蓋骨の滑走の障害とならない位置に挿入した。

手術時年齢、エイトプレートの挿入期間、術前・抜釘前の改善率、X線像を、後方視的に診療録で調査した。X線評価は脚長不等では床から両大腿骨頭までの距離の差、もしくは左右骨盤上縁までの距離の差を計測した。内外反膝変形では Femoral-Tibia Angle (以下、FTA) を計測した。大転子高位では左右の大腿骨頭上縁を結んだ線から大転子頂部までの距離 Articulo Trochanteric Dis-

**Key words** : guided growth (骨端成長軟骨発育抑制術), eight-plate (エイトプレート), leg length discrepancy (脚長不等), lower limb deformity (下肢変形)

**連絡先** : 〒 849-0906 佐賀県佐賀市金立町金立 2215-27 佐賀整肢学園こども発達医療センター 杉田 健  
電話 (0952) 98-2211

**受付日** : 2018年6月21日

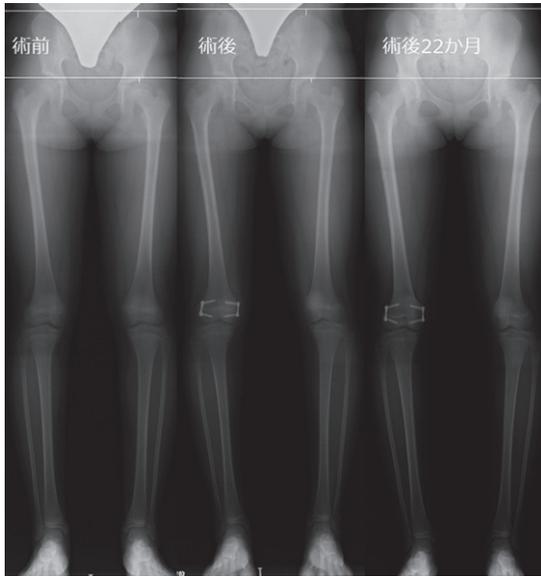


図1. 11歳，女児．左DDH・Rb治療後のペルテス様変形による脚長差15mmが0mmまで改善(挿入期間670日)．

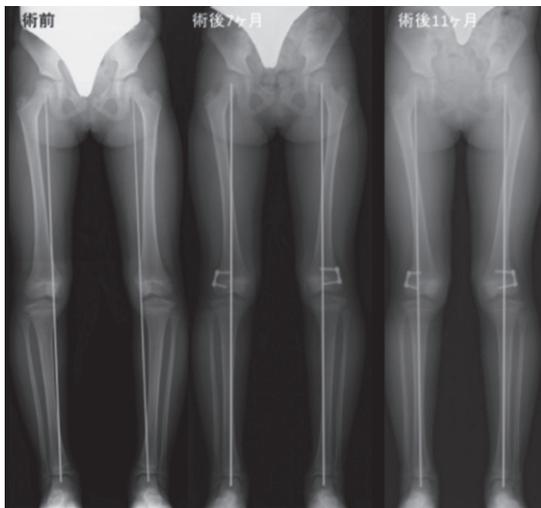


図2. 6歳，女児．O脚．術前FTA181°/183°が173°/179°まで改善(挿入期間359日)．

tance(以下，ATD)を，足関節外反変形では脛骨骨軸と足関節のなす角 Lateral Distal Tibia Angle (以下，LDTA)を計測した．

### 結果

脚長不等は11例で，手術時年齢は平均 $9.8 \pm 1.8$ 歳，術前の脚長差は $20 \pm 11$ mm，挿入期間は平均 $507 \pm 244$ 日，改善率は $7 \pm 4$ mm/年であった．

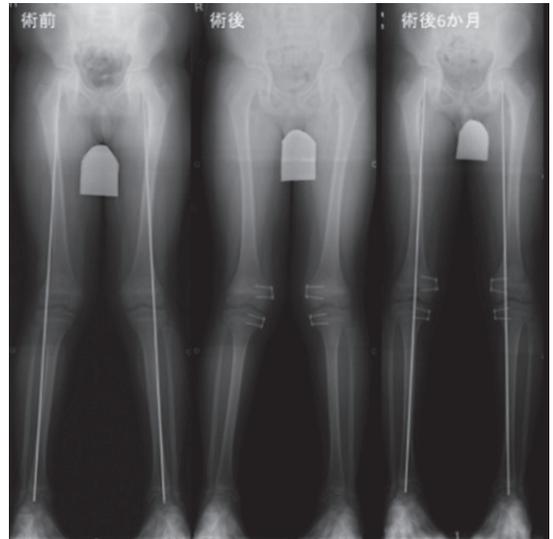


図3. 11歳，男児．X脚．術前FTA169°/169°が177°/179°まで改善(挿入期間230日)．



図4. 11歳，女児．右足関節外反．LDTAは術前82°から6°改善(挿入期間516日)．

内反膝は11例22膝で，手術時年齢は平均 $10.6 \pm 2.4$ 歳，術前のFTAは平均 $182 \pm 6^\circ$ ，挿入期間は平均 $280 \pm 145$ 日，改善率は平均 $12 \pm 11^\circ$ /年であった．外反膝は18例29膝で，手術時年齢は平均 $9.7 \pm 2.1$ 歳，術前FTAは $169 \pm 2^\circ$ ，挿入期間は平均 $261 \pm 142$ 日，改善率は平均 $11 \pm 7^\circ$ /年であった．足関節外反は6例9足で，手術時年齢は平均 $10.6 \pm 1.6$ 歳，術前のLDTAは平均 $81 \pm 2^\circ$ ，挿入期間は平均 $476 \pm 145$ 日，改善率は平均 $5 \pm 1^\circ$ /年であった．大転子高位は2例3股，手術時年齢は平均 $8.3 \pm 1.2$ 歳，術前のATDは平均 $2 \pm 2^\circ$ ，挿入期間は平均 $573 \pm 131$ 日，改善率は平均 $-3 \pm 1^\circ$ /年であった．膝関節屈曲拘縮は2例2膝で，手術時年齢は平均 $10.5 \pm 3.5$ 歳，術前の膝伸展は $-16 \pm 0^\circ$ ，挿入期間は平均 $500 \pm 190$ 日，改



図5. 9歳, 男児. 両ペルテス病・両大腿骨内反骨切り術後の両大転子高位. ATDは術前3 mmから改善なし(挿入期間497日).

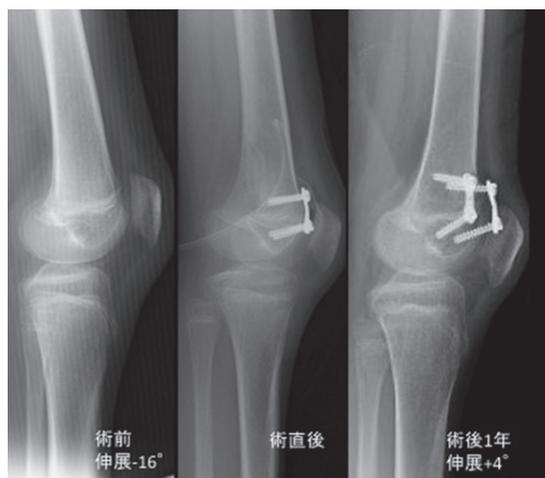


図6. 13歳, 男児. 伸展 $-16^{\circ}$ の左膝関節屈曲拘縮が伸展 $+4^{\circ}$ へ改善(挿入期間365日).

善率は平均 $16 \pm 3^{\circ}$ /年であった. 合併症は矯正後抜釘したのちに膝変形が再燃した症例が2例あり, 再度, エイトプレートを用いて矯正を行った. 脱転, スクリュー破損, 感染や骨端線早期閉鎖は認めなかった.

### 考 察

脚長不等に対して, Pendeltonら<sup>4)</sup>は34例にエイトプレートを用いて矯正を行い, 術前平均22 mmの脚長差を10 mm改善させた. Gaumetouら<sup>1)</sup>は術前平均脚長差40 mmの32例に対しエイトプレートを用いて矯正を行い, 最終経過観察時に19 mmの脚長差まで改善させ, 脚長差が残る症例に対しては, 脛骨・大腿骨の脚延長術や骨端線閉鎖術を追加で行った. 当院でも同様に術前20 mmを8 mmまで改善(7 mm/年)させ, 脚長補正に有効であった. 3 cm以上と脚長差の大きい症例に対しては, 脚延長術を主に行っている

が, 創外固定器の装着が困難な例や, 患者や家族が脚延長術を希望されない例では, 2回に分けて骨端成長軟骨発育抑制術を行っている. 精神運動発達障害により脚延長を行うことが困難であった術前脚長差46 mmの症例では, 2年半の挿入期間で24 mmまで改善させたのちに骨幹部のスクリューを抜釘し, 抜釘から半年の間を空けて, 再挿入を行い経過観察している.

内反膝・外反膝に対しては, Stevensら<sup>5)</sup>は34例にエイトプレートを用いた矯正を行い, 良好な成績であった. 当院の症例でも内反膝で平均280日, 外反膝で平均261日と早期に矯正できたが, 2例の男児で抜釘後に再外反・再内反を生じた. Joerisら<sup>2)</sup>は男児の変形再燃が女児と比較し2倍であったと報告しており, 年齢・性別・抜釘後の成長余力を考慮し, 抜釘時期を機能軸が膝中央を通過した時点で抜釘を行うか, 過矯正して抜釘するかは熟慮する必要がある.

膝関節屈曲拘縮は, Klattら<sup>3)</sup>は術前平均屈曲制限 $23^{\circ}$ の23例40膝に矯正を行い,  $16^{\circ}$ /年で矯正を行った. 当院でも2例に矯正を行い, 膝完全伸展を得ることができた. 膝屈曲拘縮は大腿四頭筋筋力低下, 股屈曲拘縮・腰椎前弯・尖足を助長して, 膝関節痛や歩行異常の原因となるため, エイトプレートによる矯正を積極的に行っている.

大転子高位は2例3股に矯正を行ったが, いずれも進行した. 大転子高位はエイトプレートでの進行抑制は得られず, ドリリングとスクリューによる大転子骨端線閉鎖, もしくは大転子下降術を考慮すべきである.

足関節外反に対してはStevensら<sup>6)</sup>が術前平均LDTA $78^{\circ}$ の33例57足に矯正を行い, 改善率7%

/年, 平均挿入期間 27 か月で矯正を行っている。当院でも術前平均 LDTA 81° の 6 例 9 足に矯正を行い, 改善率 5°/年で矯正を行うことができた。エイトプレートの合併症について, Joeris<sup>2)</sup>や Stevens<sup>6)</sup>はスクリューの緩み/埋没は 2~4%, スクリューの歪曲は 5%, 骨端線の早期閉鎖は 5%と報告している。今回の対象症例では前述の合併症は見られなかったが, 最低 2~3 か月に 1 回は X 線撮影を行い, 合併症を早期発見し, スクリュー, プレートの入れ替えや抜去等, 適宜判断することが必要である。

### 結 論

脚長不等や下肢変形のある 57 例 112 変形にエイトプレートを使用した。変形矯正や脚長補正を行い, 抜釘術まで行った 33 例 72 変形を調査した。脚長不等, 内反膝, 外反膝, 足関節外反, 膝関節屈曲拘縮での矯正は良好であったが, 大転子高位では効果が得られなかった。

### 文献

- 1) Gaumetou E, Mallet C, Souchet C et al : Poor efficiency of eight-plates in the treatment of lower limb discrepancy. *J Pediatr Orthop* **36** (7) : 715-719, 2016.
- 2) Joeris A, Ramseier L, Langendorfer M et al : Paediatric lower limb deformity correction with the eight plate : adverse events and correction outcomes of 126 patients from an international multicentre study. *J Pediatr Orthop B* **26** : 441-448, 2017.
- 3) Klatt J, Stevens PM : Guided growth for knee flexion deformity. *J Pediatr Orthop* **28** : 626-631, 2008.
- 4) Pendelton AM, Stevens PM, Hung M : Guided growth for the treatment of moderate leg-length discrepancy. *Orthopedics* **36**(5) : 575-580, 2013.
- 5) Stevens PM : Guided growth for angular correction : a preliminary series using a tension band plate. *J Pediatr Orthop* **27**(3) : 253-259, 2007.
- 6) Stevens PM, Kennedy JM, Hung M : Guided growth for ankle valgus. *J Pediatr Orthop* **31** : 878-883, 2011.

## 3次元歩行解析に基づく Gait Profile Score を用いた 脳性麻痺児尖足歩行に対する手術治療の効果判定

房川 祐 頼<sup>1)</sup>・藤 田 裕 樹<sup>1)</sup>・西 部 寿 人<sup>2)</sup>  
野 坂 利 也<sup>3)</sup>・松 山 敏 勝<sup>4)</sup>・山 下 敏 彦<sup>5)</sup>

- 1)北海道立子ども総合医療・療育センター 整形外科
- 2)北海道立子ども総合医療・療育センター 理学療法科
- 3)北海道科学大学 義肢装具学科
- 4)札幌市子ども発達支援総合センター 整形外科
- 5)札幌医科大学 整形外科学講座

**要 旨** 脳性麻痺児の尖足歩行についての3次元歩行解析の評価法は、Gait Profile Score(GPS)が主流になりつつある。本研究の目的は、GPSを用いて当センターで施行された脳性麻痺児の尖足歩行に対する術式選択の妥当性を検証することである。当センターでは、理学所見や麻痺のタイプに応じて、Vulpius法、Baker法、Baker + Flexor Hallucis Longus(FHL)移行法を選択してきた。2009～2016年に尖足に対して手術を施行し、術前と術後(平均22.6±8.2か月)で3次元歩行解析評価が可能であった、痙直型脳性麻痺児26例38足を対象としGPSで評価した。Baker法およびBaker + FHL移行法において平均GPSはそれぞれ15.5°から11.1°(p=0.001)、14.4°から9.6°(p=0.018)と改善を示した。この変化は、Minimal Clinically Important Difference (MCID)のそれぞれ2.7倍と3.0倍に相当する。以上より、当センターのBaker法、Baker + FHL移行法の術式選択は妥当と考える。

### はじめに

脳性麻痺(以下、CP)児の尖足歩行について、Roddaらはsagittal planeの股・膝・足関節のkinematicsに注目し分類を行った<sup>5)</sup>。Schutteらはさらにcoronal, axial planeの要素にも着目し、歩行速度やcadenceを取り入れたGillette Gait Indexを考案した<sup>6)</sup>。2008年にはSchwartzらがGait Deviation Index<sup>7)</sup>を、2009年にはBakerらがGait Profile Score(以下、GPS)<sup>2)</sup>を報告し、一歩行周期全体で正常歩行からの逸脱度を点数化する評価方法が主流となってきた。本邦において、

術後歩容評価に関してGPSを使用した報告は我々が渉猟し得た限りない。本研究の目的は、3次元歩行解析に基づいたGPSを用いて当科で施行している術式の妥当性について検討することである。

### 対象と方法

対象は、2008年から2016年までに当センターにて尖足に対して手術治療を施行した脳性麻痺児で、術前と術後1年から3年で歩行解析が可能であった26例38足とした。性別は男児18例、女児8例、手術時平均年齢は8.4歳(4～18歳)、

**Key words** : cerebral palsy(脳性麻痺), gait analysis(歩行解析), gait profile score(GPS)

**連絡先** : 〒006-0041 北海道札幌市手稲区金山一条1丁目240-6 北海道立子ども総合医療・療育センター 整形外科  
房川祐頼 電話(011)691-5696

**受付日** : 2018年6月17日

表 1. 患者背景

患者背景	
性別(男/女)	18 / 8
BMI (kg/m <sup>2</sup> )	17.2±3.0
GMFCS (I / II)	15 / 11
手術時年齢(年)	8.4±3.8
経過観察期間(月)	22.6±8.2

\* GMFCS : Gross Motor Function Classification System

表 2. single event multilevel surgery

手術術式	術式数 (脚)
GCSL(Vulpius)	17
GCSL(Baker)	9
GCSL(Baker)+FHL transfer	12
Distal hamstring lengthening	5
hip adductor lengthening	4
Intramuscular psoas/rectus lengthening	1
femoral derotational osteotomy	1

\* GCSL : Gastrocnemius-Soleus Lengthening

表 3. 術式別の GPS の変化

	pre-op average	post-op average	difference in means	p-value (t-test)
GPS (°)				
Vulpius	11.2	9.9	1.4	0.080
Baker	15.5	11.1	4.3	0.001
Baker+ FHL transfer	14.4	9.6	4.9	0.018

Gross Motor Function Classification System は I 15 例, II 11 例であった(表 1).

3次元動作解析装置(Vicon Motion Systems 社製: VICON-MXF20)と床反力計(AMTI 社製), 7台の赤外線ビデオカメラを使用した. データ解析は Vicon Work Station Ver 3.2, Excel spreadsheet(<https://wwrichard.net/resources/gps-map-and-gdi-calculators/>) を使用し GPS, Movement Analysis Profile(以下, MAP), 足関節の kinematics data を評価し, 術式別に術前後を比較した. 統計解析には SPSS ver.23(IBM)を用いて t 検定を行い, p<0.05 を有意差ありとした.

術式選択に関しては, 理学所見において膝屈曲位足関節背屈角度が 0° 以上の場合 Vulpius 法を, 0° 以下の場合 Baker 法を, さらに非対称性が強い症例や内反要素が強い場合 Baker + Flexor Hallucis Longus(以下, FHL)移行法を選択した. すべての術式で腹臥位での膝屈曲位足関節背屈角度が 10° となることを術中の矯正目標とし, 術後は 4 週から 6 週の膝下ギプス固定を行った<sup>4)</sup>.

## 結 果

施行した術式は, Vulpius 法 17 足, Baker 法 9 足そして Baker + FHL 移行法 12 足であった.

Single event multi-level surgery として施行した追加術式は表 2 に示した. Vulpius 法を施行した 2 例で, 膝屈曲位足関節背屈角度が 0° 以下となり再発を認めたため再手術を行った(1 例は術後 2.5 年経過時に再 Vulpius 法を, 1 例は術後 1.5 年経過時に Baker + FHL 移行法を, いずれも歩行解析直後に施行した). Knee, Ankle, Foot の項目における MAP 評価では, すべての術式で改善を認めた(図 1-a~c). 全歩行周期の GPS において, Vulpius 法では術前 11.2° から術後 9.9° に(p=0.080) 改善したが, 有意差は認めなかった. Baker 法では術前 15.5° から術後 11.1° に(p=0.001), Baker + FHL 移行法でも術前 14.4° から術後 9.6° へ(p=0.018) と有意に改善した(表 3). 初期接地時の足関節背屈角度については Baker 法では術前 -15.4° (SD±16.5) から 1.8° (SD±7.0) に(p=0.010), Baker + FHL 移行法では術前 -22.2° (SD±20.2) から -4.7° (SD±8.7) へと有意に改善した(p=0.015) (図 2-a). 立脚期足関節最大背屈角度においては, Baker 法では術前 -3.7° (SD ±13.8) から 22.7° (SD±7.0) (p<0.001), Baker + FHL 移行法では術前 -9.7° (SD ±25.3) から 18.2° (SD±7.7) へと有意に改善した(p=0.004) (図 2-b). 遊脚期足関節最大背屈角度にお

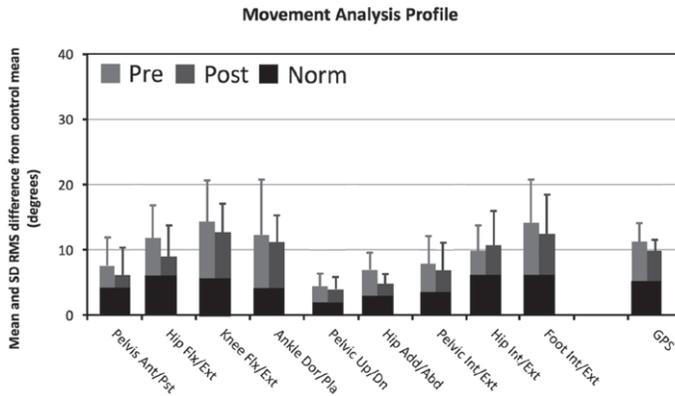


図 1-a. MAP (Vulipus)

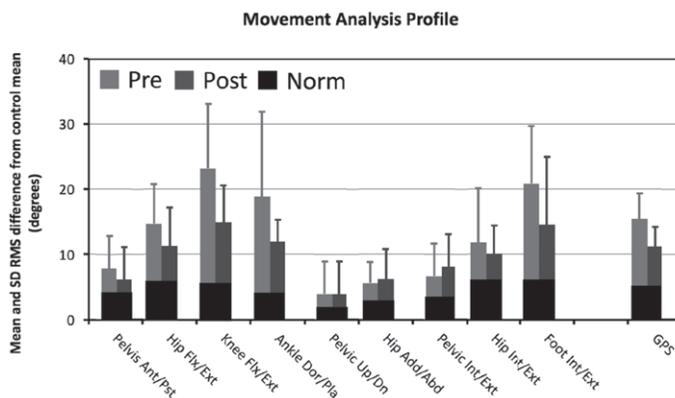


図 1-b. MAP (Baker)

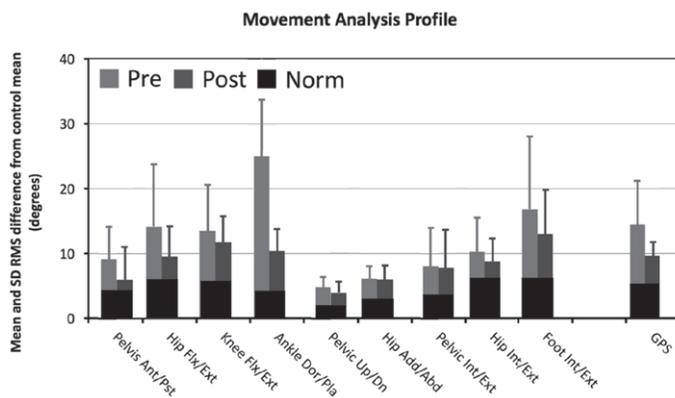


図 1-c. MAP (Baker + FHL transfer)

いては、Baker 法では術前  $-11.5^{\circ}$  (SD  $\pm 12.3$ ) から  $8.5^{\circ}$  (SD  $\pm 6.6$ ) ( $p < 0.001$ ), Baker + FHL 移行法では術前  $-20.3^{\circ}$  (SD  $\pm 16.7$ ) から  $3.1^{\circ}$  (SD  $\pm 9.1$ )へと有意に改善した( $p = 0.001$ ) (図 2-c).

## 考察

GPSは九つのkinematicsパラメータ(pelvis-sagittal, coronal, axial, hip-sagittal, coronal, axi-

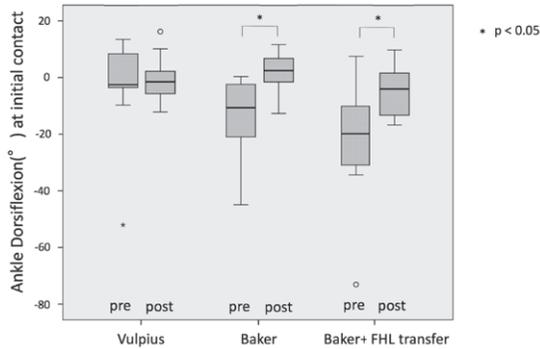


図 2-a. 初期接地時, 足関節背屈角度

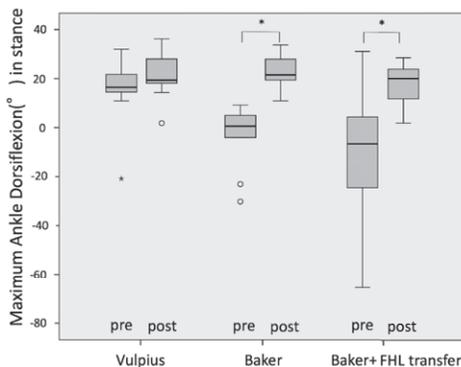


図 2-b. 立脚期, 足関節最大背屈角度

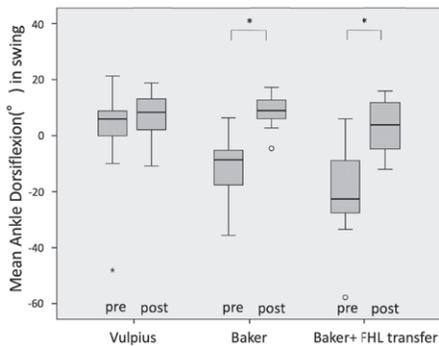


図 2-c. 遊脚期, 足関節平均背屈角度

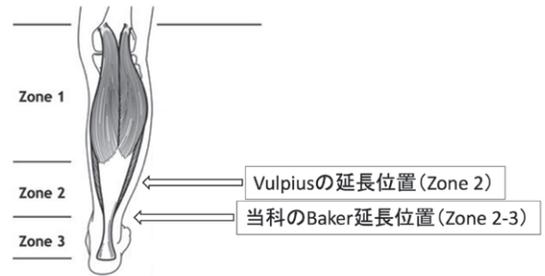


図 3. Zones of the gastrocnemius complex と延長位置 (Shore BJ らの systematic review (J Child Orthop 2010) から引用)

したがって, 本研究では, 術前後 GPS が Baker 法では  $4.3^\circ$  (2.7 MCID) 改善し, Baker + FHL 移行法では  $4.9^\circ$  (3.0 MCID) の改善を示し, これら二つの術式においては臨床的に有意な歩容改善が得られた. それに加えて, sagittal plane でも重要な評価ポイントである初期接地時, 立脚期最大, 遊脚期平均で足関節背屈角度の改善を認めていることから, Baker 法, Baker + FHL 移行法は症例の選択が妥当であったと考える (図 2-a~c).

脳性麻痺児の尖足歩行に対する下腿筋延長術に関して, Shore らは延長部位によって, 腓腹筋起始部から内側頭遠位端までを Zone 1, 腓腹筋内側頭遠位端からアキレス腱までを Zone 2, アキレス腱を Zone 3 と定義し, Vulpius 法, Baker 法はともに Zone 2 での延長術と分類している<sup>8)</sup>. 当センターの Baker 法は Baker の原著<sup>1)</sup>と異なり, Zone 2 のみならず Zone 3 に及ぶ領域で施行している (図 3). Tinney らは, Zone 2 の近位 1/3 よりも遠位 1/3 での延長の方が  $5.8\sim 9.3$  mm 延長量が大きくなることを報告しており<sup>9)</sup>, それゆえ, 当科の Baker 法は下腿筋拘縮の強い症例に対しても十分な矯正が得られたと考える. Vulpius 法に関しては, GPS や各定点の背屈角度に術前後の有意な変化はないが, 比較的軽症の症例に適応されている術式であり, 術後歩容を維持していると評価できる.

本研究の限界は, 足関節周囲以外の影響が考慮されていないことである. 上肢, 体幹, 股関節, 膝関節の動きは直接的ではないが少なからず足関

節, knee-sagittal, ankle-sagittal, foot-axial) において, 正常児歩行データベースからの逸脱度を一歩行周期全体で評価し, 角度表示したものであり, 小さい度数ほど正常歩行に近いことを意味する. また, GPS の変化が臨床的に有意となる最小限の変化 (Minimal Clinically Important Difference: 以下, MCID) は  $1.6^\circ$  と報告されている<sup>3)</sup>.

節の kinematics に影響を及ぼしていることが考えられる。しかし、GPS のみでなく足関節単独の背屈運動においても評価を行うことで、術式の妥当性について考察可能と考えている。

これまでの歩行解析は矢状面の立脚期足関節最大背屈角度のように、一方向からの定点での数値評価にとどまっていた。GPS の登場により、3次元歩行解析は時間軸を含めた4次元的评价に進化し、正常歩行というゴールとの比較を可能にした。今後は長期成績不良例や再発例を調査し、GPS やその各パラメータにおいて予後予測因子を検討し、新たな治療アルゴリズムの確立へとつなげていきたい。

## 結 語

脳性麻痺児尖足歩行に対する術式選択の妥当性について GPS を用いて調査した。理学所見と重症度のレベルに応じて Vulpius 法, Baker 法, Baker + FHL 移行法を選択し良好な成績を得た。

## 文献

- 1) Baker LD : A rational approach to the surgical needs of the cerebral palsy patient. *J Bone Joint Surg Am* **38-A** : 313-23, 1956.
- 2) Baker R, McGinley JL, Schwartz MH et al : The Gait Profile Score and Movement Analysis Profile. *Gait Posture* **30** : 265-269, 2009.
- 3) Baker R, McGinley JL, Schwartz M et al : The minimal clinically important difference for the Gait profile Score. *Gait Posture* **35** : 612-615, 2012.
- 4) 藤田裕樹, 松山敏勝, 山下敏彦 : 北海道における小児整形外科 脳性麻痺児の治療. *北整災誌* **57** : 53-58, 2015.
- 5) Rodda JM, Graham HK, Carson L et al : Sagittal gait patterns in spastic diplegia. *J Bone Joint Surg Br* **86** : 251-258, 2004.
- 6) Schutte LM, Narayanan U, Stout JL et al : An index for quantifying deviations from normal gait. *Gait Posture* **11** : 25-31, 2000.
- 7) Schwartz MH, Rozumalski A : The gait deviation index : a new comprehensive index of gait pathology. *Gait Posture* **28** : 351-357, 2008.
- 8) Shore BJ, White N, Graham HK : Surgical correction of equinus deformity in children with cerebral palsy : a systematic review. *J Child Orthop* **4** : 277-290, 2010.
- 9) Tinney A, Khot A, Eizenberg N et al : Gastrocsoleus recession techniques : an anatomical and biomechanical study in human cadavers. *Bone Joint J* **96-B** : 778-782, 2014.

## DDH に対して RB で確実に整復される治療開始時期

亀田第一病院 整形外科

渡 邊 研 二

**要 旨** RB で確実に整復・治療ができる時期および脱臼の程度を知ることは有益であると考え、過去に DDH で整復治療を行った症例を調査し、検討した。対象は 1992 年 12 月から当院で超音波診断にて Graf 分類タイプ D 以上の DDH に対して整復治療を行った 78 例で、症例の内訳は女児 74 例、男児 4 例であった。整復治療開始は生後 0~190 日(平均 86 日)で、生後 2 か月までの開始は 28 例、生後 3~4 か月の開始は 26 例、生後 5~7 か月の開始は 24 例であった。また、Graf 分類で両側 D 以上を両側 DDH とすると片側例が 72 例、両側例は 6 例であった。生後 2 か月までに治療が開始された例はすべて RB で整復されていた。生後 3 か月以降の治療開始では RB では整復されず、OHT に移行する症例があった。今回の調査から、生後 2 か月までの症例は RB で確実に整復治療が可能であるが、その後はタイプ IV の高度脱臼になる症例が増えていき RB での整復困難例となるように思われた。

### 序 文

発育性股関節形成不全(DDH)の RB による治療法は 1957 年 Pavlik によって報告された<sup>8)</sup>。そして 1961 年に鈴木<sup>9)</sup>により本邦でも紹介され、保存療法の第一選択として普及して行った。しかし、その後、RB による整復率は 75~85% との報告が多く<sup>3)5)10)</sup> いろいろな対策が報告された<sup>4)6)</sup> が、整復率はほとんど変わらないのが現状である。井上<sup>3)</sup> は山室の a 値が小さいと整復されにくいと報告したが、畠山は X 線画像から整復可能か否かの予測を判定することはできなかつたと述べている<sup>2)</sup>。今回、超音波にて発育性股関節形成不全の股関節の状態を診断して RB で確実に整復・治療ができる時期および脱臼の程度を知ることは有益であると考え、過去に超音波で股関節の状態を把握した DDH 症例の整復治療例を調査し、検討した。

### 対象および方法

1992 年 12 月から当院で超音波診断にて Graf 分類タイプ D 以上の DDH に対して整復治療を行った 78 例で、症例の内訳は女児 74 例、男児 4 例であった。治療開始は生後 0~190 日(平均 86 日)で、生後 2 か月までの開始は 28 例 34 関節で、Graf 分類でタイプ D が 4 関節、タイプ III a が 30 関節であった。生後 3~4 か月の開始は 26 例 26 関節で、Graf 分類でタイプ D が 7 関節、タイプ III a が 14 関節、タイプ III b が 4 関節、タイプ IV が 1 関節であった。生後 5~7 か月の開始は 24 例 24 関節で、Graf 分類でタイプ D が 4 関節、タイプ III a が 15 関節、タイプ IV が 5 関節であった(表 1)。これらの症例に対して原則的には RB 装着にて治療を行い、その整復を確認した。また、初診時で RB での整復は難しいと判断して、初期治療から OHT による治療をした症例が 5 例あり、これらは RB での整復不可能例とした。

**Key words** : DDH(発育性股関節形成不全), Pavlick harness(リーメンビューゲル), ultrasonography(超音波)  
連絡先 : 〒 950-0165 新潟県新潟市江南区西町 2-5-22 亀田第一病院 整形外科 渡邊研二 電話(025)382-3111  
受付日 : 2018 年 1 月 21 日

表 1. 治療開始時期と Graf 分類

治療開始時期 Graf 分類	生後2か月まで 28例34股関節	生後3~4か月 26例26股関節	生後5~7か月 24例24股関節
タイプ D	4	7	4
タイプ III a	30	14	15
タイプ III b	0	4	0
タイプ IV	0	1	5
計	34	26	24

## 結果

生後2か月までに治療が開始されたタイプ D の4関節とタイプ III a の30関節は、すべて RB で整復されていた。生後3~4か月で治療開始された26例中24例は RB で整復されたが、タイプ IV の1例は RB で整復されず、OHT で整復された。また、タイプ IV の1例は RB 治療せず、初期治療から OHT で治療整復されていた。生後5~7か月の開始では24例中19例は RB で整復され、タイプ IV の1例 RB で整復されず、OHT で整復された。タイプ III a の1例とタイプ IV の3例は初期治療から OHT で治療整復されていた。したがって、生後2か月までに RB 治療が開始された例は34関節すべて整復され、整復率は100%であり、生後3~4か月で治療開始された26例中24例は RB で整復されており、整復率は92.3%であった。さらに生後5~7か月の開始では、24例中19例は RB で整復されており、整復率は79.2%であった(図1)。

整復後のペルテス病様変形について、1歳以後まで X 線評価ができた75例に対して調査できた。生後2か月までに RB 治療が開始された例は28例中26例の X 線評価ができ、ペルテス病様変形を認める症例はなかった。生後3~4か月で治療開始された26例すべて X 線評価ができ、1関節に白蓋緑の変形を認めたが、ペルテス病様変形を認める症例はなかった。生後5~7か月に開始された24例中23例で X 線評価ができ、RB 治療されたタイプ III a の1関節と初期治療から OHT で治療整復されたタイプ IV の2関節にペルテス病

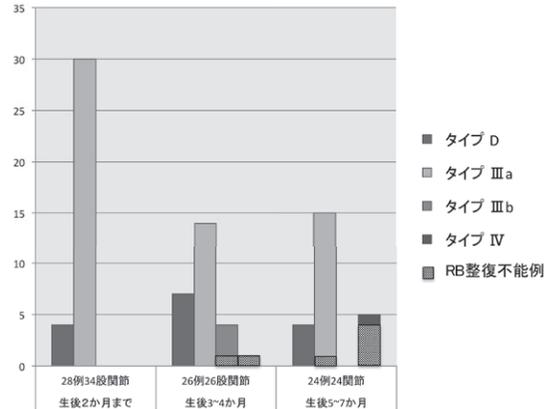


図 1. 整復治療の結果

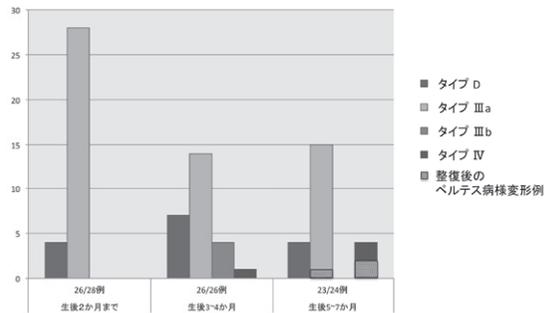


図 2. 整復後のペルテス様変形

様変形を認め、23例中3関節(13%)にペルテス病様変形が生じた(図2)。

## 症例

生後41日、女児。左股関節に開排制限とクリックサインを認めた。超音波検査で左股関節は Graf 分類のタイプ III a で、関節唇の内反を認め(図3-A)、同日に RB 治療を開始した。RB 装着1週間で前方からの超音波検査にて左股関節が整復されたことを確認した(図3-B)。その後、RB 装着2週間で側方からの股関節を超音波にて確認した(図4-A)。RB 装着1か月後でタイプ II a に改善し(図4-B)、治療開始2か月でタイプ I に改善し、股関節の安定性も良好と判断して RB を除去した(図4-C)。その後、1歳時の X 線検査で右股関節に比べ、やや骨頭核は小さいがペルテス病様変形はなく(図5-A)、4歳時の X 線検査でも

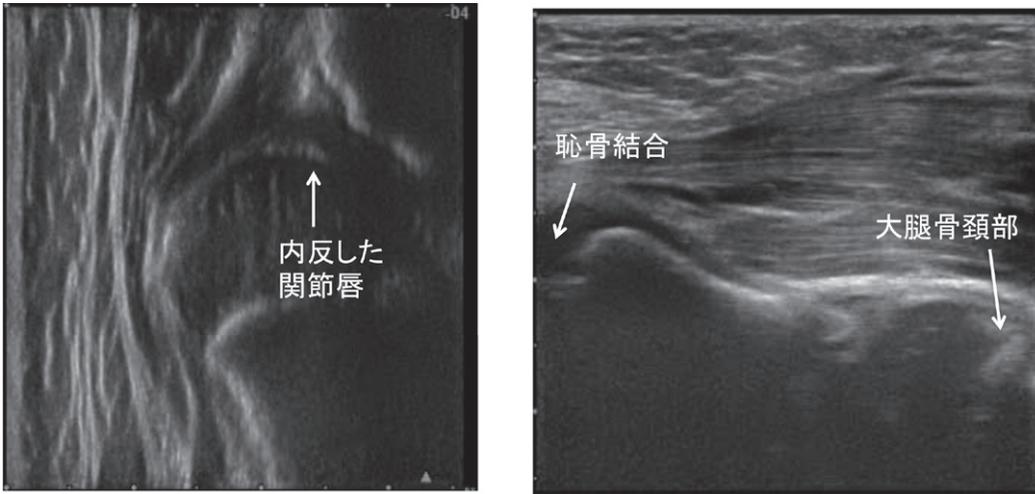


図 3. 生後 41 日 左發育性股関節形成不全  
 a: 左股関節タイプⅢ a Click(+)  
 b: RB 装着 1 週間 前方から整復を確認

a|b

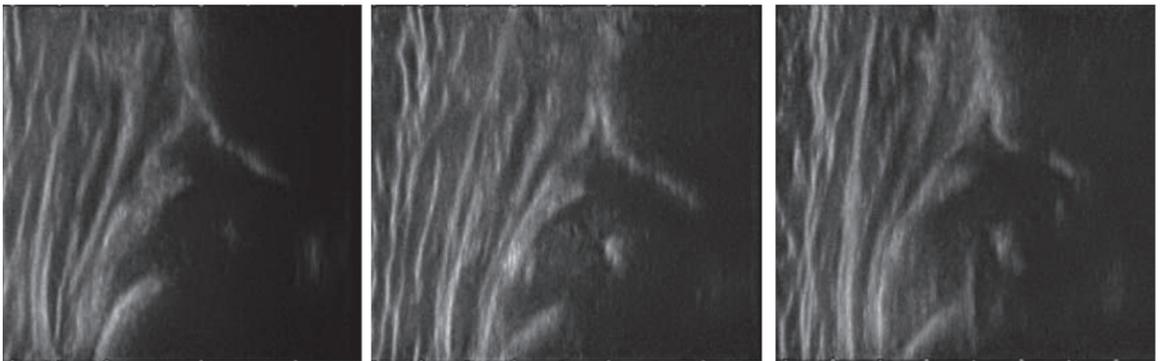


図 4. 左發育性股関節形成不全 整復後の超音波画像  
 a: RB 装着 2 週 側方から整復確認  
 b: RB 装着 4 週 タイプⅡ a に改善  
 c: RB 装着 2 か月 タイプⅠとなり RB 除去

a|b|c

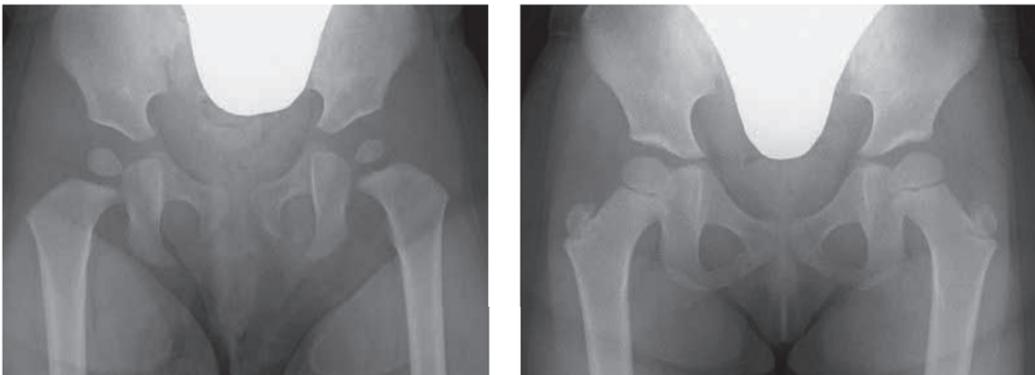


図 5. 左發育性股関節形成不全整復後の X 線画像  
 a: 1 歳時 左股関節の骨端核がやや小さい  
 b: 4 歳時 両股関節に左右差はなく、ペルテス様変形もない

a|b

異常所見は認められない(図 5-B).

## 考 察

RB による発育性股関節形成不全の治療は、初期治療の保存療法として本邦でも普及してきたが、すべての脱臼が整復されるわけではない。RB の整復率の報告は、1987 年に河上<sup>5)</sup>は 82.7% (48/58 例)と報告し、1989 年に畠山<sup>2)</sup>は 66% (252/382 股関節)であったと報告、さらに 1994 年に井上<sup>3)</sup>は 79%(79/100 股関節)と報告している。最近では、2013 年に和田ら<sup>10)</sup>は生後 3.5~4.8 か月の 1523 例を調査し、整復率は 81.9% と報告した。また、2014 年に Clarke<sup>1)</sup>らは、生後 6 週で RB 治療をした整復率は 774 股関節の 94.7% であった、さらに生後 12 週以降は遅診断と定義し RB での整復が困難になることが多いと述べている。2016 年に村上<sup>7)</sup>は、生後 3 か月未満での RB 治療の整復率は 92.6%(25/27 股関節)であったと報告した。

今回の調査から、生後 2 か月までの 34 股関節ではタイプ IV になる症例はなく、RB で確実に整復治療が可能であるが、その後はタイプ IV の高度脱臼になる症例が増えていき RB での整復困難例が出てくるのが分かった。

RB 治療の合併症として大腿骨頭壊死があるが、井上<sup>3)</sup>は RB 治療による 79 股関節の整復例中 14% にペルテス病様変形が発症し、山室の a 値が 7 mm 以下の例では注意が必要であると述べている。2013 年の和田ら<sup>10)</sup>の調査では骨頭壊死の発生率は 11.5% と報告された。我々の今回の調査では、生後 4 か月未満の RB 治療例ではペルテス病様変形はなく、5 か月以降の治療例で、RB 治療した 1 例と初期治療から OHT で治療整復された 5 例中 2 例の X 線で経過観察できた 23 例中 3 例 (13%) にペルテス病様変形を認めた。

本邦での RB 治療の開始時期については、低月齢児では骨頭核変形発生の危険が大きいということで生後 3 か月ごろから始めたほうがよいとされてきた。しかし、岩崎<sup>4)</sup>は脱臼したままたとえ 1~2 か月でも経過することによる脱臼の高度化

と、臼蓋や骨頭の軟骨の器質的変化が進展することへのマイナスの面を重視し、なるべく早く整復して正常の発育の軌道に乗せてやる方を選ぶと述べている。また、Wenger ら<sup>11)</sup>は生後 1~3 日目の臨床所見と超音波診断で脱臼と診断した 229 例に von Rosen による早期治療を行い、2 例 (0.9%) に軽度の骨頭壊死が発症したが、無症状で自然治癒した。早期治療は骨頭壊死発生のリスクを下げ、安全であると述べている。

今回の調査では、症例数が少なく、すべて最初から RB 治療を選択した症例でないことに限界がある。しかし、超音波検査で発育性股関節形成不全の股関節状態を確認し、整復を調査したところ生後 2 か月までは Graf 分類のタイプ IV の高度脱臼例はなく、すべて整復され、その後もペルテス病様変形がなかった。このことから早期に過外転に注意した、RB 治療で良好な結果が得られるものと考えられる。

## 結 論

今回の調査からは、DDH で生後 2 か月以内の症例は Graf 分類のタイプ IV まで高度に脱臼している症例はなく、すべて RB で整復されていた。また、生後 3~4 か月での RB 整復率は 92.3% で、生後 5~7 か月整復率は 79.2% で、治療開始が遅れるに従い高度脱臼例が多くなり整復率は低下した。また、ペルテス病様変形も生後 4 か月までの治療を開始した症例にはなかったが、生後 5~7 か月で治療を開始したタイプ III a の 1 関節、タイプ IV の 2 関節にペルテス病様変形が生じており、やはり治療の遅延と高位脱臼が影響するものと考えられる。

## 文献

- 1) Clarke N et al : Twenty years experience of selective secondary ultrasound screening for congenital dislocation of the hip. Arch Dis Child 97 : 423-29, 2012.
- 2) 畠山征也 : Riemenbügel で治療を開始した先天性股関節完全脱臼症例の追跡調査. 新潟医学会雑誌 103 : 1011-1028, 1989.

- 3) 井上敏生ほか：R.B. 法による先天股脱治療における脱臼度の検討. 整外と災外 **43** : 686-688, 1994.
- 4) 岩崎勝郎：Riemenbügel 法. 整形外科 MOOK **25** : 31-43, 1983.
- 5) 河上哲生：リーメンビューゲル法による先天股脱の長期治療成績. 岡山医学会雑誌 **99** : 971-985, 1987.
- 6) 松元信輔ら：リーメンビューゲル法不成功例の検討. 日整会誌 **54** : 1369-1371, 1980.
- 7) 村上玲子：生後 3 か月未満でリーメンビューゲル装具を装着した股関節脱臼の治療成績. 日小整会誌 **25** : 11-15, 2016.
- 8) Pavlik A : Die funktionelle Behandlungsmethode mittels Riemenbügel als Prinzip der konservativen Therapie bei angeborenen Hüftgelenksverrunkungen der Säuglinge. Z Orthop **89** : 341-352, 1957.
- 9) 鈴木良平：いわゆる Riemenbügel (Pavlik) による乳児先天股脱の治療経験. 整形外科 **12** : 1148-1152, 1961.
- 10) Wada I, Sakuma E, Otsuka T et al : The Pavlik harness in the treatment of developmentally dislocated hips : results of Japanese multicenter studies in 1994 and 2008. J Orthop Sci **18** : 749-753, 2013.
- 11) Wenger D, Samuelsson H, Düppe H et al : Early treatment with the von Rosen splint for neonatal instability of the hip is safe regarding avascular necrosis of the femoral head. Acta Ortop **87** : 169-175, 2016.

## 幼少期股関節 MRI による primary acetabular dysplasia の予測

金沢こども医療福祉センター 整形外科

野村 一世・櫻 吉 啓 介

**要 旨** 近年, primary acetabular dysplasia (PAD) の寛骨臼の発育予測が困難であることが問題となっている。幼少期の MRI で寛骨臼の発育が予測可能かどうかを検討した。【方法】ペルテス病患児 28 例の健側 28 股関節を対象とした。骨成長後 X 線 CE 角  $20^{\circ}$  未満を PAD 群 ( $n=6$ ), CE 角  $20^{\circ}$  以上を正常群 ( $n=22$ ) とし、幼少期股関節 MRI との関連性を調べた。【結果】幼少期 MRI 撮影時の平均年齢は 7.2 歳, 骨成長後 X 線撮影時の平均年齢は 15.0 歳だった。幼少期 X 線像骨性 CE 角 (Bony Center-Edge Angle : BCE 角) は, PAD 群が平均  $8.7^{\circ}$ , 正常群が平均  $14.7^{\circ}$  だった。幼少期 MRI 軟骨性 CE 角 (Cartilaginous Center-Edge Angle : CCE 角) は, PAD 群が平均  $18.7^{\circ}$ , 正常群が平均  $26.1^{\circ}$  だった。PAD 群では BCE 角が  $10^{\circ}$  未満であることと, CCE 角が  $20^{\circ}$  未満であることが有意に多かった ( $p<0.01$ )。BCE 角と骨成長後 X 線 CE 角の相関係数は 0.58, CCE 角と骨成長後 X 線 CE 角は 0.62 だった。【考察】PAD は BCE 角, CCE 角と明らかな関連性があった。特に CCE 角は骨成長後の CE 角との差が小さく, 将来の寛骨臼形態を予測する一助となる。

### はじめに

PAD は股関節脱臼・亜脱臼がなく, 求心性が良好な寛骨臼形成不全である。我が国では一次性変形性股関節症の頻度は 9% と低いにもかかわらず<sup>3)</sup>, 天野らは OA 手術症例 127 名の 93 名 (73%) に股関節の治療歴がなかったと報告しており<sup>1)</sup>, つまりその多くが PAD であると推察される。そのため小児期に PAD の程度が強い場合は外科的治療を必要とする可能性が示唆されるが, 実際は寛骨臼の発育予測は困難であると報告されており<sup>4)</sup>, 手術に踏み切る裏付けを持つことは難しい。

そこで我々は, 寛骨臼成長終了時の骨頭被覆が幼少期の股関節 MRI で予測できると仮説を立てた。本研究の目的は, 同一症例で幼少期股関節 MRI と成長終了時の X 線像を比較し, その関連性を調査することである。

### 方 法

当院で治療を行ったペルテス氏病の患児 28 例の, 健側 28 股関節を対象とした。幼少期に撮影した股関節 MRI で CCE 角と軟骨性 AHI (Cartilaginous Acetabular Head Index : 以下, CAHI) を, X 線像で BCE 角を計測し, 臼蓋嘴が骨化するまで成長した後の X 線像での CE 角 (以下, CE 角), AHI (以下, AHI) と比較し関連性を調べた。男児が 21 名, 女児が 7 名で, 幼少期の評価時の平均年齢は 7.2 歳 (5~9 歳), 骨化後の評価時の平均年齢は 16.7 歳 (14~23 歳) であった。MRI は Aperto 0.4T (日立製作所, 東京) を使用し, T1 強調像冠状面の骨頭中心に最も近い断面を選択した。CCE 角の基準線は坐骨下縁を結ぶ線とし, MRI の T1 強調像で比較的高輝度である軟骨性臼蓋と, 低輝度な関節唇の境界を軟骨性臼蓋縁と

**Key words** : primary acetabular dysplasia (一次性寛骨臼形成不全), magnetic resonance imaging (MRI), developmental dysplasia of the hip (發育性股関節形成不全)

連絡先 : 〒 920-3114 石川県金沢市吉原町 6-2 金沢こども医療福祉センター 整形外科 野村一世 電話 (076) 257-3311  
受付日 : 2018 年 1 月 31 日

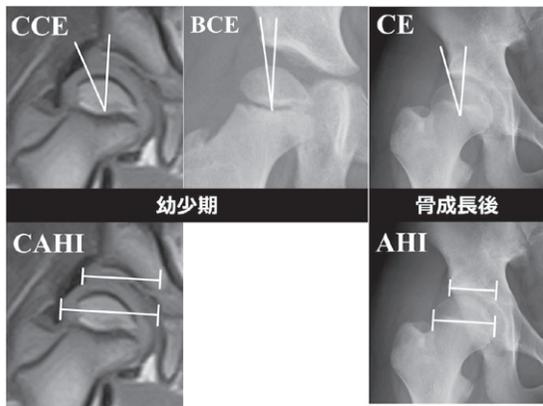


図1. 各項目の測定：幼少期はMRIでCCE角とCAHIを，X線像でBCE角を測定し，骨成長後はX線像でCE角とAHIを計測した。

した。CCE角とAHIはこの軟骨性白蓋外側縁で計測し，BCE角は単純X線像で白蓋硬化像の外側端で計測した(図1)。統計処理はFisher正確確率検定を行い，有意水準0.05とした。

### 結果

幼少期の平均BCE角は13.4°，CCE角は25.0°，CAHIは78.9%で，骨成長後のCE角は28.0°，AHIは81.7%であった。骨成長後単純X線像でCE角<20°であった28例中6例(21%)をPAD群，CE角≥20°の22例(79%)を正常群に分類した。BCE角とCE角の差は平均14.3°(95%CI=11.7~16.9)で，相関係数は0.58であった。(図2)。幼少期CCE角と骨成長後CE角の差は2.9°(95%CI=0.85~4.93)で，相関係数は0.62であった(図3)。幼少期CAHIと骨成長後AHIの差は3.1%(95%CI=0.75~5.47)で，相関係数は0.52であった(図4)。PAD群はBCE角が10°未満であることと，CCE角が20°未満であることが有意に多かった(p<0.01)が，CAHIとAHIに有意な関連性はなかった(表1)。

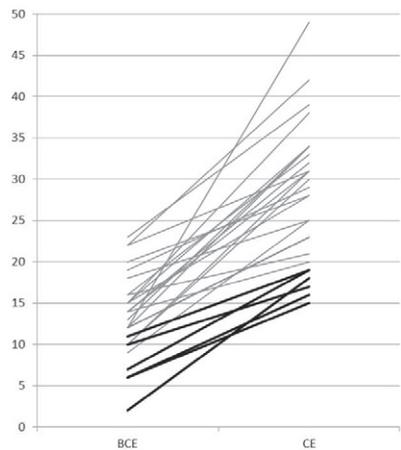


図2. BCE角からCE角への推移：太線はPAD群であり，多くはBCE角<10°である。

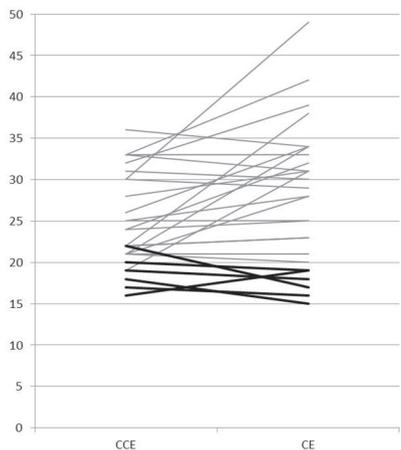


図3. CCE角からCE角への推移：PAD群の多くはCCE<20°であり，両者で一致性が高い。

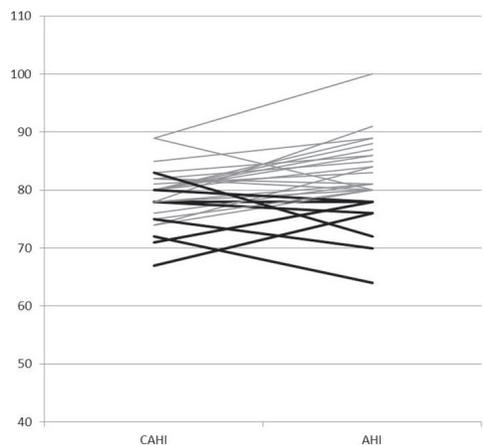


図4. CAHIからAHIへの推移：PAD群はCAHIが低い傾向がみられた。

表 1. 2 群間での各計測項目の症例数

	正常群	PAD 群	P-value
BCE > 10°	21	2	p=0.0034
BCE < 9°	1	4	
CCE > 21°	21	2	p=0.0007
CCE < 20°	1	4	
CAHI ≥ 81°	6	3	p=0.43
CAHI < 81°	9	10	

症 例

症例 1：女児。8 歳時は BCE 角 10° とやや低値であるが CCE 角 28° と良好であり、骨成長後は CE 角 28° となった(図 5)。

症例 2：女児。7 歳時は BCE 角 2° と低値であり寛骨臼矯正手術を考慮するような症例であるが、CCE 角は 20° と比較的軽度な PAD であり、骨成長後は CE 角 19° で CCE 角と同程度となった(図 6)。

考 察

本研究では幼少期の股関節 MRI と骨成長後の X 線像を比較し、各計測値の関連性を調べた。その結果、幼少期 BCE 角、CCE 角は骨成長後 CE 角と、幼少期 CAHI は骨成長後 AHI とそれぞれ相関を認め、CCE 角 < 20° と CE 角 < 10° で PAD が有意に多い強い結果が得られた。中でも CCE 角は骨成長後 CE 角と差が小さく、将来の寛骨臼形態を予測する上で有用であると思われた。

Terjesen T は DDH60 症例の分析を行い、亜脱臼がない CE 角 < 20° では関節症の発症は 22% だが、CE 角 < 16° では全例が関節症を発症した述べている<sup>8)</sup>。Wenger DR らは寛骨臼形成不全が高度であれば、亜脱臼がなくても早期の手術を勧めている<sup>9)</sup>。したがって、幼少期に将来の寛骨臼形態を予測できることが望ましいが、有用な手段は報告されておらず予測は困難といわれている。

軟骨性寛骨臼の形態が正常でも骨化が遅延している症例では、X 線像での CE 角や α 角がより悪

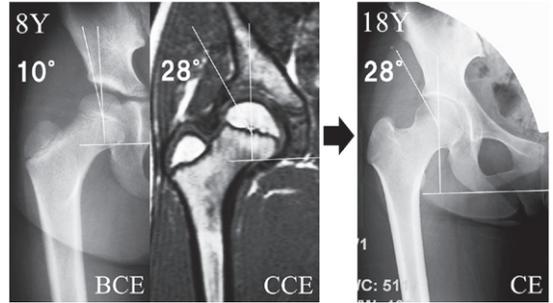


図 5. 症例 1：幼少期 BCE は低値だが CCE 角は良好であり、成長により良好な発育がみられた。

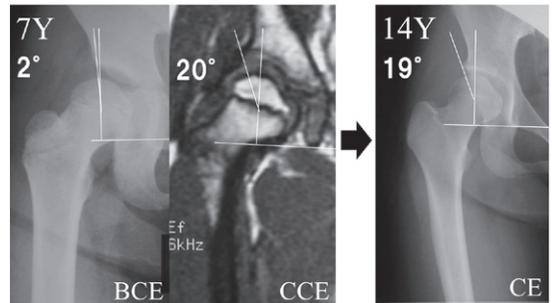


図 6. 症例 2：幼少期 BCE 角はかなり低値であるが CCE 角は比較的良好であり、それにほぼ一致した骨成長がみられた。

くなる。幼少期に寛骨臼形成手術の適応を考える際に X 線像単独で評価を行うことは危険であり、実際に骨頭を被覆している軟骨性寛骨臼の評価は必要であると考えられる。幼少期の寛骨臼形態に関する過去の MRI の報告として、Douira-Khomsli W らは幼少期の 27 例で MRI を撮影し、骨盤矯正手術の適応を決定する上で有用であったと述べている<sup>2)</sup>。Li らは MRI で軟骨性寛骨臼による骨頭被覆を評価し、その平均値は 16 歳以下の各年齢間でほぼ差がないと報告した<sup>5)</sup>。幼少期の軟骨性白蓋被覆が骨成長後の骨性白蓋被覆と大きく変わらないということを示唆するため注目に値する報告であるが、横断研究であるため個々の症例の寛骨臼の発達を評価したものではない。そこで、本検討では個々の症例の経時的変化を調べたところ、幼少期 CCE 角から骨成長後 CE 角で大きく減少する症例はなく、平均 3° の増加がみられ、多くの症例で変化量は小さく類似した結果であった。

表 2. BCE 角 ≤ 10° の症例の推移

BCE(°)	CCE(°)	CE(°)	病態
10	31	30	骨化遅延
9	24	25	
10	28	31	
mean 9.7	mean 27.7	mean 28.6	
6	17	16	P A D
6	18	15	
10	22	17	
2	20	19	
7	19	19	
mean 6.2	mean 19.2	mean 17.2	

これにより幼少期の CCE 角は、骨成長後 CE 角を予測する上で有用であることが示された。

幼少期における寛骨臼の矯正手術の適用について問題となる BCE 角 ≤ 10° の症例は 8 例で、骨成長後 CE 角が 20° 以上となったのは 3 例、20° 未満となった PAD は 5 例であった(表 2)。正常となった例は CCE 角が平均 27.7° と高く、PAD となった例は平均 19.2° と低かった。前者は軟骨性寛骨臼に問題はないが、X 線像で骨化が進行していないただの骨化遅延であり、後者は軟骨性寛骨臼が低形成であるので真の形成不全であるといえる。MRI を撮影することにより、この両者の区別をすることが重要であると考えられる。

本研究の限界としては、CE < 15° の重度症例がないこと、男子が多く DDH 研究の母集団としてはやや不適切である可能性があることが挙げられる。次に、本研究では既に撮影されたスライスの 1 枚を選んで使用しているため、坐骨下縁を結んだ基準線や軟骨性臼蓋縁の位置にある程度の誤差が生ずると推察される。今後は 3D 画像を用いて誤差を減じた研究が期待される。さらに、幼少期 CCE 角から骨成長後 CE 角で大きく改善する例が数例みられたが、この違いを予測することは本研究ではできなかった。寛骨臼の発育には関節の安定性、大腿骨前捻角<sup>6)</sup>、骨頭前方の被覆<sup>8)</sup>など多くの要素が関係するため、寛骨臼の成長予測は MRI での軟骨性寛骨臼評価のみで行うことはできない。今後はそれらの要素をさらに分析する必要がある。

## 結 語

幼少期 BCE 角、CCE 角は骨成長後 CE 角と、幼少期 CAHI は骨成長後 AHI とそれぞれ相関を認め、CCE 角 < 20° と CE 角 < 10° で PAD が有意に多い強い結果が得られた。中でも CCE 角は骨成長後 CE 角と差が小さく、寛骨臼の発育を予測する上で有用である。

## 文献

- 1) 天野敏夫, 岡 潔, 林田洋一: 臼蓋形成不全の早期発見と予防. 日小整会誌 25(1): 23-25, 2016.
- 2) Douira-Khomsis W, Smida M, Louati H et al: Magnetic resonance evaluation of acetabular residual dysplasia in developmental dysplasia of the hip: a preliminary study of 27 patients. J Pediatr Orthop 30(1): 37-43, 2010.
- 3) Jingushi S, Ohfuji S, Sofue M et al: Multiinstitutional epidemiological study regarding osteoarthritis of the hip in Japan. J Orthop Sci 15(5): 626-631, 2010.
- 4) Kobayashi D, Satsuma S, Kuroda R et al: Acetabular development in the contralateral hip in patients with unilateral developmental dysplasia of the hip. J Bone Joint Surg 92-A: 1390-1397, 2010.
- 5) Li Y, Liu Y, Zhou Q et al: Magnetic resonance imaging evaluation of acetabular orientation in normal Chinese children. Medicine (Baltimore) 95(37): e4878, doi: 10.1097, 2016.
- 6) Noble PC, Kamaric E, Sugano N et al: Three-dimensional shape of the dysplastic femur: implications for THR. Clin Orthop Relat Res 417: 27-40, 2003.
- 7) 坂井孝司, 高尾正樹, 花之内健仁ほか: 日本人女性の股関節臼蓋に対する 3次元形態評価. Hip Joint 35: 657-659, 2009.
- 8) Terjesen T: Residual hip dysplasia as a risk factor for osteoarthritis in 45 years follow-up of late-detected hip dislocation. J Child Orthop 5(6): 425-431, 2011.
- 9) Wenger DR: Is there a role for acetabular dysplasia correction in an asymptomatic patient? J Pediatr Orthop 33: S8-12, 2013.

## 環軸関節回旋位固定に対する持続牽引治療

日下部 浩<sup>1)</sup>・内川 伸一<sup>2)</sup>

1) いなぎ整形外科内科

2) 国立研究開発法人国立成育医療センター 整形外科

**要旨** 環軸関節回旋位固定 (Atlantoaxial Rotatory Fixation : 以下, AARF) の持続牽引による治療成績を検討した。2006年5月～2017年6月に国立成育医療研究センター病院, ふれあい町田ホスピタルおよび藤田保健衛生大学坂文種報徳會病院の3施設で治療されたAARF症例24(男7, 女17)例を対象とした。重症度評価にはPangの分類を用い, 牽引治療開始から整復位確認までの期間, 回旋方向の変化と治療後の症状の再発の有無を評価した。全例に整復位が得られ, 牽引治療開始から整復位確認までの期間はPang分類Type III, II, Iでそれぞれ平均2.5日, 9.9日, 9.8日であった。回旋方向の変化は6例(25%), 治療後の症状の再発は2例に見られた。AARFに対する持続牽引治療は重症例に対しても有用であった。AARFでは治療中回旋方向が変化することや, いったん整復位が得られても症状が再発することがあり, 環軸関節が不安定な期間を認めることがある。

### はじめに

環軸関節回旋位固定 (Atlantoaxial Rotatory fixation : 以下, AARF) は急性に頸部痛と斜頸位を呈する疾患である。斜頸位とともに反対側への回旋位を伴う頭位が特徴的で, この頭位はcock robin deformity と呼ばれる<sup>6)</sup>。その病態は環軸関節の回旋位でのlockingであり<sup>6)</sup>、自然経過とともに症状が軽快する軽症例では問題になることはないが, 治療に難渋する重症例に対しては頭蓋輪牽引や椎間固定などの侵襲的な治療についての報告が多い<sup>1)~3)5)9)</sup>。我々は重症のAARFに対しても持続牽引によって治療を行っている<sup>4)</sup>。今回, 我々は持続牽引により治療されたAARF症例の症状経過および治療成績について検討を行った。

### 方法

我々のAARFに対する牽引治療は, ベッドの

頭側を10.5°挙上し, その傾斜を利用して患児の頭部をグリソン帯にてつり下げるもので, 清拭, 排泄もすべてベッド上にて行い, 24時間持続して行っている(図1)<sup>4)</sup>。

対象症例は2006年5月～2017年6月に国立成育医療研究センター病院, ふれあい町田ホスピタルおよび藤田保健衛生大学坂文種報徳會病院の3施設で治療された24(男7, 女17)例である。発症時年齢は3.0～12.2(平均7.5)歳, 観察期間は2か月～7年6か月(平均2年4か月)であった。

重症度評価にはPangの分類を用いた<sup>6)</sup>。Pangの分類は環椎の軸椎に対する回旋位でのlockingの程度を動的CTに基づく重症度の降順にType III, II, Iに分類するとともに, 治療前罹病期間からacute, subacute, chronicとして分類する<sup>7)</sup>。

牽引治療開始から整復位確認までの期間, 回旋方向の変化と治療後急性期(牽引中止後2週間以

**Key words** : atlantoaxial rotatory fixation (環軸関節回旋位固定), AARF (AARF), continuous traction (持続牽引), traction by Glisson sling (グリソン牽引)

**連絡先** : 〒182-0002 東京都調布市仙川町3-24 ウィステリア仙川1階A 仙川整形外科 日下部浩 電話(03)3305-0088  
**受付日** : 2018年6月1日



図1. 牽引方法

ベッドの頭側を挙上し、その傾斜を利用して患児の頭部をグリソン帯にてつり下げるもので、24時間持続して行っている。靴下を装着させ、マットレス表面には畳表を敷いて摩擦を軽減している。

表1. Pang 分類

	Type III	Type II	Type I
acute	3	5	2
subacute	1	8	0
chronic	0	3	2

内とした)の症状の再発の有無について検討を行った。

### 結果

治療前の Pang 分類は治療前罹病期間別に見ると acute では Type III が3例, Type II が5例, Type I が2例, subacute では Type III が1例, Type II が8例, chronic では Type II が3例, Type I が2例であった(表1)。

全例に整復位が得られた。牽引治療開始から整復位確認までの期間は Pang 分類 Type III, II, I でそれぞれ平均2.5日, 9.9日, 9.8日であった(図2)。回旋方向の変化は6例(25%)、治療後の症状の再発は2例に見られた(表2)。

症状の再発が認められた2例は Type II ,subacute で発症から牽引まで46日であった症例と、Type II ,chronic で発症から牽引までの期間が102日であった症例であり、この症例は回旋方向の変化も認めている(表3)。再発の対処として1例目は臥位安静5日間、2例目は再牽引37日間が行われ、2例ともその後経過は良好である。

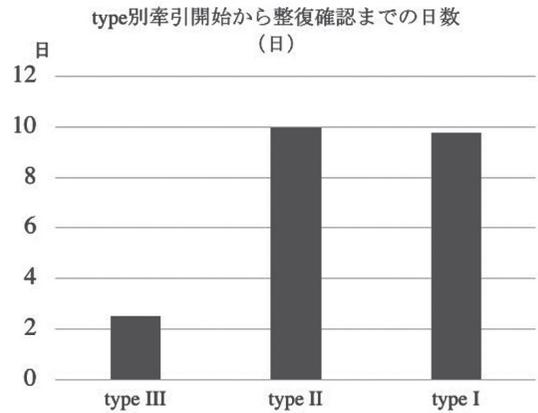


図2. 牽引開始から整復確認までの日数

表2. 回旋方向の変化

	Type III	Type II	Type I
acute	0	2	1
subacute	0	1	
chronic		2	0

表3. 急性期の再発

	Type III	Type II	Type I
acute	0	0	0
subacute	0	1	
chronic		1	0

**症例1:** 典型例. 7歳10か月(発症時), 女児. 右斜頸位, 左回旋位, Type II, acute. 発症から牽引開始までの期間は19日であった。牽引2日目に整復位が確認された。牽引22日にて牽引を中止し、カラー装用とした。以後1年症状の再発を認めていない。牽引前および牽引終了時の回旋運動曲線を示す(図3)。

**症例2:** 回旋方向転換例. 7歳4か月(発症時), 女児. 右斜頸位, 左回旋位, Type II, chronic. 発症から牽引開始までの期間は102日であった。牽引開始同日に整復位が確認されている。牽引3日目に反対方向(右)への斜頸位および回旋位が出現したが牽引4日目には整復位が確認された。初診時のMRI、脂肪抑制 T2 強調像にて C1/2 左椎間関節部および右 C2 椎体関節下に高輝度所見を認め、炎症または水腫などの存在が示唆された(図4)。牽引38日に動的 CT にて normal dy-

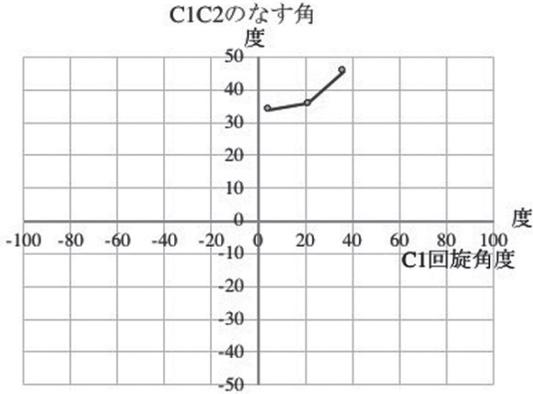


図 3-a. 回旋運動曲線(牽引前)

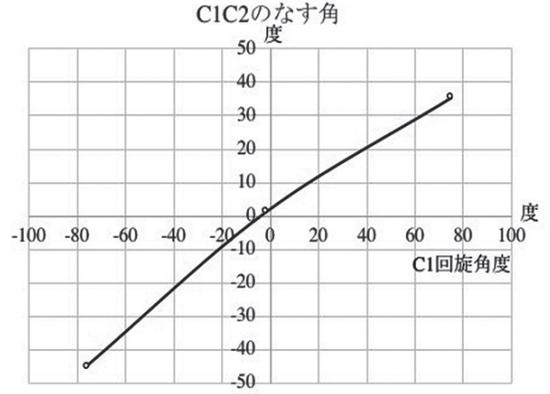


図 3-b. 回旋運動曲線(牽引終了時)

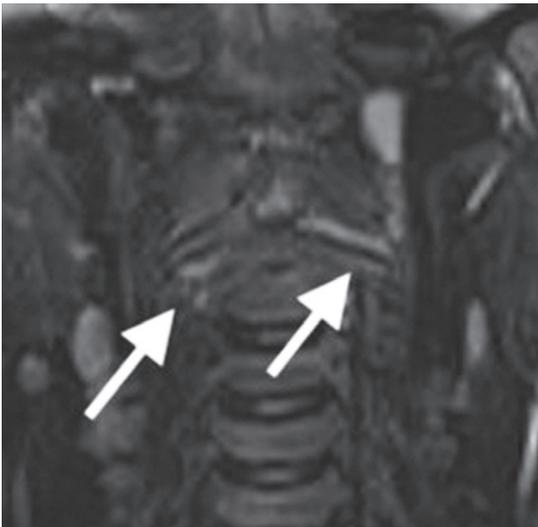


図 4. 症例 2 の MRI, 脂肪抑制 T2 強調像. 矢印: 高輝度部位

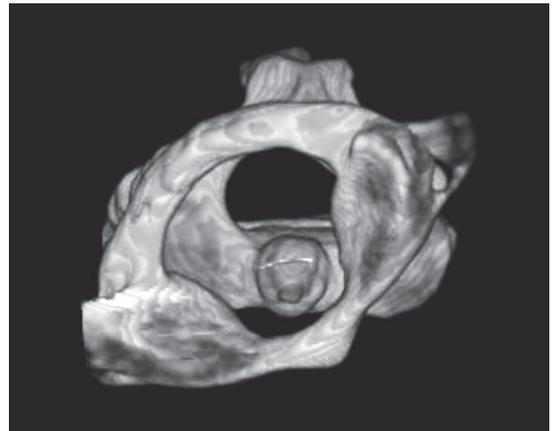


図 5. 初診時の頸椎頭尾方向三次元再構築 CT 画像



図 6. 症例 3 の MRI, 脂肪抑制 T2 強調像. 矢印: 高輝度部位

namics であることが確認され、牽引中止とした。

**症例 3:** 症状再発例。8 歳 5 か月(発症時)、男児。右斜頸位、左回旋位、Type II, subacute。初診時の頸椎頭尾方向三次元再構築 CT 画像を示す(図 5)。発症から牽引開始までの期間は 46 日であった。牽引を開始した翌日に整復位が確認された。21 日後に牽引を中止しカラー装着とした。その 5 日後、右斜頸位が再発した。症状再発時の MRI, 脂肪抑制 T2 強調像において、歯突起の右側に高輝度所見を認め、炎症または水腫などの存在が示唆された(図 6)。再発した斜頸位は臥位安静 5 日間で軽快した。

## 考 察

Pang の分類は I, II, III の三つの Type と

acute, subacute, chronic という症状発現から治療開始までの三つの期間によって構成されている。これらは環椎の軸椎に対しての回旋位での locking の程度を動的 CT に基づく重症度の降順に Type I, II, III に分類するとともに、治療前罹病期間から acute, subacute, chronic として分類している。Pang の勧める治療法は軽症から中等度の症例では介達牽引が基本であるが、locking の程度が高く治療前罹病期間が長いとき、再発時などの治療抵抗性が高い状況下では頭蓋牽引、頭蓋輪牽引としている<sup>7)</sup>。また、これら難治例に対する治療法としては頭蓋輪牽引や手術治療によるものの報告が多く<sup>1)~3)5)9)</sup>、牽引治療など保存的療法の効果の報告例は少ない<sup>4)8)</sup>。しかしながら、今回の研究では AARF に対する持続牽引治療は重症例に対しても有用であった。

AARF では治療中回旋方向が変化することや<sup>10)</sup>、いったん整復位が得られても症状が再発することがあり、環軸関節が不安定な期間を認めることがある。こうした症例では MRI 脂肪抑制 T2 強調画像で歯突起近傍に高輝度部位を認め、腫脹、周囲浮腫の存在が示唆される。歯突起や椎間関節、周囲の腫脹、浮腫は環軸関節を不安定化させるものと思われる。このような所見のある期間中は回旋方向が変化することや牽引終了後に症状が再発しやすい環境にあるものと思われる。

牽引中に回旋方向が変化した症例はその翌日には整復位となり、以後経過良好であった。牽引中止後に症状が再発した 2 症例の治療としては Type II, subacute の症例では臥位安静 5 日間、Type II, chronic の症例では再牽引 37 日間が行われた。双方とも整復位が得られ以後経過良好である。

今回の調査では、牽引中に回旋方向が変化した症例や牽引中止後に症状が再発した症例でも持続牽引治療は有効であった。この結果から、回旋方向の変化はそのまま牽引を継続し、牽引中止後に再発した場合は再牽引を行うことが望ましいと思われる。牽引期間中の回旋方向変化例など環軸関節に不安定な期間を認め、注意を要する症例を含めて持続牽引治療は有用な治療法と思われる。

## 結 論

AARF に対する持続牽引治療は重症例に対しても有用であった。AARF では治療中回旋方向が変化することや、いったん整復位が得られても症状が再発することがあり、環軸関節が不安定な期間を認めることがある。

## 文献

- 1) Crossman JE, David K, Hayward R et al : Open reduction of pediatric atlantoaxial rotatory fixation : long-term outcome study with functional measurements. *J Neurosurg* **100** (3 Suppl Spine) : 235-240, 2004.
- 2) Crossman JE, Thompson D, Hayward RD et al : Recurrent atlantoaxial rotatory fixation in children : a rare complication of a rare condition. Report of four cases. *J Neurosurg* **100** (3 Suppl Spine) : 307-311, 2004.
- 3) Ishii K, Toyama Y, Nakamura M et al : Management of chronic atlantoaxial rotatory fixation. *Spine* **37** : E278-285, 2012.
- 4) 日下部浩 : 環軸関節回旋位固定に対する牽引治療. *別冊整形外科* **64** : 56-62, 2013.
- 5) Lavelle WF, Palomino K, Badve SA et al : Chronic C1-C2 Rotatory Subluxation Reduced by C1 Lateral Mass Screws and C2 Translaminar Screws : A Case Report. *J Pediatr Orthop* **37** : e174-e177, 2017.
- 6) Li V, Pang D : Atlanto-axial rotatory fixation. In : Pang D, ed. *Disorders of the Pediatric Spine*. New York, Raven Press, 9th ed., 531-553, 1995.
- 7) Pang D : Atlantoaxial Rotatory Fixation. *Neurosurgery* **66** : A161-A183, 2010.
- 8) Subach BR, McLaughlin MR, Albright AL, et al : Current Management of Pediatric Atlantoaxial Rotatory Subluxation. *Spine* **23** : 2174-2179, 1998.
- 9) Tauchi R, Imagama S, Kanemura T et al : The treatment of refractory atlanto-axial rotatory fixation using a halo vest : results of a case series involving seven children. *J Bone Joint Surg* **93-B** : 1084-1087, 2011.
- 10) 鷲崎郁之, 大城義竹, 六角高祥ほか : 左右に環軸椎回旋位固定を生じたダウン症児の 1 例. *整災外* **65** : 791-795, 2016.

## 浜松市の乳児股関節健診の再構築と小児科医からの評価

浜松医科大学 整形外科

古橋 弘基・星野 裕信・松山 幸弘

**要旨** 浜松市では乳児股関節健診の見直しを2013年より開始した。一次健診医や健康増進課と協力し、健診票から推奨項目に準じて変更した。こうした健診の再構築による変化を調査し、また、一次健診医である小児科医の評価についても調査した。浜松市全体での二次検診の受診率は2012年には2.1%であったが、2015年には5.5%と増加した。当院の受診数は、2012年の78例から2016年の385例まで約5倍に増加した。当院の検診結果では脱臼・亜脱臼の診断数は増加していなかったが、寛骨臼形成不全の診断数は増加していた。健診の再構築についての小児科医からの評価では、肯定的な意見が多く得られており、さらなる検診数の増加が予想された。

### 序文

乳児股関節脱臼は、予防活動の普及により発生率が低下していたが、近年行われたマルチセンタースタディーでは診断遅延例の増加が報告されている<sup>2)</sup>。各地で健診体制の見直しが始まり、さまざまな報告がなされている。浜松市は静岡県西部に位置する人口81万人の政令指定都市で、年間出生数は約7000人あり、浜松市の乳児股関節に対する一次健診は生後4か月時に小児科・産婦人科を中心として行われてきた。浜松市において、2013年より健診体制の再構築に対する取り組みを開始してきた。

本研究の目的は、2016年までの健診体制の再構築に対する取り組みの成果を調査し、評価することと一次健診医である小児科医の健診に対する評価についても調査し、これからの健診体制について再検討することである。

### 対象および方法

2013年に浜松市健康増進課と協力して、それまでの健診状況について調査を行った。その結果

を浜松市小児科医会例会および会報により小児科医に対して報告し、また、同時に「乳児健康診査における股関節脱臼一次健診の手引き」についての説明も行った。2014年からは助産師・保健師に対して、乳児股関節健診の現状や紹介基準について研修会を行い、新生児訪問の際に「先天性股関節脱臼予防パンフレット」の配布を開始した。2015年4月から浜松市の4か月健診健康診査票を変更し、診査票に記載される股関節に関する診察項目は開排制限のみから、問診も追加することとした(図1)。

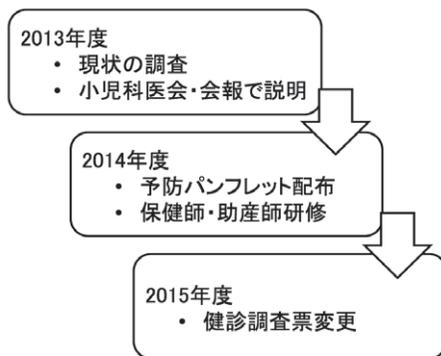


図1. 浜松市の乳児股関節健診再構築の変遷

**Key words** : DDH(發育性股関節形成不全), screening(健診)

連絡先 : 〒431-3192 浜松市東区半田山1-20-1 浜松医科大学 整形外科教室 古橋弘基 電話(053)435-2299

受付日 : 2018年2月5日

本研究では、浜松市全体における二次検診への紹介率と二次検診施設である当院での二次検診の状況について調査を行った。浜松市全体における二次検診への紹介率は、4か月健診をまとめている浜松市健康増進課に依頼し、調査した。当院の状況の調査として、2012年から2016年に股関節脱臼の疑いのため受診した患児を対象とした。当院での二次健診は、Graf法による超音波検査と単純X線撮影により診断を行った。寛骨臼形成不全は、超音波検査でGraf分類type II以上または単純X線にて臼蓋角30°以上とした。脱臼・亜脱臼は装具などにより治療を行い、寛骨臼形成不全は正常となるまで経過観察した。

浜松市全体における受診数の変化と当院の各年度受診数および受診結果の推移を調査し、浜松市で一次健診を主に担当している小児科医12名にその結果を報告した。健診体制を再構築したことに関して、その有用性、一次健診医の負担の増加の有無、二次検診数の増加の是非について、一次健診医の評価を調査した。アンケートでは各項目について、1～5段階での評価を依頼し、その結果から今後の健診体制について再検討することとした。

## 結 果

浜松市全体での、一次健診受診者の二次検診の受診率は2012年には2.1%(151例)であったが、2015年の調査時点では5.5%(374例)と増加していた。当施設の年間受診数は、2012年に78例であったのに対して、2013年は134例、2014年は187例、2015年に326例、2016年には385例と増加傾向にあった。受診結果は、脱臼・亜脱臼は2012年に3例から2013年は8例、2014年は7例、2015年に5例、2016年には5例と著変はなかった。一方、寛骨臼形成不全は2012年に19例から2013年は25例、2014年は37例、2015年に51例、2016年には94例と受診数の増加に伴い、診断数は増加傾向にあった。受診数の増加に伴い、脱臼・亜脱臼の診断数は上昇していないが、寛骨臼形成不全の診断数は増加傾向にあった。一次健診の偽

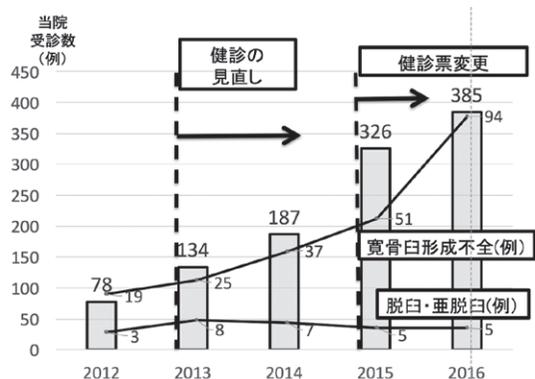


図2. 当院の二次検診受診数、脱臼・亜脱臼・寛骨臼形成不全の診断数の推移

当院の受診数は2012年から2016年で約5倍に増加した。脱臼・亜脱臼の診断数は変わらないが、寛骨臼形成不全の診断数は増加している。

陽性率は、2012年に71.8%であったのに対して、2016年には74.3%と大きな変化は見られていなかった(図2)。

健診体制の再構築による有用性、一次健診医の負担の増加の有無、二次健診数の増加の是非に対する一次健診医の評価を示す。

一次健診医からは健診体制の再構築は有用であるとの意見が多く聞かれた。寛骨臼形成不全に関して、これまで見逃していた可能性が示唆されたことで、その有用性を感じているとの意見があった(図3)。次に、一次健診医への負担については、負担になっていないとの回答が多くを占めた。浜松市では健診数の増加を見越して当院で十分な二次検診を行える体制を準備したため、一次健診から二次検診への移行が比較的スムーズにできており、一次健診医にとって紹介数の増加は負担となっていないとのことだった(図4)。最後に二次検診数の増加をどう感じているかについては、現在の検診数は適当であるとの意見が多かった(図5)。現状を報告したことで紹介の必要性について理解いただいたことにより今後も紹介を続ける、またはより紹介数を増やすとの意見があった。一方で、実際に紹介をしても異常なしであることが多かったという意見や今後長期的な経過を見てみないとまだ判断ができないなどの意見も聞くこと

考察

乳児股関節健診に対する再構築について、日本小児整形外科学会や日本小児股関節研究会では多数の報告がされており、各地域に合わせたさまざまな試みが行われている。金城らは、沖縄で二次検診体制のマンパワー不足に対して、超音波検査士の育成と遠隔読影システムの構築を行っていることを報告している<sup>3)</sup>。武井らは、東京都においては、スコアリング方式を用いると二次検診受診者数は1万人を超えることが予想されることから、スコアリング方式の導入には二次検診体制の整備が必要であることを報告している<sup>8)</sup>。実際の健診体制の再構築には、一次健診医や行政機関との協力、二次検診体制の整備などの問題がある。我々は浜松市健康増進課の協力を得て、一次健診医との協力がスムーズに得られ健診体制の変更ができた。2015年に健診に問診票を導入したことで、乳児股関節健診あり方委員会により提示された乳児股関節健診推奨項目に準じた体制に移行ができた。

実際に、スコアリング方式を用いた健診体制が確立されている千葉県松戸市や宮城県の健診体制を目標として健診体制の再構築を行ってきた。これらの地域の二次検診への紹介率から10%前後の紹介率を目標としてきた。浜松市では、2012年の2.1%から2015年の調査結果では紹介率が5.5%に増加する傾向にあった。スコアリング方

表1. 各地域のスクリーニング方式と精査率  
スコアリング方式による二次検診の受診率は10%程度と予想される。

方式	精査率 (%)	要精査患児における		
		寛骨臼形成不全 (%)	脱臼 (%)	
下諏訪 (2005)	全例超音波	6.7	45	14
新潟 (2012)	全例超音波	3.4	49	6
宮城 (2012)	宮城方式	10.7	32.7	3
松戸 (2014)	松戸式	15	20.8	1.2
浜松 (2012)	開排制限のみ	2.1	24.4	3.8
浜松 (2015)	推奨項目	5.5	15.6	1.5

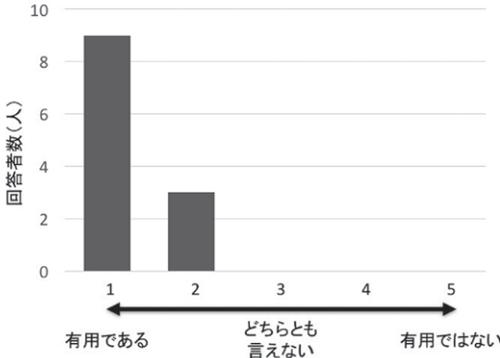


図3. 小児科医からの評価：健診体制再構築の有用性

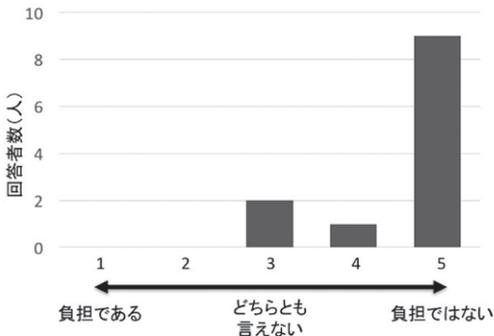


図4. 小児科医からの評価：健診体制再構築による一次健診医の負担の増加の有無

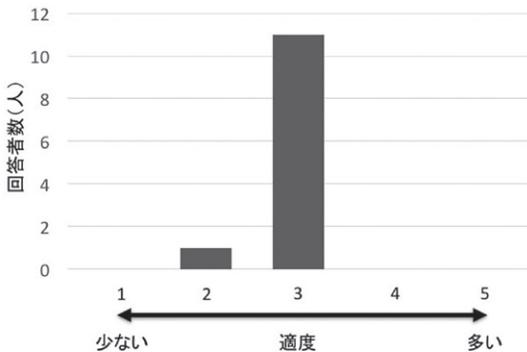


図5. 小児科医からの評価：健診体制再構築による二次健診数の増加の是非

ができた。今後健診体制の再構築による長期的な効果についても、フィードバックをしていく必要があると考えている。

式を導入している地域と比較すると未だ低い状況にあった<sup>1)5)~7)</sup> (表1)。小児科医からの意見で以前と比べ、紹介基準を明確にしたこと、整形外科医の受け入れ体制を整えたことにより紹介率は増加したが、整形外科医への負担を懸念する声が多く、紹介基準を満たす症例を全例紹介するまでには至っていなかった。小児科医へのフィードバックを行っていくことで今後より改善が見込めると考えられた。

健診の再構築は、整形外科医主導で行っており、一次健診医である小児科医からの意見はさらなる再構築を進めるにあたり重要であると考え、今回の調査を行うこととした。

浜松市の小児科医からは、健診体制の再構築に対して、肯定的な意見が多かった。脱臼だけでなく寛骨臼形成不全のスクリーニングになる可能性があることが分かり、より紹介数を増やすことを考える小児科医が増えており、定期的な報告の重要性を感じる事ができた。一方で、二次検診数の増加に伴い、偽陽性率には大きな変化はないが偽陽性数の増加について懸念する声も上がった。脱臼のない寛骨臼形成不全について、渡邊らは脱臼歴のない寛骨臼形成不全例18例29股の自然経過において、未治療でも3~4年で高率に改善することを報告している<sup>9)</sup>。Kobayashiらは、発育性股関節形成不全の対側股関節88股を経過観察し、成長終了時に20股(13.6%)で寛骨臼形成不全が遺残し、寛骨臼形成不全の最終的な診断は12歳にならないと難しいと報告している<sup>4)</sup>。寛骨臼形成不全の診断を4か月時点で行うことの長期的な意義は不明である。また、寛骨臼形成不全については単純X線によるスクリーニングが必要であり放射線被曝のリスクを伴う。本来経過観察が必要のない例に経過観察を行なうことは、放射線被曝量の問題に加えて、患者家族や二次検診施設の負担増加につながると考えている。二次検診への適正な紹介を受けるために一次健診医、保健師に対する活動を進めていくとともに、寛骨臼形成不全に対する長期的な視野でのスクリーニング方法や経過観察をすべき症例の診断法について検討

を進めていくことが、今後の課題であると考えている。

## まとめ

浜松市の健診に乳児股関節健診推奨項目を導入し、健診体制の再構築を行った。一次健診医や行政機関の協力で浜松市の健診体制は順調に移行していた。小児科医からは肯定的な意見が多く聞かれており、今後さらに再構築が進むことが期待された。

## 文献

- 1) 朝貝芳美, 渡辺泰央, 今給黎篤弘ほか: 長野県下諏訪町における乳児先天股脱超音波検診の現状. 日小整会誌 14: 40-43, 2005.
- 2) Hattori T, Inaba Y, Ichinohe S et al: The epidemiology of developmental dysplasia of the hip in Japan: Findings from a nationwide multi-center survey. Journal of Orthopaedic Science 22: 121-126, 2017.
- 3) 金城健, 栗国敦男, 杉浦由佳ほか: 沖縄県におけるDDH診断遅延の現状と二次検診体制の整備—遠隔読影システムの構築—. 日小整会誌 25(2): 281-286, 2016.
- 4) Kobayashi D, Satsuma S, Kuroda R et al: Acetabular development in the contralateral hip in patients with unilateral developmental dysplasia of the hip. J Bone Joint Surg Am 92(6): 1390-1397, 2010.
- 5) 目時規公也: これからの先天股脱検診のあり方宮城県における先天性股関節脱臼スクリーニングの現況. 日小整会誌 21(2): 431, 2012.
- 6) 品田良之, 飯田哲, 河本泰成ほか: 松戸市の乳児先天性股関節脱臼検診の現状と今後. 整形外科 65(10): 1017-1022, 2014.
- 7) 高橋牧, 畠山征也: 新潟市保健所の超音波による乳児股関節健診の現状. 日小整会誌 21: 430-431, 2012.
- 8) 武井聖良, 伊藤順一, 瀬下崇ほか: 東京都の3-4ヶ月健診における股関節診察の実態. 日小整会誌 23(3): S89, 2014.
- 9) 渡邊佳洋, 松原光宏, 水谷康彦: 乳児臼蓋形成不全の自然経過. 日小整会誌 25(2): 188-189, 2016.

## 踵舟状骨癒合症を伴う高度な内反凹尖足変形の2例

宮城県立こども病院 整形外科

水野 稚香・落合 達宏・高橋 祐子・小松 繁允

**要旨** 【はじめに】踵舟状骨癒合症を合併した高度な内反凹尖足変形を2例経験した。【症例1】16歳・女性。Charcot-Marie-Tooth病。左内反凹尖足変形に対して矯正ギプスで治療していたが、足底接地困難となり手術となった。単純X線像では、anteater nose signが認められた。手術では、踵舟状骨が線維性に癒合し、矯正を妨げていたため癒合部を切除したところ、外反可動性が得られた。【症例2】16歳・男児。13番染色体異常。右内反凹尖足変形と踵舟関節部に痛みがあり、足底接地困難となった。手術では、踵舟状骨が繊維性に癒合部し膨隆していたため、切除したところ、内反が矯正された。【考察】高度の内反凹尖足で保存治療に抵抗性の場合には、足根骨癒合症の合併を念頭に術前の評価と対処が必要である。

### はじめに

踵舟状骨癒合症は、腓骨筋痿性扁平足の一つの原因として知られている。今回、踵舟状骨癒合症が変形矯正を妨げていると考えられた内反凹尖足変形を呈した2例を経験したので報告する。

### 症例1

16歳・女性。Charcot-Marie-Tooth病。9歳時、claw toeを伴う左内反凹尖足変形で紹介された。矯正ギプスで繰り返し治療していたが、成長とともに変形が強くなり、手術目的に入院となった。術前足関節背屈は $-35^\circ$ 、thigh-foot-angleは $-25^\circ$ と高度な左内反凹尖足が認められ(図1)、左第5趾中足骨足底側に胼胝が形成されていた。術前単純X線左足関節側面像では、尖足とanteater nose signが認められ(図2)、踵舟状骨癒合が距骨下関節の外反可動性を妨げていると判断された。術中、踵舟状骨が線維性に癒合しており(図3)、線維成分とともに内方まで連続した骨突起を

切除した。切除後外反可動性が得られ、さらに余裕をもって外反できるように切除範囲を広げた。足底腱膜分離術、アキレス腱延長術を併せて施行した。術後は左内反凹尖足変形が改善し、歩行時足底接地が可能となった(図4)。

### 症例2

16歳・男性。13番染色体異常。13歳時、claw toeを伴う右内反凹尖足変形で当院に紹介された(図5)。歩行時に右足根洞付近の疼痛を訴えた。単純X線で踵舟状骨癒合が認められ、癒合部にキシロカインブロックを行うと疼痛は軽快したが一時的で、徐々に疼痛が発現され再び足底接地困難となった。術前左足関節の背屈は $-40^\circ$ で、単純X線ではanteater nose signが認められた。3D-CTでは踵骨前方に大きな隆起を認め、距骨、舟状骨を覆うように存在していた(図6)。手術は足外側より展開すると、踵骨から伸びる大きな隆起は距骨と外側楔状骨と関節を形成しており、ノミで一塊に切除した(図7)。隆起骨の裏面には、

**Key words** : equinovarus foot(内反凹尖足変形), tarsal coalition(足根骨癒合症), calcaneonavicular coalition(踵舟関節癒合症), Charcot-Marie-Tooth disease(シャルコーマリートゥース病)

**連絡先** : 〒 982-0241 宮城県仙台市太白区秋保町湯元字鹿乙 20 宮城県拓桃医療療育センター 水野稚香  
電話 (022) 398-2221

**受付日** : 2018年10月2日



図1. 症例1 術前臨床写真  
高度な左内反凹尖足を呈していた。



図4. 症例1 術後臨床写真  
左内反凹尖足が矯正され足底接地可能となった。

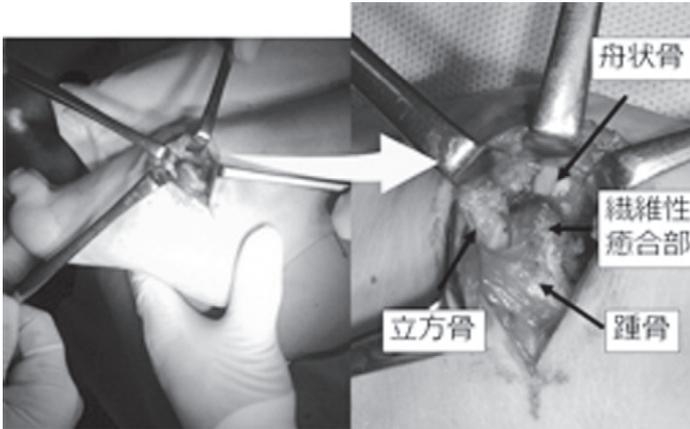


図3. 症例1 術中写真  
踵舟状骨が線維性に癒合していた。

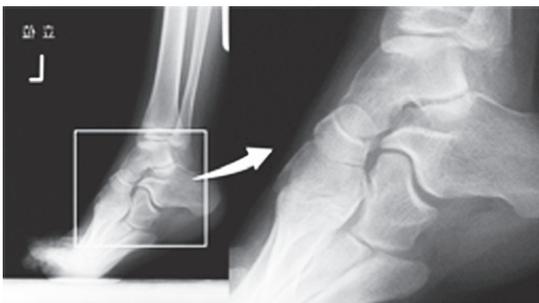


図2. 症例1 術前単純X線  
尖足に加えて、踵舟骨癒合による anteatar nose sign (\*)が認められた。

踵骨舟状骨間の線維性癒合が認められた。踵舟状骨癒合部の切除により外反可動性が得られた。凹尖足に対しては足底腱膜解離術、腓腹筋腱延長術を併せて行った。術後は右足の痛みも消失し、足底接地歩行が可能になった(図8)。

### 考 察

足根骨癒合症の頻度は、おおむね1%以下とされており、癒合部位は距踵、踵舟がそれぞれ約半

数ずつ占めている<sup>5)</sup>。一方で先天性内反足の足根骨癒合症の合併頻度は3~19%<sup>1)4)6)7)</sup>と報告されやや高い傾向がある。Sepro<sup>4)</sup>らは内反足の手術症例123足中18足に足根骨癒合症を認めている。18足中、症候性の内反足が9足、合併症のない内反足が9足、癒合部は距踵骨癒合部が17足、踵舟状骨癒合部が1足と報告した。本邦では、高橋ら<sup>6)</sup>が後内方解離術を行った先天性内反足21足中4足で足根骨癒合症を認め、癒合部位は距踵癒合部が2足、踵舟状骨癒合部が2足であったと報告している。このように、保存治療に抵抗する重度の先天性内反足に合併する足根骨癒合症の割合は少なくはない。自験例の2例の症候性の内反凹尖足では、保存療法に抵抗的で、術前の画像診断で踵舟癒合症癒合を認め、切除により矯正が得られた。したがって、本例のように手術適応と考えられる高度な内反足には足根骨癒合症が合併する可能性を念頭に置いた術前の検索、評価は重要である。

足根骨癒合症による足部変形は、腓骨筋癒性扁平足として外反変形を起こすことがよく知られて



図5. 症例2 術前臨床写真  
高度な右内反凹尖足を呈していた。

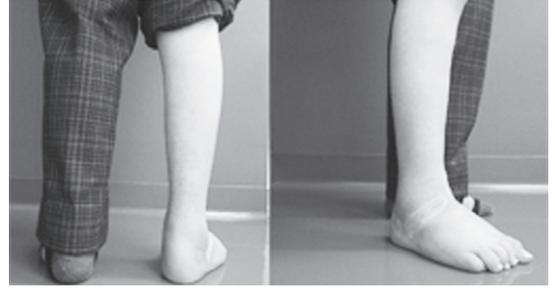


図8. 症例2 術後臨床写真  
右内反凹尖足が矯正され、足底接地可能となった。



図6. 症例2 術前3D-CT  
踵骨前方に大きな隆起を認め、距骨、舟状骨を覆うように存在していた。

いるが、それよりも頻度的には少ないものの1965年に Simmons<sup>3)</sup>が踵舟状骨癒合症を伴う脛骨筋痙性内反足を報告している。また Okudaら<sup>2)</sup>は、脛骨筋痙性内反足は脛骨筋のスパズムが機序と報告している。症例1は、Charcot-Marie-Tooth病による腓骨筋や足底筋群の筋力低下から筋バランスが崩れ内反凹尖足変形を生じ、症例2は、13番染色体異常に伴って内反凹尖足、claw toeを合併した。いずれも脛骨筋の痙性は認められず、脛骨筋痙性内反足の病態とは異なるものと考えられた。結果的には癒合部切除により、広範囲な軟部組織解離を行うことなく内反が矯正されたことから、足根骨癒合症への対処は症候性内反足において重要であるといえる。

#### まとめ

踵舟状骨癒合症を合併した高度な内反凹尖足変形を2例経験した。癒合部を切除することにより



図7. 症例2 術前単純X線／踵舟状骨癒合部切除後単純X線  
術前には anteater nose sign が認められた。

外反可動性が得られ、内反の矯正が可能であった。保存療法に抵抗する内反足には、足根骨癒合症の合併を念頭に、術前の評価と対処が必要である。

#### 文献

- 1) 政田俊明, 北野利夫, 中塚洋直ほか: 足根骨癒合を伴う内反足. 近畿小児整形外科 12 : 29-33, 1999.
- 2) Okuda R, Kinoshita M, Morikawa J et al : Tibialis spastic varus foot caused by osteoid osteoma of the calcaneus. Clin Orthop 412 : 142-149, 2003.
- 3) Simmons EH : Tibialis spastic varus foot with tarsal coalition. J Bone Joint Surg 47-Br : 533-536, 1965.
- 4) Spero CR, Simon GS, Tornetta P : Clubfeet and tarsal coalition. J Pediatr Orthop 14 : 372-376, 1994.
- 5) Stormont DM, Peterson HA : The relative incidence of tarsal coalition. Clin Orthop Relat Res 181 : 28-36, 1983.
- 6) 高橋義仁 : 先天性内反足にみられた足根骨癒合. 日本足の外科学会雑誌 20(2) : 100-105, 1999.
- 7) Turco VJ : Resistant congenital club foot-one-stage posteromedial release with internal fixation. A follow-up report of a fifteen-year experience. J Bone Joint Surg 61-A : 805-814, 1979.

## 思春期まで経過観察したインヒビター陽性血友病 A3 例の滑膜切除術の成績

静岡県立こども病院 整形外科

橘 亮太・半井宏侑・松岡夏子・滝川一晴

**要旨** 思春期まで経過観察したインヒビター陽性血友病 A3 例の中で、抵抗する関節出血に対し滑膜切除術を行った9関節(肘2, 膝4, 足3)を対象とした。目的は、インヒビター陽性血友病 A3 例の滑膜切除術の治療成績を検討することである。調査項目は術前後の関節出血回数, X線による術前後の血友病性関節症の評価, 術中出血量, 術後ドレーン排液量(膝関節のみ), 関節可動域とした。関節出血回数は術前平均5.7回/年であったが, 術後平均0.9回/年と改善し, 1年以上経過観察した8関節中7関節で関節出血はなくなった。X線は4関節で変化なく, 3関節で悪化し, 2関節で改善した。周術期の出血コントロールは可能であり, 術後輸血を必要とした症例はなかった。インヒビター陽性例においても滑膜切除術により出血回数を減少させる効果があり, 血友病性関節症の進行を防止, 遅延させる可能性がある。

### はじめに

血友病 A は X 染色体上の血液凝固第Ⅷ因子の遺伝子異常に基づく先天性凝固障害性の出血疾患であり, 本邦での患者数は約 5000 人とされている<sup>9)</sup>。近年, 第Ⅷ因子製剤の定期補充により, 出血コントロールは良好に行うことが可能となった。しかしながら, 定期補充療法に伴い, 重症血友病 A の約 20~30% に抗第Ⅷ因子同種抗体(以下, インヒビター)が出現し, 止血治療を不安定にさせる要因になる。インヒビター陽性例に対しては免疫寛容療法の有用性が知られているが, 重症血友病 A での成功率は 50~80% とされており, 本邦の重症血友病 A 患者の中でインヒビター保有率は約 5.0%<sup>10)</sup> に上る。2000 年よりバイパス製剤の使用が可能になり, インヒビター陽性血友病性関節症に対しても安全で効果的な整形外科手術が可能になった<sup>9)</sup>。当院では, インヒビターの有無にかかわらず, 定期補充療法, 装具療法に抵抗する頻回な関節出血に対し滑膜切除術を

行ってきた<sup>2)</sup>。今回, 思春期まで経過観察したインヒビター陽性血友病 A 重症例 3 例 9 関節の滑膜切除術の成績について調査し, 関節症の進行が防止できるか否かについて検討した。

### 対象と方法

高用量中和療法, バイパス製剤投与や装具治療に抵抗す頻回な関節出血のため, 滑膜切除を行った 3 例 9 関節を対象とした(表 1)。内訳は肘 2 関節, 膝 4 関節, 足 3 関節であった。膝 4 関節はすべて関節鏡視下手術を行った。足関節手術では距骨ドリリング, 肘関節では関節授動術を併用した。平均手術時年齢は 13 歳 2 か月(6~18 歳), 平均術後経過観察期間は 5 年 6 か月(9 か月~12 年), 平均最終観察時年齢は 17 歳 8 か月(16 歳 3 か月~19 歳 6 か月)であった。周術期は血液科管理の下, 遺伝子組換え活性型第Ⅷ因子製剤を, 術当日から持続投与(10~30  $\mu\text{g}/\text{kg}/\text{h}$ )にポーラス投与(90~100  $\mu\text{g}/\text{kg}$ )を併用し行った。また, トラネキサム酸の使用, 術中操作は駆血帯使用下に

**Key words** : hemophilia A with inhibitor(インヒビター陽性血友病 A), synovectomy(滑膜切除術)

連絡先 : 〒420-8660 静岡県静岡市葵区漆山 860 静岡県立こども病院 整形外科 橘 亮太 電話(054)247-6251

受付日 : 2018 年 6 月 12 日

表 1. 症例一覧

症例	最終観察時年齢(歳)	インヒビター	陽性時年齢(歳)	手術時年齢(歳)	罹患部位	鏡視下滑膜切除	同時手術
①	16	+	1	6	右足	無	距骨ドリリング
					左足	無	距骨ドリリング
				11	右肘	無	授動術
				13	左膝	有	無
②	18	+	2	11	左肘	無	授動術
				14	左膝	有	無
				18	右膝	有	無
③	19	+	1	7	右膝	有	無
				17	左足	無	距骨ドリリング

表 2. 血友病性関節症の X 線像 檜山分類<sup>3)</sup>

Grade 1: 関節周囲組織の陰影増強のみで骨関節自体の変化はない
Grade 2: 骨端部の骨萎縮と過成長
Grade 3A: 以下のうち, 2 項目以下の変化をもつもの
Grade 3B: 3~4 項目の変化をもつもの
Grade 3C: 5 項目全部の変化をもつもの
(1) 骨端部の変化: 骨萎縮, 過成長, 軟骨下辺縁の不整, 顆間窩の拡大
(2) 関節裂隙狭小化(3) 軟骨下嚢胞形成(4) 骨棘形成(5) 関節裂隙の部分消失
Grade 4: 関節裂隙の完全消失, あるいはそれに近い状態, 骨硬化像

行った. 調査項目は術前後 1 年間の関節出血回数, 最終 1 年間の出血回数, 術前および最終観察時の X 線による檜山分類を用いた血友病性関節症の評価, 術中出血量, 術後ドレーン排液量(膝関節のみ), 関節可動域(以下, ROM)とした. また, 檜山分類とは DePalma の分類を基に Grade 3 をさらに A, B, C に細分化したものである<sup>5)</sup>(表 2).

### 結 果

出血回数は術後 1 年以上観察できた 8 関節を対象とし, 術前の 1 年間では平均 5.7 回(4~10 回)であったが, 術後は 1 年当たり平均出血回数 0.9 回(0~4 回), 最終観察時は 8 関節中 7 関節で関節出血が消失しており, すべての関節で出血回数は減少していた(図 1). X 線での関節症変化は, 最終観察時 9 関節中 2 関節で改善, 4 関節で変化なし, 3 関節で増悪していた(表 3). 平均術中出

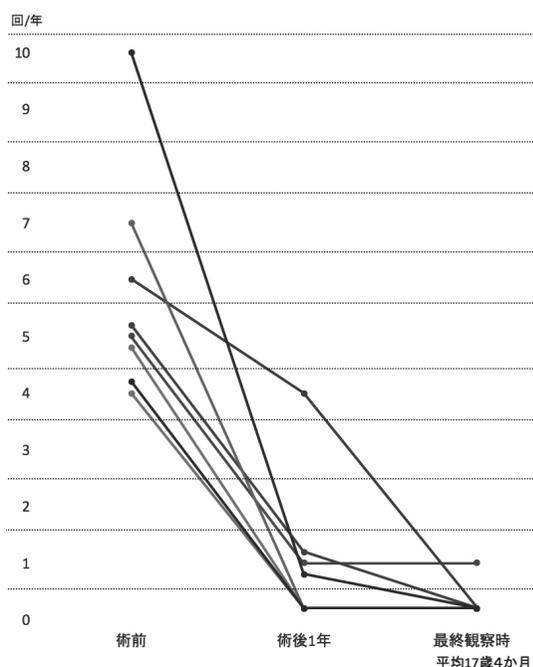


図 1. 術前後での出血回数変化

血量は 60 ml(30~110 ml)であり, 膝関節症例(3 関節)での術後ドレーンの排液量は平均 130 ml(100~160 ml)であった. 周術期の出血コントロールは可能であり, 術後輸血を必要とした症例はなかった. 関節可動域は肘伸展可動域, 膝伸展可動域は改善傾向であった. 膝屈曲, 足関節背屈は増悪傾向があり, 膝 1 関節では術後可動域制限の増悪があり, 関節授動術を追加した.

### 症例提示(症例 1)

16 歳, 男性. 血友病 A 重症例で 1 歳時にインヒビター陽性. 免疫寛容療法を 2 年半行ったがい

表 3. 術前後の血友病性関節症変化(X 線像脛山分類)

症例	病変	最終観察時年齢	術前脛山分類	最終観察時脛山分類
①	左足	16 歳 3 か月	3B	3A
	右足		3B	3A
	右肘		3C	3C
	左膝		3A	3A
②	左肘	18 歳 9 か月	3B	3C
	左膝		3C	4
	右膝		3A	3A
③	右膝	19 歳 6 か月	3A	3B
	左足		3C	3C

インヒビターは消失せず，その後は Anti-Inhibitor Coagulant Complex の週 3 回予防投与を行っていた。

4 歳時に初めて右足関節出血があり，5 歳時より毎月のように足関節出血を起こすようになり，両側足関節症に対し滑膜切除術，距骨ドリリングを行った。術前 6 歳 2 か月時両側脛山分類 3B であったが，術後関節出血回数は減少し，術後 10 年の最終観察時は軟骨下嚢胞の消失，骨端部の変化も消失し，両側脛山分類は 3A と改善していた(図 2)。

10 歳ごろより右肘関節出血が頻回となり，肘関節の骨破壊の進行，顕著な屈曲拘縮があり，滑膜切除術と関節授動術を行った。術前 11 歳時，脛山分類 3C だったが，関節出血回数は 5 回から最終観察時は 0 回に減少し，術後 4 年半経過し最終観察時の脛山分類は 3C と変化はなかった。

13 歳時より月 2 回の左膝関節出血があり，コントロール不良のため手術適応と判断した。関節内は赤褐色のヘモジデリンの沈着した滑膜がびまん性に増殖しており，可及的に切除した。出血回数は術前 6 回から最終観察時 0 回に減少し，術後 3 年経過した現在も脛山分類 3A であり関節症変化の進行はない。

### 考 察

血友病性関節症の発生過程は，関節出血により赤血球中の鉄分が滑膜細胞に貪食され，それが刺激になって炎症が起こり，関節内に波及し関節軟

骨の破壊が起こることによる。また，出血を繰り返すことで滑膜は病的に増殖し易出血性を呈するようになり，関節破壊が進行する悪循環を招く<sup>7)</sup>。

血友病性関節症に対する滑膜切除術は 1960 年代に Storti が行って以来，広く行われるようになった<sup>8)</sup>。出血の原因となる病的な滑膜を切除し，関節内に貯留した血液成分を洗浄することにより，関節出血回数を減らし，血友病性関節症の進行を抑制するとされており，滑膜切除術の効果を報告した文献は散見される<sup>1)2)</sup>。渉猟し得る限りでは，インヒビター陽性例の滑膜切除術の治療成績をまとめた文献はない。今回，インヒビター陽性例を対象とした調査でも同様に関節出血回数の減少，関節症変化の進行の抑制効果があると考えられる結果であった。

血友病性関節症の重症度が高いほど関節可動域制限や筋力低下の程度が強くなる<sup>4)</sup>ため，関節内変化が不可逆的となる前に滑膜切除術を行うことが望ましいとされているが，今回の症例はいずれも脛山分類 3A 以上であった。X 線と比較し MRI は早期の骨軟部病変の判別に優れており，MRI を併用し手術適応を判断することが有効である<sup>3)</sup>。

周術期止血管理において遺伝子組換え活性型第 VII 因子製剤投与はポーラス投与と持続投与の二つの方法を比較する無作為比較試験も行われたが，これらは同等に有効であるとされている<sup>6)</sup>。当院では，遺伝子組換え活性型第 VII 因子製剤持続投与に加えてポーラス投与を併用し，出血コントロールを行いすべての関節で周術期の出血コントロー

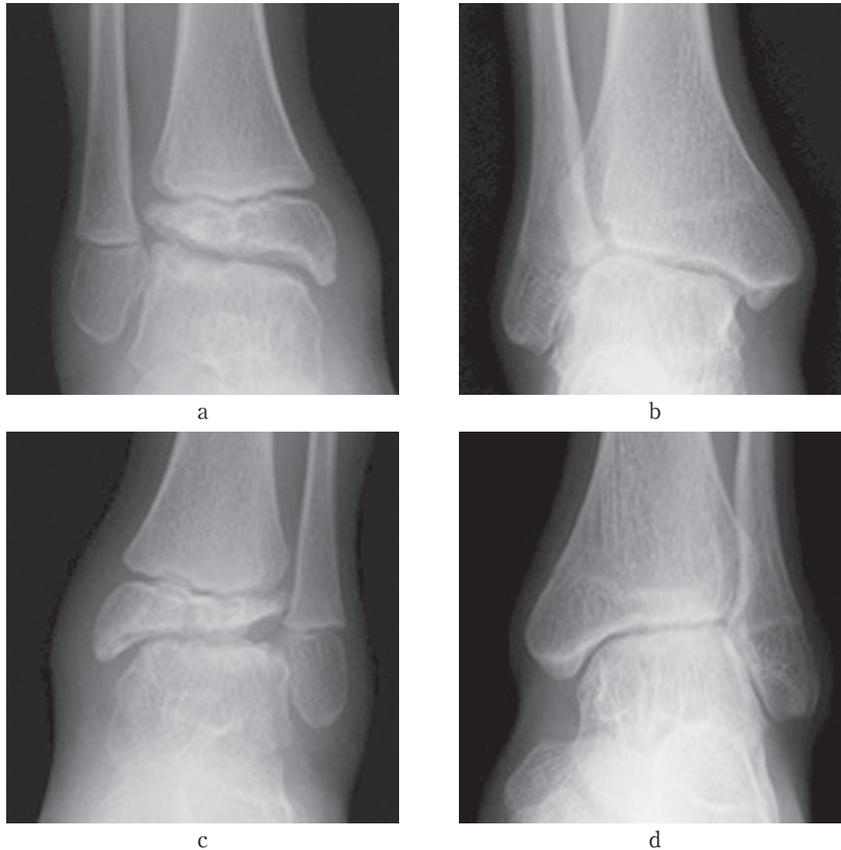


図 2. 両足関節単純 X 線像  
a, c : 術前 b, d : 術後 10 年

ルは可能であった。

本研究の limitation として、過去の診療録を調査した後向き研究であり、関節出血回数は医療機関受診を必要としたものを中心に抽出しており、軽微な関節出血を抽出できていない可能性がある。また、症例数が少ないことも挙げられる。

インヒビター陽性例でも周術期の出血コントロールは可能であり、滑膜切除術により出血回数を減少させる効果があり、血友病性関節症の進行を防止、遅延させる可能性がある。

### 結 語

- 1) インヒビター陽性血友病 A3 例 9 関節に対して滑膜切除術を行った。
- 2) 周術期出血管理に遺伝子組換え活性型第Ⅶ因子製剤投与を行い、術後 1 年以上経過した 8 関節中 7 関節で術後出血はなくなった。

### 文献

- 1) Amy LD, Michael TB, Wyly JB et al : Arthroscopic synovectomy for haemophilic joint disease in a pediatric population. *J Pediatr Orthop* 24 : 414-421, 2004.
- 2) 浅井秀明, 滝川一晴, 芳賀信彦ほか : 血友病に伴う頻回な関節内出血に対する滑膜切除術の効果. *日小整会誌* 19 : 90-94, 2010.
- 3) Doria AS, Babyn PS, Lundin B et al: Reliability and construct validity of the compatible MRI scoring system for evaluation of haemophilic knees and ankles of haemophilic children. Expert MRI working group of the international prophylaxis study group. *Haemophilia* 12 : 503-513, 2006.
- 4) Goto M, Takedani H, Nitta O et al : Joint function and arthropathy severity in patients with haemophilia. *J Jpn Phys Ther Assoc* 18 : 15-22, 2015.
- 5) 檜山建宇, 井沢叔郎, 陣内一保ほか : 血友病性関

- 節症のレ線学的検討. 臨整外 **9** : 331-339, 1974.
- 6) Pruthi RK, Mathew P, Valentino LA et al: NovoSeven in surgery study investigators. Haemostatic efficacy and safety of bolus and continuous infusion of recombinant factor VIIa are comparable in haemophilia patients with inhibitors undergoing major surgery. Results from an open-label, randomized, multicenter trial. *Thromb Haemost* **98** : 726-732, 2007.
- 7) Roosendaal G, Lefeber FP: Pathogenesis of haemophilic arthropathy. *Haemophilia* **12** : 117-121, 2006.
- 8) Stori E, Ascari E : Surgical and chemical synovectomy. *Ann N. Y Acad Sci* **240** : 316-317, 1975.
- 9) Takedani H, Kawahara H, Kajiwara M : Major orthopedic surgeries for haemophilia with inhibitors using rFVIIa. *Haemophilia* **16** : 290-295, 2010.
- 10) 瀧 正志ほか : 厚生労働省委託事業 平成 28 年度血液凝固異常症全国調査報告書公益財団法人エイズ予防財団, 東京, 2017.

# 乳児股関節健診で発見される寛骨臼形成不全の経過とその特徴

浜松医科大学 整形外科

杉浦香織・古橋弘基・星野裕信・松山幸弘

**要旨** 2014年1月～2015年12月に乳児股関節健診の二次検診を受診した生後4か月前後の505例を対象とした。診断は問診と超音波検査、単純X線検査で行った。寛骨臼形成不全例を、1歳までに自然改善した群(改善群)と改善しなかった群(非改善群)に分けた。各群のリスクファクター(家族歴、分娩時胎位)、二次検診の受診理由、単純X線での骨盤形態の特徴を検討した。初診時に寛骨臼形成不全の症例は15.8%あり、1歳まで寛骨臼形成不全が残存した例は39%あった。群間でリスクファクターや受診理由に有意差はなかった。非改善群では、腸骨翼間距離と坐骨結節間距離の比が有意に小さく、腸骨の張り出しが小さい傾向があった。

## 序 文

乳児股関節健診の再構築により二次検診の受診者数が増加し、脱臼のない寛骨臼形成不全の診断数が増加しており、経過観察を必要とする例が増えている。症例の中には早期に改善が得られる症例と改善しない症例があり、その特徴を把握することができれば、経過観察数の減少とともに放射線被曝も減少し、患者側および医療者側の負担軽減につながると思われる。本研究の目的は、乳児股関節健診で発見される脱臼のない寛骨臼形成不全症例の1歳までの経過について調査し、早期に改善せず、経過観察が必要となる症例の特徴について考察することである。

## 対象・方法

対象は2014年1月～2015年12月に4か月健診の二次検診として、浜松医科大学医学部附属病院を受診した生後4か月前後の505例とした。初診時に問診(家族歴、分娩時胎位)および超音波検査(Graf法)、骨盤単純X線検査を行った。超音

波検査でGraf分類type IIまたは単純X線で白蓋角 $30^\circ$ 以上を寛骨臼形成不全と診断し、おむつ指導、だっこ指導を全例に行い経過観察した。経過観察はプロトコル(図1)に従って単純X線で行い、白蓋角が $30^\circ$ 未満となるまで継続した。初診時に脱臼のない寛骨臼形成不全症例のうち、1歳時に白蓋角が $30^\circ$ 未満の症例を改善群、白蓋角が $30^\circ$ 以上の症例を非改善群に群分けした。各群の二次検診となった理由、リスクファクター(家族歴、分娩時胎位)、単純X線における白蓋角、骨盤形態の特徴について検討した。骨盤形態は初診時の骨盤正面単純X線像を用い、腸骨翼の横方向への張り出しが最大となる点を結んだ距離を腸骨翼間距離(A)、坐骨が最も尾側へ突き出した点を結んだ距離を坐骨結節間距離(B)として計測した。腸骨翼間距離と坐骨結節間距離の比(A/B)を腸骨坐骨比と定義した(図2)。

統計学的解析はリスクファクター、二次検診受診理由の割合についてはカイ二乗検定を用い、白蓋角、骨盤形態に関してはt検定を用いて行い、 $p < 0.05$ を有意差ありとした。

**Key words** : developmental dysplasia of the hip(发育性股関節形成不全), acetabular dysplasia(寛骨臼形成不全), screening(健診)

**連絡先** : 〒431-3192 静岡県浜松市東区半田山1-20-1 浜松医科大学 整形外科 杉浦香織 電話(053)435-2299  
**受付日** : 2018年2月22日

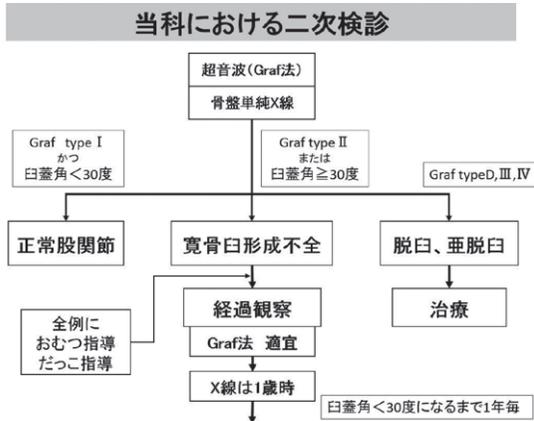


図1. 当科における二次検診のプロトコール

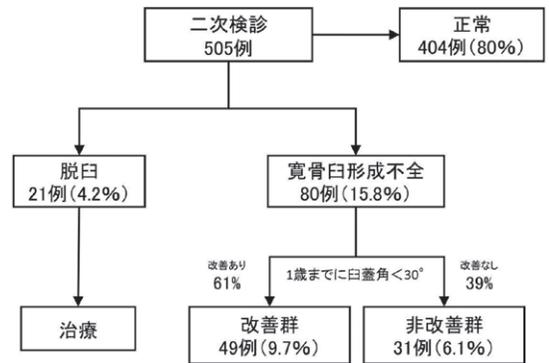


図3. 二次検診 505 例の内訳

表1. リスクファクター・二次検診受診理由の内訳

正常股関節 (n=404)		脱臼 (n=21)		寛骨臼形成不全 (n=80)	
			p-value (VS. 正常股)		p-value (VS. 正常股)
女兒	267 (66.1%)	19 (90.4%)	0.02*	67 (83.7%)	< 0.01*
家族歴	63 (15.6%)	6 (28.6%)	0.1	20 (25.0%)	0.04*
骨盤位分娩	43 (10.6%)	8 (38.1%)	< 0.01*	5 (6.2%)	0.2
<受診理由>					
開排制限	207 (51.2%)	13 (61.9%)	0.3	49 (61.3%)	0.1
大腿皺の左右差	120 (29.7%)	0 (0%)	< 0.01*	13 (16.3%)	0.01*

\*有意差あり

正常股関節と比較し、脱臼は女兒、骨盤位分娩例が有意に多く、寛骨臼形成不全は女兒、家族歴を有する例が有意に多かった。

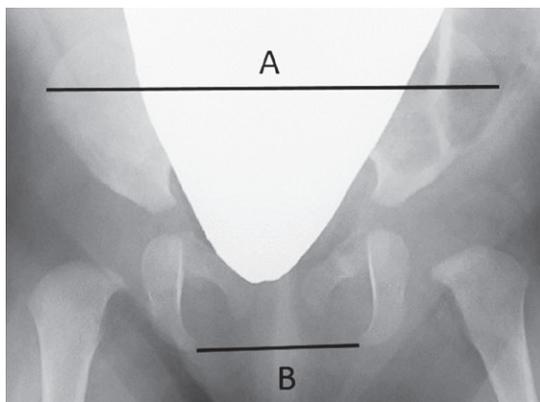


図2. 腸骨翼間距離(A) 坐骨結節間距離(B)  
A/Bを腸骨坐骨比と定義した

### 結果

二次検診を受診した 505 例のうち、正常股関節は 404 例(80%)、脱臼は 21 例(4.2%)、寛骨臼形成不全は 80 例(15.8%)であった。寛骨臼形成不

全例のうち、改善群は 49 例(61%)、非改善群は 31 例(39%)であった(図3)。

正常股関節、脱臼、寛骨臼形成不全のそれぞれについて、リスクファクターや二次検診受診理由の内訳を示す(表1)。正常股関節と比較し、脱臼、寛骨臼形成不全共に女兒が有意に多く、受診理由が大腿皮膚皺左右差の症例は少なかった。脱臼は骨盤位分娩例が有意に多く、寛骨臼形成不全は家族歴を有する例が有意に多かった。

改善群は女兒が 40 例(81.6%)で、家族歴が 10 例(20.4%)にあった。骨盤位分娩は 4 例(8.2%)にあった。改善群の二次検診受診理由は、開排制限が 31 例(63.2%)、大腿皮膚皺左右差が 7 例(14.2%)だった。非改善群は、女兒が 27 例(87.1%)で、家族歴が 10 例(32.2%)にあった。骨盤位分娩は 1 例(3.2%)のみだった。非改善群の二次検診受診理由は、開排制限が 18 例(58.1%)、

表 2. 改善群と非改善群におけるリスクファクターと二次検診受診理由

	改善群 (n=49)	非改善群 (n=31)	p-value
女兒	40 (81.6%)	27 (87.1%)	0.52
家族歴	10 (20.4%)	10 (32.2%)	0.23
骨盤位分娩	4 (8.2%)	1 (3.2%)	0.37
<受診理由>			
開排制限	31 (63.2%)	18 (58.1%)	0.64
大腿皺の左右差	7 (14.2%)	6 (19.3%)	0.55

群間にいずれも有意差はなかった。

大腿皮膚皺左右差が6例(19.3%)だった。改善群と非改善群で性別、リスクファクター、二次検診の受診理由に有意差はなかった(表2)。

初診時単純X線における臼蓋角は、改善群で平均30.6°(21~38°)、非改善群で平均31.8°(26~38°)であり、非改善群が有意に大きかった(p=0.03)。腸骨坐骨比は、改善群では平均2.58(2.17~3.46)、非改善群では平均2.43(2.13~3.06)であった。非改善群が有意に小さく(p<0.01)、腸骨の張り出しが小さい傾向があった(図4)。

## 考 察

我々は浜松市で乳児股関節健診体制の再構築を行ってきた<sup>2)</sup>。日本小児股関節研究会の乳児股関節健診推奨項目に基づく問診を4か月健診の健康診査票に組み込むことで、リスクファクターによる紹介が増え、二次検診の受診数が大幅に増加した。受診数の増加とともに脱臼のない寛骨臼形成不全の診断数は増加傾向にあり、経過観察が必要な症例が増えている。寛骨臼形成不全の経過観察には単純X線が必要で、放射線被爆の問題があり、頻回受診となることから、乳児期に将来の臼蓋発育を予測できる指標があれば、患者、医療者共にメリットがあると考えている。

股関節脱臼に関与する因子として、女兒、家族歴、骨盤位分娩が報告されている。脱臼のない寛骨臼形成不全の予後について、渡邊らは脱臼、亜脱臼を伴わない寛骨臼形成不全の自然経過につい

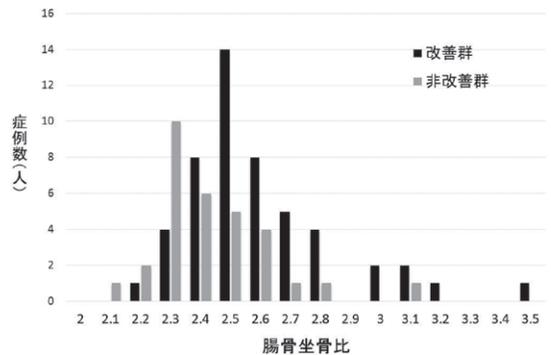


図 4. 腸骨坐骨比

改善群は平均2.58、非改善群は平均2.43であり、非改善群が有意に小さい。

て、平均3.5歳で86%が改善したと報告しているが<sup>6)</sup>、予後を予測する因子に関する検討はなされていない。本研究で、初診時に寛骨臼形成不全と診断した症例は、正常股関節と比べて家族歴を有する例が有意に多かった。しかし、1歳までの寛骨臼形成不全の有無で比較すると、有意差が出る項目はなく、リスクファクターや二次検診の受診理由からその後の臼蓋発育を予測することは難しかった。

本研究で、初診時の臼蓋角に改善群と非改善群で有意差があった。本研究では、初診時の寛骨臼形成不全をGraf法でtype IIまたはX線で臼蓋角30°以上と定義したため、改善群の中には初診時にGraf法で寛骨臼形成不全と診断したが、X線では臼蓋角30°未満だった症例が含まれており、改善群の初診時臼蓋角は有意に低い値だった可能性がある。しかし、これらの症例の中には、1歳時に臼蓋角が30°以上に悪化していた例もあったことから、初診時に超音波検査のみで寛骨臼形成不全が診断される症例でも注意が必要であると考えられた。

寛骨臼形成不全と骨盤形態について、若山は腸骨翼急峻位を有する骨盤変形を「急峻骨盤」と定義し、急峻骨盤群ではCE角が小さい例が多いことを報告した<sup>5)</sup>。久米田らは、成人のCT像にて上前腸骨棘間距離、腸骨翼前方開角を計測し、寛骨臼形成不全例では正常群と比較して上前腸骨棘間距離が有意に短く、腸骨翼前方開角が有意に大き

く、骨盤は前方に内すぼまりの形態(Inward Wing)であることを示した<sup>3)</sup>。藤井らは、成人の骨盤単純 X 線で計測を行い、上前腸骨棘間距離は CE 角(正相関)、Sharp 角(負相関)に相関関係があることを示し、腸骨翼の発育方向が内すぼまりで上前腸骨棘間距離が狭い Inward Wing 形態であると寛骨臼の形成が低下すると報告した<sup>1)</sup>。

我々はこのような骨盤の形態異常に着目し、乳児期の骨盤形態を評価することとした。体格の個人差による影響をなくすため、腸骨翼間距離ではなく、坐骨結節間距離との比で検討した。早期に寛骨臼形成不全の改善が得られない症例では、腸骨坐骨比が有意に小さく、腸骨の張り出しの小さな骨盤形態であることが示唆された。しかし、カットオフ値がはっきりせず臨床での使用は現時点では難しい。症例数の蓄積により検討が必要である。

今後の課題として、本研究では経過観察が1歳までと短期であることが挙げられる。1歳時点で寛骨臼形成不全があっても、1歳以後に改善するとの報告は散見される<sup>4)6)</sup>。臨床的に股関節痛などの症状を呈するような症例かどうかを検討するには、より長期的な経過観察が必要であると思われる。

## 結 論

乳児股関節健診で発見された寛骨臼形成不全症例の1歳までの経過について調査した。改善群、非改善群でリスクファクターや受診理由に有意差はなかった。非改善群の骨盤は、腸骨の張り出しが小さい傾向があった。

## 文献

- 1) 藤井玄二, 桜井 実, 船山完一ほか: 日本人成人骨盤の形態を示す X 線像の計測値. 東北整災紀要 36(2): 241-245, 1994.
- 2) 古橋弘基, 星野裕信, 松山幸弘: 浜松市における乳児股関節健診体制の再構築. 日小整会誌 25(1): 58-61, 2016.
- 3) 久米田秀光, 船山完一, 宮城島純ほか: 成人臼蓋形成不全股の骨盤形態の特徴— Inward Wing CT 像について—. 臨整外 21(1): 67-75, 1986.
- 4) 松岡夏子, 阿南揚子, 内尾明博ほか: 発育性股関節形成不全(臼蓋形成不全)の自然経過. 第 55 回小児股関節研究会: 83, 2016.
- 5) 若山日名夫: 骨盤変形の研究(急峻骨盤について). 日整会誌 28(6): 623-634, 1955.
- 6) 渡邊佳洋, 松原光宏, 水谷康彦: 乳児臼蓋形成不全の自然経過. 日小整会誌 25(2): 188-189, 2016.

## 重症心身障害児(者)の骨代謝マーカーおよび 超音波骨密度測定による骨脆弱性の評価

茨城県立あすなろの郷病院

平 島 淑 子

**要 旨** 当施設に入所中の重症心身障害児(者)38名(男性18名, 女性20名)を対象に, 血清Ca値, 骨代謝マーカーおよび超音波骨密度測定装置による定量的超音波測定法を行い, 骨脆弱性について評価した. その結果, Ca値は16例が基準値以下であり, 骨折既往例は非骨折例と比べて有意な低下を認めた. 骨形成マーカーは9例, 骨吸収マーカーは16例で高値を示し, 8例は高代謝回転であった. また, 骨密度は全例で減少していた. 骨粗鬆症にとって低骨量と高代謝回転は脆弱性骨折の主たる危険因子であり, 骨代謝マーカーの測定によつて的確な薬剤の選択が可能となる. また, 超音波骨密度測定装置による定量的超音波測定法は非侵襲的で測定も簡便であり, 移動が困難な重症心身障害児(者)に対しても容易に施行可能である. 骨代謝マーカーと併用することによって, 骨脆弱性の評価および骨粗鬆症治療の有用な一助になると考えた.

### はじめに

重症心身障害児(者)(以下, 重症児(者))は, 抗てんかん薬の長期服用によるビタミンD代謝障害や日光不足によるビタミンD生成低下, 栄養摂取障害や廃用性の骨萎縮等により骨軟化や骨粗鬆症を含めた骨病変が高度であり, 易骨折性である<sup>2)</sup>. 脆弱性骨折は患者のQOLに大きく影響するため, 骨代謝状態を鋭敏に反映する骨代謝マーカーは, 骨粗鬆症診療における必須の検査項目になっている<sup>3)</sup>. また, 超音波骨密度測定装置による定量的超音波測定法(Quantitative Ultrasound: QUS)は, 骨粗鬆症の診断基準からは除かれているが, 非侵襲的で簡便なため臨床現場では有用な測定法である<sup>6)</sup>. 今回, 当施設における重症児(者)に対して骨代謝マーカーとQUSを用いてスクリーニングを行い, 骨代謝異常の有無について検討した. なお, 利益相反はない.

### 対 象

当施設に入所中の患者38名(男性18名, 女性20名)を対象とした. 全例が粗大運動機能分類システムでレベルIV以上(レベルIV10名, レベルV28名)であり, 原因は脳性麻痺, 難治性てんかん, 周産期脳障害, 脳炎後遺症などであった. 平均年齢は47.1歳(10~74歳), 栄養摂取方法は経口が25名, 胃・腸瘻管理が13名であった. また, 抗てんかん薬の服用者は24名, 骨折の既往歴があるのは11名であった.

### 方 法

当施設では全入所者に対してご家族または成年後見人に書面での同意を得た上で, 健康管理の一環として定期的に血液検査や画像検査等の諸検査を施行している. 全入所者の約3割に骨折の既往がある一方, 今まで骨粗鬆症の危険性に対する積

**Key words** : osteoporosis(骨粗鬆症), severe motor intellectual disabilities(重症心身障害児(者)), bone turnover markers(骨代謝マーカー), quantitative ultrasound(超音波骨密度測定)

連絡先 : 〒319-0306 茨城県水戸市杉崎町1460 茨城県立あすなろの郷病院 平島淑子 電話(029)259-3125

受付日 : 2018年4月13日

極的な評価が行われていなかったため、疾病予防・健康管理の一環として2018年1月の定期血液検査時に血清カルシウム(以下, Ca), 酒石酸抵抗性酸ホスファターゼ(以下, TRACP-5b), 骨型アルカリホスファターゼ(以下, BAP)を計測した。QUSはAOS-100SA(日立アロカメディカル株式会社)を用いて踵骨の音響的骨評価値(Osteo Sono-assessment Index:OSI)を測定した。また、統計学的解析にはt検定を用いた。

### 結果

#### ① 血清Ca値(図1)

Caの平均値は $8.89 \pm 0.07$  mg/dL(男性 $8.93 \pm 0.10$  mg/dL, 女性 $8.86 \pm 0.09$  mg/dL)であり、性別による明らかな有意差は認めなかったが、男性6名、女性10名が基準値8.8 mg/dL以下であった。また、抗てんかん薬服用例( $8.85 \pm 0.22$  mg/dL)と非服用例( $8.96 \pm 0.10$  mg/dL)においても有意差は認めなかったが、抗てんかん薬服用例24

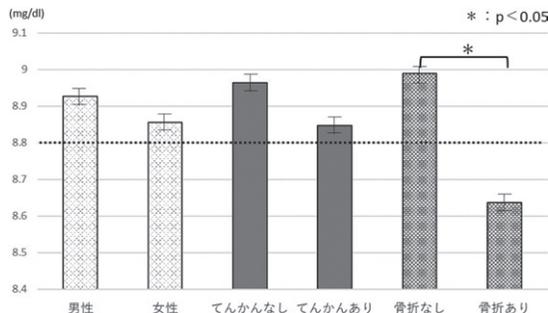


図1. 血清Ca値

男性6名、女性10名が基準値以下であり、性別や抗てんかん薬服用による有意差は認めなかったが、骨折既往例は非骨折例と比べて有意な低下を認めた。

名中12名が基準値以下であった。骨折既往例の平均は $8.65 \pm 0.08$  mg/dLで11名中8名が基準値以下であり、非骨折例( $8.99 \pm 0.19$  mg/dL)と比べて有意な低下を認めた。

#### ② BAP, TRACP-5b(図2, 3)

BAPの平均値は $19.34 \pm 1.85$  U/Lで9例(男性4例, 女性5例)が基準値より高値を示し、その

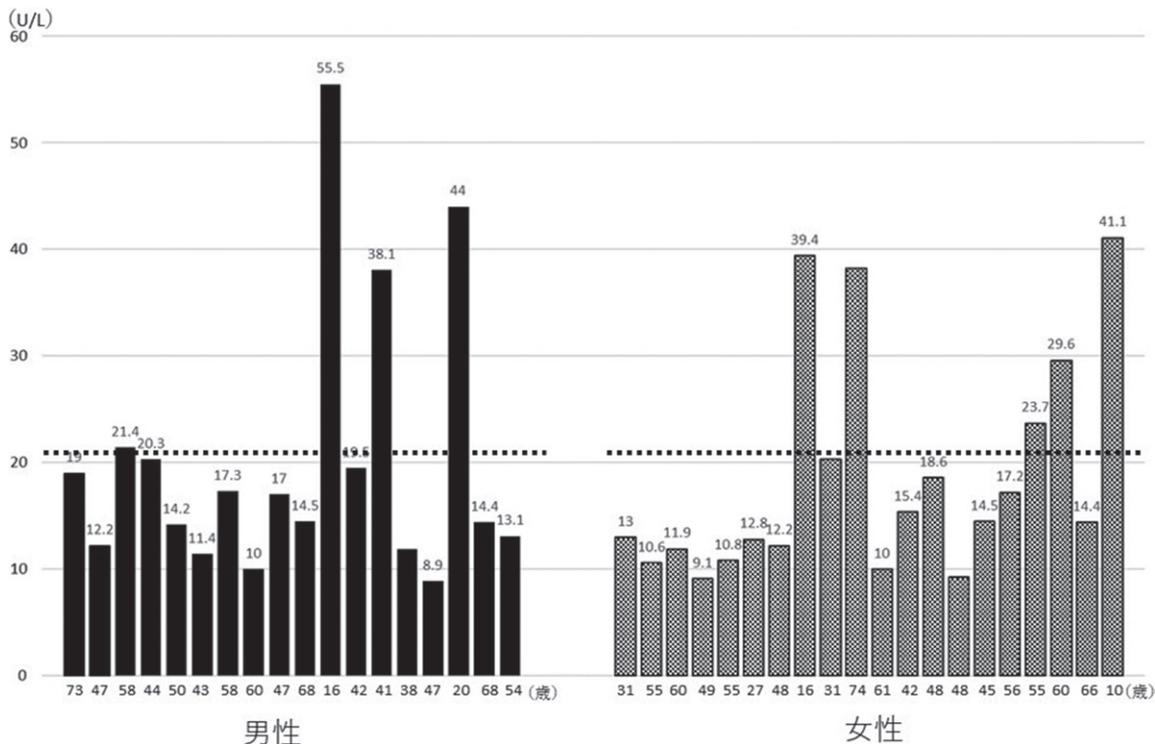


図2. 血中BAP値

9例(男性4例, 女性5例)が基準値より高値を示し、その他はすべて基準値範囲内であった。

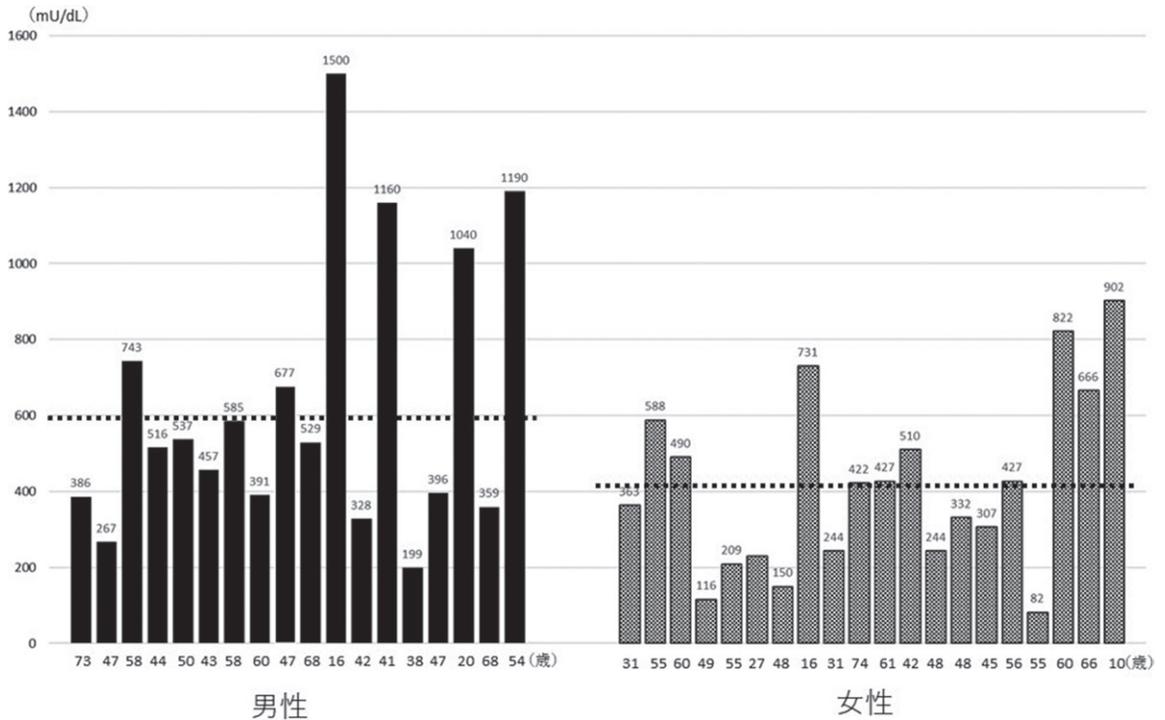


図3. 血中 TRACP-5b 値  
16例(男性6例, 女性10例)が基準値より高値を認めた.

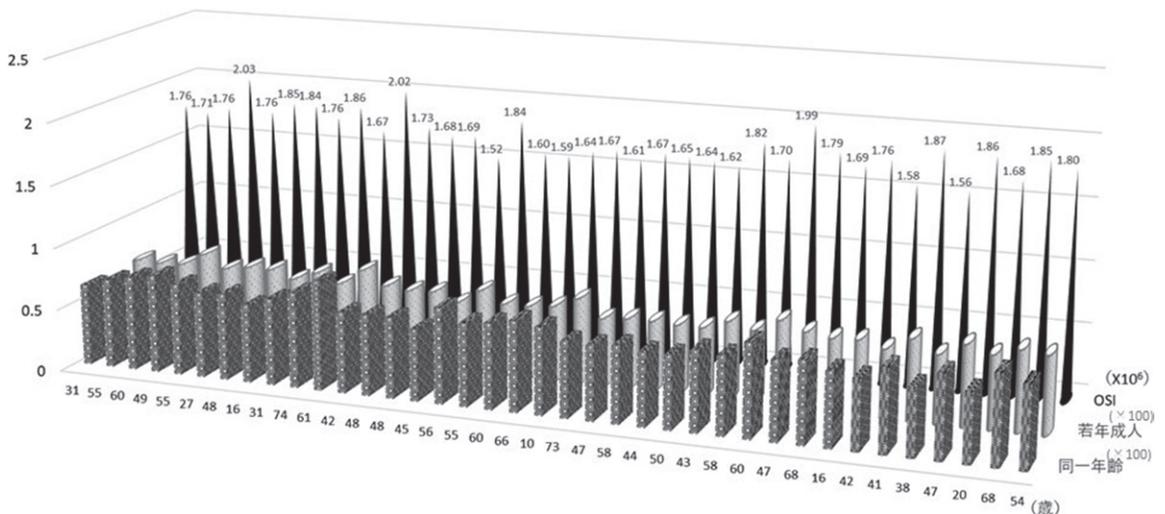


図4. OSI  
全例の平均値は  $1.74 \times 10^6$  (1.52~2.03) であり, 同一年齢の標準値の 66.0%, 若年成人の平均値の 62.3% と両値共に有意な低下を認めた.

他はすべて基準値範囲内であった. TRACP-5b の平均値は  $513.74 \pm 51.41$  mU/dL で 16例(男性6例, 女性10例)が基準値より高値を認めた. また 16例中 8例(男性4例, 女性4例)は BAP,

TRACP-5b 共に亢進する高代謝回転であった. なお, 両マーカーとも骨折の既往や抗てんかん薬の服用歴および性別での有意差は認めなかった.

③ OSI(図4)

OSIの平均値は $1.74 \pm 0.02$ (男性 $1.73 \pm 0.02$ , 女性 $1.75 \pm 0.03$ ) $\times 10^6$ であり, 全例の平均値は同一年齢の標準値の66.0(59~78)%, 若年成人の平均値の62.3(54~75)%と両値共に有意な低下を認めた. 最も高値を示した症例は49歳女性でOSI値 $2.02 \times 10^6$ であったが, 血清Ca値8.4 mg/dL, BAP値9.1 U/L, TRACP-5b値116 mU/dLと骨吸収マーカーの上昇を認めた. その一方で, OSI値 $1.52 \times 10^6$ と最も低値を示した45歳女性においては血清Ca値8.6 mg/dL, BAP値14.5 U/L, TRACP-5b値307 mU/dLと正常範囲内であった.

尚, 性別, 抗てんかん薬服用や骨折既往の有無による明らかな有意差は認めなかった.

## 考 察

骨粗鬆症にとって低骨量と高代謝回転は脆弱性骨折の主たる危険因子であり, 両者を的確に診断することが骨折の予防にとって重要である<sup>1)</sup>.

骨塩定量の正確な診断にはX線を用いた骨萎縮度判定が必要であるが, 重症児(者)は四肢・脊柱変形が著明であり正確な測定が難しい. また, 当院は療養介護が主体の施設であるため骨密度測定装置もなく, X線を用いた正確な骨塩定量が不可能である. その点, QUSは非侵襲的で測定も簡便であり, 移動が困難な重症者に対しても容易に施行可能である. 治療のモニタリングに対するエビデンスはなく<sup>5)</sup>, 今回の結果においてもOSI値と骨代謝マーカーとの相関関係は認めなかったが, 骨脆弱性の評価の一助にはなると考えた.

今回の結果では, 全例とも骨形成マーカーは基準値以上であったため, 骨粗鬆治療薬としては骨吸収抑制剤が適応となると考えた. 特にTRACP-5bが高値であった16例に関しては, 脆

弱性骨折の危険性が高いと考えられる. 近年, 骨代謝マーカーの測定によつて的確な薬剤の選択も可能であり<sup>4)</sup>, 効果と副作用を十分検討した上で適切な薬剤による骨粗鬆症治療を考慮していく必要がある.

## 結 論

当施設入所中の重症児(者)38名に対して血清Ca値, 骨代謝マーカーおよびQUSを行い, 骨脆弱性について評価した. 骨粗鬆症にとって低骨量と高代謝回転は脆弱性骨折の主たる危険因子であり, 非侵襲的なQUSと骨代謝マーカーの測定は骨脆弱性の評価および骨粗鬆症治療の有用な一助になると考えた.

## 謝 辞

検査に協力いただいた検査技師の桑山順一氏, 五十嵐貴志氏および病棟看護師の斎藤宏美氏に深く感謝いたします.

## 文献

- 1) 川口 浩: 骨粗鬆症の基礎と最近の話題. 脊椎外科 29: 259-266, 2015.
- 2) 来馬眞一, 塩谷兵蔵, 沢浦正太郎ほか: 抗てんかん薬服用患者のビタミンD3の検討. 小児科臨床 38: 1105-1114, 1985.
- 3) 三浦雅一: 骨粗鬆症診療における骨代謝マーカーの実践的活用法について. モダンメディア 62: 8-13, 2016.
- 4) 三宅 進, 杉田真喜雄, 岡崎富男ほか: 骨粗鬆症にdenosumabを投与した重症心身障害児(者)7例. 日重障誌 42: 341-347, 2017.
- 5) 中 弘志: QUS 定量的超音波法, 超音波骨密度測定装置 AOS-100. 日本臨床 62: 299-304, 2004.
- 6) 楊 鴻生: 骨粗鬆症の診断 骨密度・骨量測定法 QUS 法. 日本臨床 71: 233-238, 2013.

## 軟骨低形成症の粗大運動発達や特徴に関する調査

矢吹 さゆみ<sup>1)</sup>・中村 純人<sup>1)</sup>・滝川 一晴<sup>2)</sup>  
小崎 慶介<sup>3)</sup>・岡田 慶太<sup>4)</sup>・芳賀 信彦<sup>5)</sup>

1) 都立北療育医療センター 整形外科

2) 静岡県立こども病院 整形外科

3) 心身障害児総合医療療育センター

4) 東京大学医学部付属病院 整形外科

5) 東京大学医学部付属病院 リハビリテーション科

**要旨** 軟骨低形成症(Hypochondroplasia : 以下, HCH)は, 軟骨無形成症(Achondroplasia : 以下, ACH)と比べ早期診断が難しい。要因として, HCHはACHと共通の特徴もあるが軽度なため, 単純な低身長として見過ごされている可能性が考えられる。このことより, HCHの運動発達が正常に近いことが推察された。HCHの診断はX線所見による診断基準の報告はあるが, 運動発達の報告はないため, 我々は運動発達や特徴について明らかにする目的で以下の研究を行った。我々はHCHと診断された16名の出生時週数, 身長, 体重, 遺伝子検査, 運動発達, 身体所見とX線所見の有無を過去の記録で調査した。結果は, 出生時週数, 身長, 体重, 運動発達はおおむね正常範囲だった。身体所見, X線所見でHCHの診断は過去の報告同様に困難だった。しかし, 運動発達が正常であることはACHとの鑑別, HCHの早期診断に有用な可能性がある。

### はじめに

軟骨低形成症(Hypochondroplasia : 以下, HCH)であることの診断が軟骨無形成症(Achondroplasia : 以下, ACH)と比較すると難しいため, 診断に至る時期がACHより遅くなる。要因として, HCHはACHと共通する特徴もあるが, その特徴が軽度であり, 出生時の明らかな四肢短縮がないため, 家族のみならず, 医師も単純な低身長として見過ごしている可能性が考えられる。そこで, 単純な低身長として見られる要因として, HCHの運動発達が正常に近い可能性があることが推察された。現在, HCHの診断としてはX線所見による診断基準の報告は散見されるが<sup>1)4)</sup>, 粗大運動発達の報告はない。その

ため, 我々はHCHの粗大運動発達や特徴について明らかにすることを目的に以下の研究を行った。

### 対象と方法

HCHと診断された症例は39名, そのうちHallらが報告したX線の診断基準<sup>4)</sup>を参考とし, 遺伝子検査陽性の症例, もしくは二つ以上の陽性所見がある症例を合わせた男7名, 女9名, 合計16名の診療録を後方視的に調査した。調査項目は, 初診時年齢, 在胎週数, 出生時身長, 出生時体重, 2歳以降の身長が $-5SD$ 未満の症例, 遺伝子検査, 粗大運動発達, 身体所見, X線所見とした。身体所見では前額部の突出, 大後頭孔狭窄, 中耳炎, 三尖手の有無とした。X線所見の調査項目は, 椎弓根間距離の狭小化(図1), 椎体後陥凹(図2),

方形で短縮した腸骨(図3), 大腿骨頸部短縮(図3), 骨端部の flaring を伴う長管骨の短縮(図4), 長い腓骨遠位端(図5)とした。なお, 記載のないものは不明とした。X線の評価方法では, 椎弓

根間距離の狭小化の有無は  $L4/L1 < 1$  を陽性所見とした。その他の項目は Hall らの X線診断基準<sup>4)</sup>を参考としているが, その診断基準も客観的な数値はなく, 本研究も骨端核が未出現で計測が困難

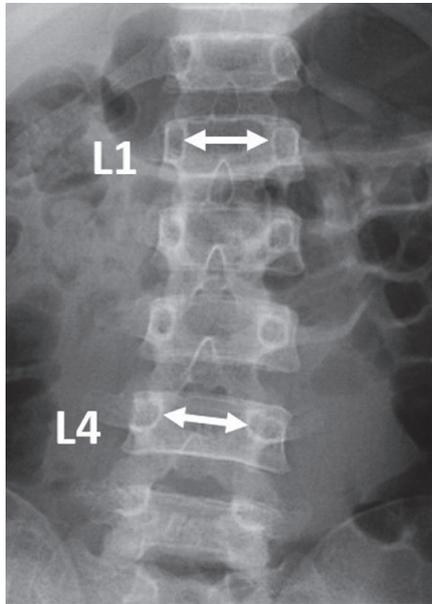


図1. 椎弓根間距離の狭小化( $L4/L1 < 1$ )

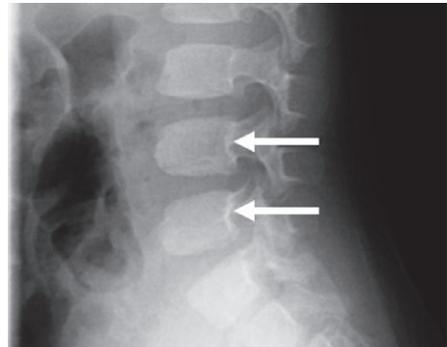


図2. 椎体後面陥凹



図3. 方形で短縮した腸骨

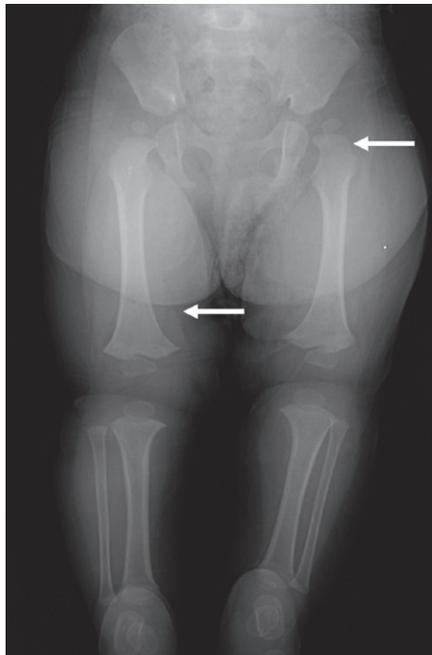


図4. 大腿骨頸部の短縮と骨端部 flaring を伴う長管骨の短縮



図5. 長い腓骨遠位端  
(\*図1~5は同一症例のX線ではなく, 読影者5名全員が一致した所見のあるX線を提示した)

であり、多くは見た目で判定した。長い腓骨遠位端の有無は、立位 X 線で足関節が内反しているものを陽性とした。これらの X 線を 4 名の整形外科医と 1 名の放射線科専門医の 5 名がそれぞれ読影し、所見あり、なし、疑いの 3 段階で評価、5 名中 3 名以上が一致した所見を陽性とした。

## 結 果

初診時年齢は 1 歳から 15 歳であり、中央値は 5 歳 6 か月だった。在胎週数は 35~41 週(平均 38 週)、身長は 42~51 cm(平均 47 cm)、体重は 2224~3680 g(平均 2958 g)とおおむね正常範囲であった。HCH は -5SD 未満の低身長になることが多いといわれており<sup>2)</sup>、本研究では 13 名(不明 1 名)が該当した。遺伝子検査は 4 名が陽性であり、全例 N540K の変異だった。残りの 12 名は未実施だった。運動発達については、信頼性と妥当性が担保された尺度を用いた評価がされておらず、数値化できなかつたが、マイルストーン順に見ると、定額は 3~5 か月(平均 4 か月)、座位は 5~11 か月(平均 8 か月)、独歩は 9~20 か月(平均 13 か月)だった。身体所見では前額部突出が 5 名(不明 1 名)、三尖手が明らかなのは 3 名、1 名が疑いで軽度だった(不明 1 名)、大後頭狭窄は 1 名(不明 9 名)、中耳炎は 1 名(不明 10 名)であった。

X 線所見では、椎弓間距離が 1 以下で狭小化の所見がありと判断された症例は 16 名中 2 名(13%)と少なく、多くは正常範囲内であった。椎体後面陥凹は 16 名中 7 名(44%)、方形で短縮した腸骨は 16 名中 8 名(50%)、太くて短い大腿骨頸部は 16 名中 13 名(81%)、骨幹端部の Flaring を伴う長管骨短縮は 16 名中 8 名(50%)、長い腓骨遠位端は 16 名中 12 名(75%)だった。

## 考 察

HCH を 3 歳までに診断することは非常に困難との報告があるように、<sup>2)</sup> 早期診断が難しい。しかし、HCH は ACH より成長ホルモン治療が有効という報告があり<sup>6)</sup>、早期診断が望ましいと考

えられる。現在、遺伝子検査で 70% は診断が可能であり<sup>2)</sup>、早期診断には有用であるが、倫理的な点を含め容易にはできない検査でもあるため、確定診断の最終手段であると考えられる。本研究の HCH を健常児と ACH の過去の文献による特徴を比較し、HCH の早期診断につながる特徴が得られるかどうかを検討した。在胎週数、身長と体重は HCH では正常であり、これは過去の報告と同様であった<sup>4)</sup>。身長に関しては、ACH が早期から重度な低身長になることに比べ、HCH は 2 歳前までは低身長に気づかないことが多い<sup>4)</sup>、低身長の程度も -5SD 未満であることが多い<sup>3)</sup>。したがって、低身長と指摘された時期と低身長の程度も ACH との鑑別に重要である。本研究において、HCH と ACH の最大の違いは粗大運動発達であった。中村らが報告した ACH の運動発達の 90% 通過月齢と比較すると<sup>5)</sup>、本研究の HCH はほぼ正常であった。過去の報告の身体所見と X 線の比較では、Beals の報告では手の所見で三尖手はないと記載してある<sup>1)</sup>。本研究では遺伝子陽性例では三尖手はなかつたが、遺伝子検査未実施の症例では所見ありと記録されていた。Hall らが 100% みられると報告した、短縮している腸骨と骨幹端部の flaring を伴う長管骨短縮は<sup>4)</sup>、本研究では遺伝子検査陽性例も含めて 50% であった。報告の半数となった理由は、長管骨では短縮はあっても明らかな flaring は伴っていない症例が半数だったという読影結果になったことである。このように、HCH の身体所見、X 線所見ではバリエーションが広く、「軽度の ACH」-「HCH」-「正常」には連続性があり、臨床所見、X 線所見で ACH と HCH を鑑別することは難しいといわれており<sup>3)</sup>、本研究でも同様であった。このことから、軽度の ACH の特徴がある低身長の児を診療する際は、運動発達遅滞の有無を確認することが HCH と ACH の鑑別に簡易的かつ有用でかつ早期診断へつながる可能性がある。

## まとめ

16 名の HCH の特徴を調査した。HCH では在

胎週数, 出生時体重と身長, 粗大運動発達はおおむね正常であった。身体所見, X線では診断は困難だった。HCHとACHの鑑別と早期診断に粗大運動発達が簡易的かつ有用である可能性が示唆された。

### 謝 辞

本稿のX線読影に関してご協力いただいた, 聖マリアンナ医科大学放射線医学講座 藤川あつ子先生に深謝いたします。

### 文献

- 1) Beals RK. : Hypochondroplasia : a report of five kindreds. J Bone Joint Surg 51-A:157-184, 1969.
- 2) Bober MB, Bellus GA, Nikkel SM : Hypochondroplasia. GeneReviews®
- 3) 芳賀信彦: 軟骨低形成症の疾患概念について. 厚生労働科学研究費補助金難治性疾患克服研究事業. 軟骨無形成症の臨床診断基準の作成. 平成21年度 総括・分担研究報告書, 15-18, 2010.
- 4) Hall BD, Spranger J : Hypochondroplasia : Clinical and Radiological Aspects in 39 cases. Radiology 133 : 95-100, 1979.
- 5) 中村茂, 芳賀信彦, 池川志郎ほか: 軟骨無形成症乳幼児の運動発達および身体発育. 日小整会誌 4 : 7-10, 1994.
- 6) Tanaka N, Katsumata N, Horikawa R et al : The Comparison of the Effects of Short-Term Growth Hormone Treatment in Patients with Achondroplasia and with Hypochondroplasia. Endocr J 50 : 69-75, 2003.

## 腓骨列形成不全 type II の治療と長期経過

田中 紗代<sup>1)</sup>・滝川 一晴<sup>2)</sup>・芳賀 信彦<sup>3)</sup>

1) 心身障害児総合医療療育センター 整形外科

2) 静岡県立こども病院 整形外科

3) 東京大学 リハビリテーション科

**要旨** 腓骨列形成不全における短縮や変形に対し創外固定器を用いて治療を行い、長期間経過観察可能であった症例を調査した。対象は術後10年以上経過観察可能であった4名4足。平均手術時年齢は5歳6か月、Achterman-Kalamchi分類は全例type IIであった。全例Ilizarov創外固定器を用いて延長および変形がある症例は矯正を併用し行った。脚長差は術前平均5.0 cmで、平均5.5 cmの延長を行った。2肢では変形矯正も行い平均120日で延長・矯正を終了した。骨成熟時の脚長差は患側が平均4.6 cm短縮していた。合併症はピン刺入部感染および足関節底屈制限が多かった。骨成熟以前に加療した症例はいずれも脚長差が残存し、3名で再度骨延長を行った。腓骨列形成不全の治療は長期の経過観察が必須であり、複数回の手術による脚長補正や変形矯正の計画を立てる必要がある。

### 序文

腓骨列形成不全は、腓骨の無形成や低形成に加えて脛骨や大腿骨の短縮を合併し、時に著しい変形や脚長差を引き起こす。足趾外側列の欠損、足根骨癒合、ball and socket jointといった足部や足関節の形態異常、大腿骨外側顆低形成、内反足や外反足などの足部変形も種々組み合わさって合併し<sup>4)5)</sup>、分類や治療の経過によっては患肢切断後に義足歩行となり得る難治性の疾患である<sup>2)</sup>。1980年後半より骨延長術の進歩と普及に伴い下肢の著しい変形や脚長差に対して患肢温存、脚長補正の報告が散見されるようになってきたが<sup>10)</sup>、本疾患の発生率は100万人出生当たり7.4~20人とまれであり<sup>4)</sup>、長期成績を示した文献は依然少ない。一施設において腓骨列形成不全に対し創外固定器を用いてこの治療を行い、長期経過観察可

能であった症例についての経過の問題点や合併症を報告する。

### 対象と方法

腓骨列形成不全と診断され、静岡県立こども病院にて2004年から2007年の間に創外固定器を用いて変形・脚長差の治療を行い長期の経過観察が可能であった4名(男3名、女1名)を対象とした。罹患足は右3、左1、両側1で、創外固定での手術側は右3、左1だった。手術時年齢は平均5歳6か月(4~8歳)、平均経過観察期間は11年7か月(10年~13年4か月)、平均終診時年齢は17歳2か月(15~19歳)だった(表1)。

各症例に対し腓骨列形成不全のX線分類であるAchterman-Kalamchi分類、下肢合併症、術前の脚長差(Leg Length Discrepancy: LLD)および変形角度を調査し、創外固定による治療の指

**Key words** : fibular hemimelia(腓骨列形成不全), external fixator(創外固定器), Ilizarov(イリザロフ), lengthening(骨延長), complications(合併症)

**連絡先** : 〒173-0037 東京都板橋区小茂根1-1-10 心身障害児総合医療療育センター 整形外科 田中紗代  
電話(03)3874-2146

**受付日** : 2018年4月24日

表 1. 対象

症例	性別	罹患側	手術時 年齢	経過観 察期間	終診時 年齢
1	男	左	5	11年	16歳
2	男	右	4	13年	17歳
3	女	右	8	11年	19歳
4	男	両側 手術側:右	5	10年	15歳
平均			5歳 6か月	11年 7か月	17歳 2か月

標となる延長・矯正期間，最終評価時 LLD・変形角度，延長中および延長後の合併症について過去の報告と比較し考察した。また，再延長の可否について調査し，その際の年齢，脚長差，延長部位などについても調査した。そのほか，治療後の ADL の指標として延長後の装具装着の有無についても調べた。

### 結 果

手術側の Achterman-Kalamchi 分類は，全例が type II だった。全例に足趾欠損があり，そのうち 3 足が第 4，5 趾欠損，1 足が 5 趾欠損のみだった。また，全例に距骨と踵骨の足根骨癒合，および脛骨遠位関節面の不整といった足関節形態異常があったが，ball and socket joint を有する症例はなかった。1 肢は反対側に内反足を合併しており，幼児期に距骨下関節全周解離を行った。大腿骨外側顆低形成は，2 肢に存在した。出生時より脚長差が著明であった症例は，1 歳時に片持ち式創外固定器で 6.5 cm の骨延長，また，下腿変形が著明であった症例は，リング式創外固定器で治療を行う前に，矯正骨切りを行った既往があった(表 2)。

X 線における平均術前脚長差は 5.0 cm (2.9~6.9 cm) だった。全例 Ilizarov 創外固定器を用いて治療し，延長のみの症例が 2 肢，延長および変形矯正を同時に行った症例が 2 肢だった。全例，大腿および足部まで固定を行い，延長・矯正に要した平均期間は 123 日(77~180 日)，創外固定器装着期間は平均 332 日(224~421 日)，平均延長

表 2. 各症例の術前調査項目

症例	分類	足部 変形	足趾 欠損	足根 骨癒 合	当院延長 前手術	術前 LLD (cm)	術前 変形 (°)	他の 手術
1	II	—	+	+	—	5.9		
2	II	—	+	+	1 歳 骨延 長 6.5 cm (片持ち式) 5 歳 下腿 矯正骨切り (プレート)	4.5	30	13 歳 足関節 変形矯 正・固 定術
3	II	—	+	+	—	6.9		
4	右 II (左 IA)	内反 足	+	+	2 歳 右脛 骨骨切り(左 距骨下関節 全周解離)	4.7	35	

量は 6.5 cm (5.2~7.5 cm) で，脚長不等を予想し 3 症例で 2~3 cm の過延長を行った。延長量は，Multiplier 法を用いて算出した骨成熟時の脚長差を元に決定した。Healing index は 34~70 日/cm で，平均 55 日/cm だった(表 3)。

変形に対し治療の対象となった症例は 2 肢で，術前角度はそれぞれ脛骨外反 30° (症例 2)，足関節外反 35° (症例 4) だった。矯正角度は Center Of Rotation of Angulation (CORA) を中心とし，症例 2 で 30°，症例 4 は 35° だった。いずれも脚延長も行いながら，緩徐に矯正を行った。すべての症例で，延長終了後，足部の固定を除去した。

創外固定中の合併症は 3 肢にピン刺入部感染，1 肢に一時的な腓骨神経麻痺，膝関節の外反不安定性，足関節の不安定性が生じた。延長中の足関節背屈可動域制限はなかったが，延長後に底屈可動域が 3 足で悪化し，術前平均 38° (30~45°) から術後平均 16° (15~20°) となった。

骨成熟時における脚長差は患側が平均 4.6 cm (2.7~7.5 cm) 短縮していた。変形は，症例 3 では脛骨外反は 4° に改善し，症例 4 で足関節外反 30° と再燃した。その結果，3 例で初回手術後平均 8 年 4 か月(7 年 8 か月~9 年 3 か月)時に再度創外固定による延長を行った。再延長症例での平均脚長差は 5.3 cm で，13~16 歳の間に平均 5.8 cm の追加延長を行った。いずれも片持ち式創外固定器を用いて大腿もしくは大腿と下腿で延長を行い，平均延長期間は 84 日(43~120 日)だった(表 4)。再手術後の脚長差は 3 症例ともに 1.2 cm 以下，

表 3. 当科初回手術に関する指標

症例	延長量	矯正角度 (°)	延長・矯正期間 (日)	固定器装着期間 (日)	Healing index (日/cm)
1	7.4		98	255	34
2	6.0	30	180	421	70
3	7.5		135	386	51
4	5.2	35	77	224	64
平均	6.5		123	322	55

表 4. 再延長に関する指標

症例	脚長差 (cm)	年齢 (歳)	延長部位	延長量 (cm)	延長期間 (日)
1	3.5	14	大腿骨	5	90
2	7.5	16	大腿骨	8.3	120
3	4.8	13	大腿・下腿	4.2	43
平均	5.3	14		5.8	84

変形 5° 以下となった(図 1). 再手術時の合併症の頻度は, 初回延長時と同程度だった. 残る 1 名(症例 4)も 2.7 cm の脚長差と 30° の足関節外反が再発したが, 本人の希望により手術は行っていない.

脚長差および足関節変形に対し術前に 4 名が短下肢装具を装着していたが, 骨成熟時は 1 名のみであった.

症例供覧

症例 1(図 2): 男児, 左腓骨列形成不全, Achterman-Kalamchi 分類 type II. 術前脚長差は 5.9 cm, 左膝関節の外反不安定性を伴っていた. 4 歳でリング式創外固定器による延長を行い 7.4 cm の延長を行った. 延長期間は 98 日, 固定器装着日数は 255 日で, healing index は 34 日/cm だった. 延長中にピン刺入部感染が 2 度生じたが, いずれも抗生剤内服にて治癒した. 延長後も徐々に脚長差が出現し, 14 歳ごろには 5 cm に拡大したため, 大腿骨で 5 cm の単純延長を行った. 現在 17 歳で脚長差は 1.1 cm であり, 装具は装着していない.

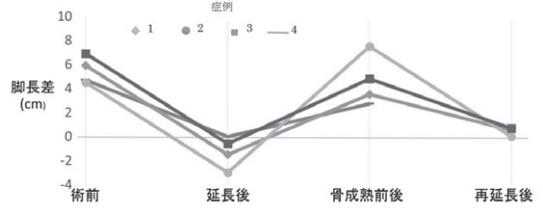


図 1. 脚長差の推移



図 2. 症例 1 治療経過  
a: 3 歳: 延長前  
b: 4 歳: 初回延長, リング式固定器装着時  
c: 5 歳: 初回延長後  
d: 14 歳: 再延長前  
e: 14 歳: 再延長, 片持ち式固定器装着時  
f: 15 歳: 再延長後

考 察

骨成熟前に治療を行った症例は, 全例で脚長差が再発している. 過去の報告でも, 腓骨列形成不全に対する患肢温存の問題点として, 脚長差の再発が必発であることが挙げられている. その原因として, 元来成長能力が低いことはもちろんであるが, 延長自体が成長を障害するため, との報告もある<sup>8)</sup>. しかし, 重症例では未治療な場合, 骨成熟時に type I で 10 cm, type II で 15 cm の脚長差が出現するといわれており<sup>3)</sup>, 脚長差を最小限に抑え全身への影響を軽減するために低年齢から治療を開始せざるを得ない. 今回 Multiplier 法を用いて延長量を決定したが, 2 名で正確な予測ができたものの, 1 名では 10 mm 以上の誤差が出現した. Szöke らは, 腓骨列形成不全では, 特に若年時での標準的な予測法では正確性かけると述べている<sup>9)</sup>. また, 既存の予測法では不十分であることだけでなく, 延長時にその長さが下

腿骨長の 15 % 以上を超えると合併症が生じやすくなるといわれており<sup>1)</sup>、幼少時に延長する場合は、もともとの骨長の短さから、延長可能な量に制限がある。結果的に、本調査同様、多くの症例で脚長差や変形が再発し、複数回かつ長期の治療を要する<sup>6)</sup>。

頻度の高い合併症としてピン刺入部感染、屈曲拘縮、内反尖足、一時的な腓骨神経麻痺、重大な合併症として骨折、癒合不全、膝関節亜脱臼などが報告されている<sup>7)</sup>が、その中でもピン刺入部感染・尖足が多い。今回は延長中にピン刺入部感染と腓骨神経麻痺が生じたが、尖足や骨折といった再手術を要する可能性のある合併症はなかった。今回の調査では、他報告と比較し 1 cm の延長に要した平均日数が 5～22 日長かったが<sup>2)3)7)10)</sup>、結果的には骨折や癒合不全例がなく延長を終了できた。このことより、腓骨列形成不全においては X 線にて骨形成が良好だとしても、他疾患と比較し慎重にかつ緩徐に延長や固定器除去を行うことが安全であると考えられる。また、全例足部まで固定をすることで延長中の足関節背屈可動域の悪化を予防できたが、延長が終了し足部固定を除去したのちに背屈ではなく底屈可動域が悪化した。底屈制限の悪化は報告がなく、元来の足関節の形態異常が関与していると考えたが、詳細は不明である。

腓骨列形成不全に対する患肢温存療法については賛否両論がある<sup>10)</sup>。今回およびこれまでの結果を踏まえると、長期間に及ぶ複数回の手術を要することや合併症が出現することを前提とし、その結果、自分自身の脚にて立位歩行可能となることを患者および保護者に伝えた上で、患肢温存を選択することで良好な治療が行えると考える。

今回の報告は他の報告と比較し症例数が少なく、今後長期の経過観察が可能となった症例が増えた中で再度評価をすることも重要と考える。

## 結 語

1) 腓骨列形成不全 type II の 4 肢に延長・変形矯正を行い、術後 10 年以上経過観察した。

2) 腓骨列形成不全における創外固定器を用いた治療は、脚長不等や変形矯正に有用である。

3) 術後 3 足に足関節底屈可動域制限が生じた。

## 文献

- 1) Birch JG, Lincold TL, Mack PW et al : Congenital fibular deficiency : a review of thirty years' experience at one institution and a proposed classification system based on clinical deformity. *J Bone Joint Surg* **93-A** : 1144-1451, 2011.
- 2) Catagni MA, Radwan M, Lovisetti L et al : The Ilizarov technique in type III fibular hemimelia : an alternative to amputation. *Clin Orthop Relat Res* **469** : 1175-1180, 2011.
- 3) Hamdy RC, Makhdom AS, Birch J : Congenital fibular deficiency. *J Am Acad Orthop Surg* **22** : 246-255, 2014.
- 4) 三島健一, 鬼頭浩史, 松下雅樹ほか : 腓骨列形成不全症 9 例に対する骨延長術の治療成績, *日創外固定骨延長会誌* **26** : 127-131, 2015.
- 5) Naudie D, Hamdy RC, Fassier F et al : Management of fibular hemimelia, *J Bone Joint Surg* **79-B** : 58-65, 1997.
- 6) Oberc A, Sulko J : Fibular hemimelia - diagnostic management, principles, and results of treatment. *J Pediatr Orthop* **22-B** : 450-456, 2013.
- 7) Rodriguez-Ramirez A, Thacker MM, Becerra LC et al : Limb length discrepancy and congenital limb anomalies in fibular hemimelia. *J Pediatr Ortho* **19-B** : 436-440, 2010.
- 8) Sharma M, Mackenzie W, Bowen JR : Severe Tibial growth retardation in total fibular hemimelia after limb lengthening. *J Pediatr Orthop* **16-A** : 438-444, 1996.
- 9) Szöke G, Mackenzie W, Domos G et al : Possible mistakes in prediction of bone maturation in fibular hemimelia by Moseley chart, *Int Orthop* **35** : 755-759, 2011.
- 10) Zarzycki D, Jasiewicz B, Kacki W et al : Limb lengthening in fibular hemimelia type II : can it be an alternative to amputation?, *J Pediatr Orthop* **15-B** : 147-153, 2006.

## 下肢奇形を合併した VACTERL 連合の 3 例

西村 淑子<sup>1)</sup>・中野 祥子<sup>1)</sup>・二井 英二<sup>2)</sup>  
西山 正紀<sup>3)</sup>・湊 藤 啓 広<sup>4)</sup>

1)三重県立子ども心身発達医療センター 整形外科・リハビリテーション科

2)鈴鹿医療科学大学 保健衛生学部 理学療法科

3)国立病院機構三重病院 整形外科

4)三重大学大学院医学系研究科運動器外科学 腫瘍集中治療学

**要 旨** 我々は VACTERL 連合と思われる 3 例を経験した。VACTERL 連合は、1973 年 Nora らと Kaufman らが提唱した疾患概念である。催奇性物質の暴露による多発先天性奇形症候群として、VACTERL 連合が提唱された。椎骨奇形、肛門奇形、心奇形、気管食道奇形、腎奇形、四肢奇形(Vertebral, Anal, Cardiac, Tracheoesophageal, Renal, and Limb)のそれぞれの頭文字で命名された奇形症候群である。診断基準として、催奇性物質の投与の有無にかかわらず六つの要素のうち 3 要素があれば、VACTERL 連合の診断が可能である。今回、我々は下肢奇形を合併した VACTERL 連合と思われる 3 例を経験した。今回経験した症例では、症例 1 は椎骨奇形、肛門奇形、下肢奇形を、症例 2 は椎骨奇形、腎奇形、下肢奇形を、症例 3 は椎骨奇形、腎奇形、肛門奇形、下肢奇形を認めており、3 例すべてに食道気管奇形、心奇形、上肢奇形は認めなかったものの、3 奇形に該当しているため VACTERL 連合と診断できると考えられた。VACTERL 連合の診断について若干の文献的考察を加えて報告する。

### はじめに

VACTERL 連合は、先天性多発奇形(Multiple Congenital Anomalies)の椎骨、肛門、心、気管食道、腎、四肢(Vertebral, Anal, Cardiac, Tracheoesophageal, Renal, and Limb)のそれぞれの頭文字で命名された症候群である。診断基準として六つの要素が挙げられているが、そのうち 3 要素があれば VACTERL 連合の診断が可能とされている。今回、我々は下肢奇形を合併した VACTERL 連合と思われる 3 例を経験したので報告する。

### 症 例

**症例 1** : 生後 5 か月、女児

**主訴** : 運動発達遅滞、左股関節脱臼、左足関節拘縮

**家族歴** : 特になし

**現病歴** : 在胎 29 週、体重 1,200 g で出生。一卵性双胎第 1 子。総排泄腔遺残、鎖肛、腰仙椎奇形を認めた。運動発達遅滞と左股関節脱臼、左足関節拘縮に対するリハビリテーションを目的に生後 5 か月時に当院を紹介された。

**理学的所見** : 左足関節は背屈 5°、底屈 5°の可動域制限を認めたが、左股関節の開排は比較的良

**Key words** : VACTERL association (VACTERL 連合), VATER association (VATER 連合), lower limb anomaly (下肢奇形), renal anomaly (腎異形成), vertebral anomaly (脊椎奇形)

**連絡先** : 〒 514-0125 三重県津市大里窪田 340 番 5 三重県立子ども心身発達医療センター 整形外科・リハビリテーション科  
西村淑子 電話 (059) 253-2000

**受付日** : 2018 年 1 月 1 日



図 1. 症例 1 生後 5 か月 第 4 腰椎奇形, 第 5 腰椎半椎, 仙骨奇形



図 2. 症例 1 生後 6 か月 左股関節脱臼



図 3. 症例 2 生後 2 か月 左下肢低形成, 左内反足



図 4. 症例 2 1 歳 第 5 腰椎半椎 左股関節脱臼

好であった。X 線上, 第 4 腰椎奇形, 第 5 腰椎半椎, 仙骨奇形, 左股関節脱臼を認めた(図 1, 2)。

**経過:** 運動発達の遅れと足関節可動域制限に対して理学療法を行ったが, 知的障害も重度であり, 5 歳時の現在も坐位不能である。左股関節脱臼は手術適応があると思われたが, 家族が希望しなかったことから経過観察となった。

**症例 2:** 生後 2 か月, 男児

**主訴:** 左股関節脱臼, 左内反足

**家族歴:** 特になし

**現病歴:** 在胎 34 週, 体重 1,690 g で出生。二卵性双胎第 1 子。右水腎症, 左腎無形成, 第 5 腰椎

半椎, 左下肢低形成, 左内反足などの奇形を認めた。内反足治療を目的に生後 2 か月時, 当院へ紹介となった。

**理学的所見:** 左下肢低形成, 左内反足を認めた(図 3)。X 線上, 第 5 腰椎半椎, 左股関節脱臼を認めた(図 4)。

**経過:** 内反足に対して矯正ギプス固定を行った。内反足変形は比較的良好に矯正されたが, 左下肢の低形成による脚長差が残存したため, 9 歳時に脚延長術を行った(図 5)。17 歳時には, 左下肢に軽度の尖足変形を認めるが, 部活動でバドミントンを行うことが可能である。

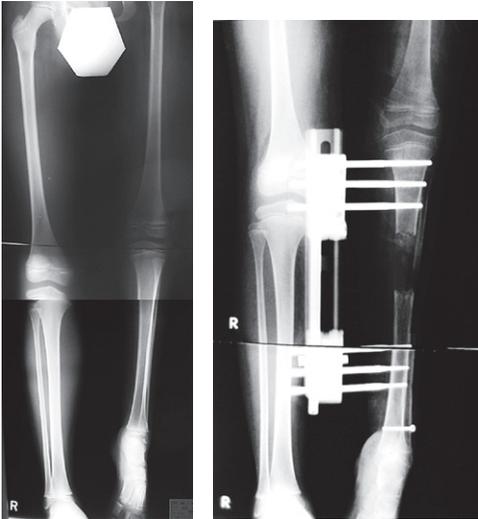


図 5. 症例 2 9 歳 脚延長術前後(左図:術前 右図:術後)

**症例 3:** 生後 1 か月, 男児

**主訴:** 右内反足

**家族歴:** 特になし

**現病歴:** 在胎 39 週, 体重 2,522 g で出生, 第 1 子. 右腎無形成, 鎖肛, 第 5 腰椎低形成, 右腸骨低形成, 右内反足を認めた. 某小児科で VACTERL 連合と診断され, 内反足治療を目的に生後 1 か月時, 当院へ紹介となった.

**理学的所見:** 軽度の右内反足を認めた. X 線上, 第 5 腰椎仙骨奇形, 右腸骨の低形成を認めた(図 6, 7).

**経過:** 右内反足に対し, 矯正ギプス固定後, 装具療法, 理学療法を行い, 比較的良好な矯正位置が得られた. 知的発育は正常で 1 歳 2 か月ごろに独歩が可能となったが, 右下肢の低形成による軽度の跛行を認めている(図 8).

### 考 察

VACTERL 連合は, 1973 年 Nora と Kaufman らが提唱した疾患概念である. 初めに 1973 年 Nora らが椎体, 肛門, 心臓, 気管, 食道, 四肢などの奇形(VACTEL syndrome)が妊娠初期の経口避妊薬内服の影響によって生じる可能性があることについて報告しているが<sup>9)</sup>, 同年 Kaufman が VACTEL に Renal を加え VACTERL を報告

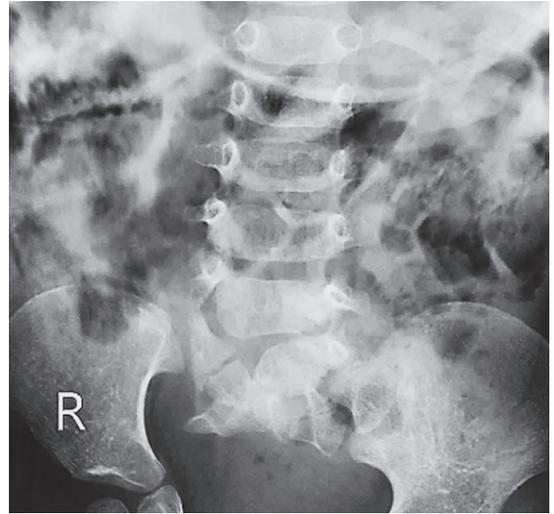


図 6. 症例 3 2 歳 第 5 腰椎仙骨奇形



図 7. 症例 3 2 歳 右腸骨低形成 右大腿骨頭低形成

した<sup>5)</sup>. また, 1975 年 Nora らによって催奇性物質の投与による多発先天性奇形症候群として VACTERL 症候群が提唱されたが<sup>8)</sup>, 現在は VACTERL 連合として数多く報告されており, 催奇性物質の投与の有無にかかわらず, 6 奇形のうち 3 奇形に該当すれば診断が可能とされている<sup>6)11)</sup>. 鑑別診断として, 心奇形, 四肢奇形, 脊椎奇形をもつ疾患の VATER 連合, Holt-Oram 症候群, CHARGE 連合, 尾部退行症候群などが挙げられる. VATER 連合は 1972 年に Quan と Smith によって提唱され<sup>10)</sup>, VATER 連合の V は Vertebral defects, A は Anal atresia, TE は Tracheoesophageal fistula with Esophageal atresia, R は Renal or Radial defects である. 一方, VAC-



図 8. 症例 3 2 歳 右大腿骨顆部, 右脛骨近位の横径は, 左下肢に比べ低形成である。

TERL 連合の V は Vertebral anomaly, A は Anal anomaly, C は Cardiac anomaly, TE は Tracheoesophageal anomaly, L は Limb anomaly となっている。1975 年に Nora らは, VATER 連合は VACTERL 連合と同様の奇形であるが, 高い確率で心奇形があること, 橈骨だけではなく下肢にも奇形が起きやすいことから VACTERL 連合と呼ぶ方が望ましいと報告している。本邦では, VACTERL 連合は VATER 連合に心奇形と四肢異常を追加した概念として紹介されている。

今回経験した症例では, 症例 1 は脊椎奇形, 肛門奇形, 下肢奇形を, 症例 2 は脊椎奇形, 腎奇形, 下肢奇形を, 症例 3 は脊椎奇形, 腎奇形, 肛門奇形, 下肢奇形を認めており, 3 例すべてに食道気

管奇形, 心奇形, 上肢奇形は認めなかったものの, 3 奇形に該当しているため VACTERL 連合と診断できると考えられた。しかし, 症例 2 と症例 3 は VATER 連合の診断も可能と思われるが, VATER 連合と VACTERL 連合は独立した疾患として公表されており, 診断はどちらでも合致すると考えられる。

鑑別診断として Holt-Oram 症候群, CHARGE 連合, 尾部退行症候群が挙げられるが, Holt-Oram 症候群は上肢奇形と心奇形を主徴とし<sup>4)</sup>, CHARGE 連合は虹彩欠損, 心疾患, 後鼻孔閉鎖, 成長障害, 精神遅滞, 性器低形成, 耳介奇形, 難聴を主徴とする奇形症候群である<sup>3)</sup>。尾部退行症候群は別名腰仙骨欠損症とも呼ばれ, 下部脊椎, 骨盤, 大腿骨の部分あるいは全欠損を来す症候群であり, 会陰部・生殖器の奇形, 運動神経障害, 知覚障害, 膀胱直腸障害などを臨床症状とし<sup>2)</sup>, 腎形成不全, 鎖肛, 心疾患などが合併することがあり, これらを合併すると VACTERL 連合として診断が可能になると思われる。今回の 3 例においては, 上肢奇形, 心奇形, 虹彩欠損, 心疾患, 後鼻孔閉鎖, 成長障害, 精神遅滞, 性器低形成, 耳介奇形, 難聴, 会陰部・生殖器の奇形, 運動神経障害, 知覚障害, 膀胱直腸障害などの症状を認めていないため, VACTERL 連合と考えられた。

近年, 遺伝子解析が進み, VACTERL 連合における HOXD13, ZIC3, PTEN, FANCB, FOXF1, TRAPI, PCSK などの遺伝子異常が報告されているが, 原因遺伝子の特定には至っていない<sup>7)</sup>。

VACTERL 連合の発生率は 1 万人に 1.6 人であり, 白人男性に発生しやすく, 運動発達や知能は正常のことが多い<sup>6)</sup>。また, 多胎での発生が多く, 二卵性よりも一卵性により頻度が高く発生しやすいといわれている<sup>11)</sup>。我々の症例において, 症例 1 は運動発達遅滞, 知的障害を認めたが, 症例 2, 3 では運動発達, 知能は正常であった。また, 症例 1 は一卵性双胎であり, 症例 2 は二卵性双胎であった。

Castori ら<sup>1)</sup>は, VACTERL 連合での下肢奇形として, 發育性股関節形成不全は 18% と少なく,

脛骨奇形が 88%，足部変形は 69%であり，その多くは内反足変形であったと報告した．全症例において半椎，蝶形椎などの脊椎奇形を認めており，彼らの報告した下肢奇形を合併した VACTERL 連合では，上肢奇形の合併は 43%であったが，我々の症例では上肢奇形は認めなかった．今回経験した 3 症例では症例 3 のみ VACTERL 連合と診断されていた．今回の報告が VACTERL 連合の診断の一助となれば幸いである．

### 結 語

まれな VACTERL 連合と思われる 3 例を経験したので，若干の文献的考察を加えて報告した．

### 文献

- 1) Castori M, Rinaldi R : Tibial Development Field Defect is the most common lower limb malformation pattern in VACTERL association. *Am J Med Genet Part A* **146-A** : 1259-1266, 2008.
- 2) 藤井喜充ら : 尾部退行症候群の一例 . *日小外会誌* **29**(5) : 1003-1006, 1993.
- 3) Hall BD : Choanal atresia and associated multiple anomalies. *J Pediatr* **95** : 395-398, 1979.
- 4) Holt M, Oram S : Familial heart disease with skeletal malformations. *Br Heart J* **22** : 236-242, 1960.
- 5) Kaufman RL : Birth defects and oral contraceptive. *Lancet* **301**(7816) : 1396, 1973.
- 6) Muin JK, Jose FC, Frank G et al : A Population Study of the VACTERL Association : Evidence for its Etiologic Heterogeneity. *Pediatrics* **71**(5) : 815-820, 1983.
- 7) Nakamura et al : PCSK5 mutation in a patient with the VACTERL association. *BMC Res Notes* **8** : 228, 2015
- 8) Nora AH, Nora JJ : A syndrome of multiple congenital anomalies associated with teratogenic exposure. *Arch Environ Health* **30** : 17-21, 1975.
- 9) Nora JJ, Nora AH : Birth defects and oral contraceptives. *Lancet* **301**(7809) : 941-942, 1973.
- 10) Quan L, Smith DW : The VATER association : Vertebral defects, anal atresia, tracheoesophageal fistula with esophageal atresia, radial dysplasia. *Birth Defects : Orig Art Ser* **VIII**(2) : 75-78, 1972.
- 11) Sandal G, Aslan N, Duman L et al : VACTERL association with a rare vertebral anomaly(butterfly vertebra) in a case of monozygotic twin. *Genet Couns* **25**(2) : 231-235, 2014.

## 日本人健康男児における上肢, 下肢の筋量発育

早稲田大学スポーツ科学学術院

鳥居 俊

**要 旨** 月齢 180 か月までの日本人健康男児 520 名の上肢, 下肢筋量の発育を, DXA 法装置を用いて横断的に検討した。上肢, 下肢筋量とも月齢と 3 次曲線回帰を示して増加した。一方, 体重に対する上肢, 下肢筋量の割合は, 直線回帰を示して月齢に従い増加した。

### 緒 言

近年, 高齢者でサルコペニアが注目されるようになり, 若年期の筋量を維持することの重要性が指摘されている。筋量は身体発育の活発な発育期に体重増加をもたらす身体成分であるが, 日本人小児の筋量の発育変化について詳細に検討した報告はほとんどない<sup>1)</sup>。また, 筋量が発育期にどのように増加していくかに関する検討は十分に行われていない。

そこで, 本研究では DXA による測定値を用いて, 四肢の筋量が発育期にどのように変化していくのか, すなわち筋量の発育様式について横断的な検討を行うことを目的に, 月齢 180 か月までの健康男児の筋量を分析した。

### 対象と方法

身体発育に影響を及ぼすような傷病既往のない首都圏の S 県 T 市に在住の健康な日本人男児で, 小児の身体組成測定募集に応じて DXA 法測定により全身スキャンを行った 180 か月までの 520 名を対象にした。なお, 学校での部活動を超えるレベルのスポーツ活動に参加している者は除外した。DXA 装置には Hologic 社の Delphi A-QDR を用い, 同一検者が測定と解析を行った。測定に

際し, 毎回事前に較正を行い, 測定後既に報告した方式<sup>4)</sup>により頭頸部, 体幹, 上肢, 下肢の 4 部位に分割し, 各々の部位別に組織重量を算出した。

本研究では, 上肢, 下肢の除脂肪量を筋量とみなし, その発育変化および体重に占める割合の発育変化を検討した。なお, 発育は測定時の月齢による暦年齢で表示し, 発育変化を回帰分析により検討した。各検討では危険率 5% 未満を有意差とした。

本研究は著者の所属機関の「人を対象とした倫理委員会」の承認を得ており, 対象およびその保護者への説明と同意を得て実施した。

### 結 果

対象の体格と月齢との関係を図 1 に示す。身長, 体重とも 3 次曲線回帰で高い有意な回帰を示した(相関係数: 0.906, 0.806, 共に  $p < 0.0001$ )。

次に, 上肢, 下肢の除脂肪量と月齢との関係を図 2 に示す。上肢, 下肢とも 3 次曲線回帰で高い有意な回帰を示した(相関係数: 0.761, 0.825, 共に  $p < 0.0001$ )。

体重に占める上肢, 下肢の除脂肪量の割合と月齢との関係を図 3 に示す。上肢, 下肢除脂肪量の割合は共に月齢と有意な正の相関を示した(相関係数: 0.876, 0.508, 共に  $p < 0.0001$ )。下肢除脂

**Key words** : Japanese boys(日本人男児), muscle mass(筋量), growth change(発育変化)

連絡先 : 〒 359-1192 埼玉県所沢市三ヶ島 2-579-15 早稲田大学スポーツ科学学術院 鳥居 俊 電話(04)2947-6746

受付日 : 2018 年 2 月 17 日

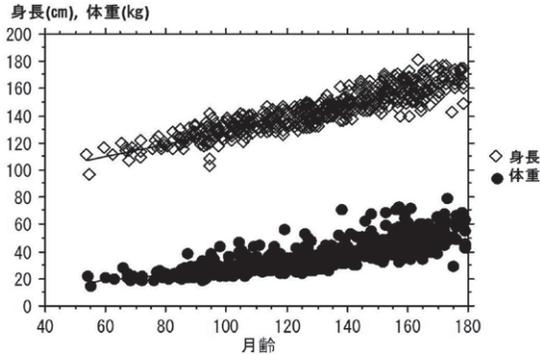


図1. 月齢と身長、体重との関係  
月齢と有意な正の相関を示す(相関係数 身長：0.906  
体重：0.806)

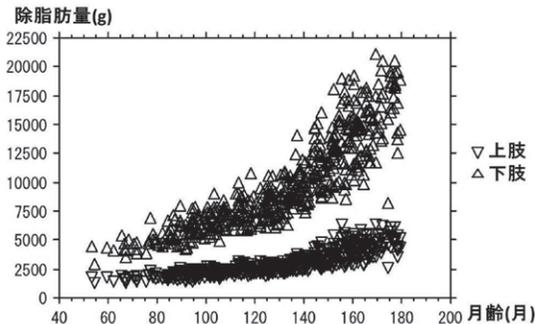


図2. 月齢と上肢、下肢除脂肪量との関係  
月齢と有意な3次曲線回帰を示す(相関係数 上肢：  
0.866 下肢：0.898)

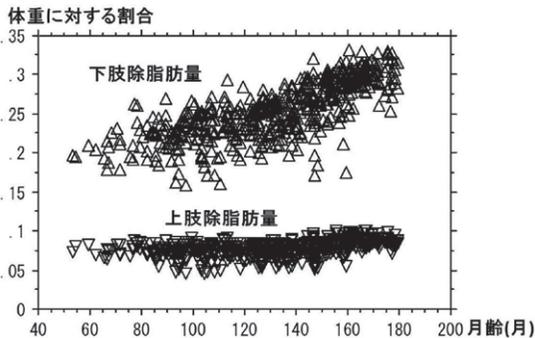


図3. 月齢と上肢、下肢除脂肪量が体重に占める割合との関係  
月齢と有意な3次曲線回帰を示す(相関係数 上肢：  
0.876 下肢：0.508)

肪量の割合は50か月時の0.178から180か月時の0.308まで増加したが、上肢除脂肪量の割合は50か月時の0.063から180か月時の0.083と増加は小さかった。

## 考察

日本人小児の筋量の発育変化について詳細に検討した報告はほとんどない。西山らは、日本人小児の骨密度と身体組成を年齢別に横断的に検討した報告<sup>1)</sup>の中で、全身除脂肪量の発育変化に言及し、女子では12歳以降は停滞するのに対し、男子では11歳以降急速に増大し、体重増加の大部分が除脂肪量であると述べている。その後、日本人小児の筋量の発育変化を論じた報告は見られない。

筋量の評価方法として、多数の高齢者を測定した谷本ら<sup>3)</sup>の用いたBIA法は微弱電流による電気抵抗値より筋肉量を算出するため放射線被曝はなく、装置も軽量で持ち運びが可能な利点がある。室温や皮膚温により電気抵抗が変化するため、測定値が変動する難点もあるが、多くの人数を短時間で測定することが容易である。一方、西山らが用いたDXA法は身体組成測定のgolden standardとされ、高精度であるが微量の放射線被曝があり、装置を持ち運んで測定することは困難である。高齢者におけるサルコペニアの評価にはDXA法により得られた上肢・下肢除脂肪量(kg)を身長(m)の二乗で除したSkeletal Muscle Index (SMI)が提案されている<sup>2)</sup>。著者らは小児でSMIを算出し、小児期には明らかに増大することを報告した<sup>5)</sup>。

本研究は15歳までの発育過程の男児の筋量の変化を、DXA法により四肢除脂肪量を測定することで明らかにすることを目的とした。結果として、発育に従って筋量は増大し、特に12歳ごろ以降の増加が著しく、また、体重に占める割合で見ると上肢に比して下肢での増加が明らかとなった。移動能力に関連する下肢筋量が体重に占める割合は、図3より小学校入学ごろに0.2、中学校入学ごろ0.25、中学校卒業ごろに0.3という目安が得られる。

本研究の意義は、発育過程にある小児の筋量の標準値を提示することと考えている。小児の体力・運動能力の二極化が問題とされ、運動時間の少ない小児や、肥満ややせの小児の体力・運動能

力値は低いことが示されている。S県の児童生徒の体格はほぼ全国平均値と差がなく、体力・運動能力値は全国順位で10位以内と平均より上位である。以上を考慮すると、日本人標準値として大きな問題はないと考えている。

本研究の限界は、体格や体力が標準的とはいえ、国内の一地域の小児のデータに限定される点である。体格や体力が全国平均を大きく上回る地域や大きく下回る地域の測定値を含めることで、二極化の背景に筋量の多寡が見られるか否かを検討できると思われるので、それが今後の課題である。

### 結 語

日本人健康男児の上肢、下肢筋量の発育変化を、DXA法装置を用いて横断的に検討した。上肢、下肢筋量とも3次曲線回帰を示して月齢に従い増加した。体重に対する上肢、下肢筋量の割合は、直線回帰を示して月齢に従い増加した。

### 文献

- 1) 西山宗六, 木脇弘二, 井本岳秋, 清野佳紀: 日本人小児の骨密度と体組成の年齢別推移. 日児誌 **103**: 1131-1138, 1999.
- 2) 真田樹義, 宮地元彦, 山元健太, 村上晴香, 谷本道哉, 大森由実, 河野 寛, 丸藤祐子, 塙智史, 家光素行, 田畑 泉, 樋口 満, 奥村重年: 日本人成人男女を対象としたサルコペニア簡易評価法の開発. 体力科学 **59**: 291-302, 2010.
- 3) 谷本芳美, 渡辺美鈴, 河野 令, ほか: 日本人筋肉量の加齢による特徴. 日老医誌 **47**: 52-57, 2010.
- 4) 鳥居 俊, 江川陽介, 山本紘平, 高橋直美, 佐藤亨至: 成長期の中学生男子サッカー選手における手部骨年齢と全身および各部位の骨密度との関連性. 日本成長学会雑誌 **12**: 75-79, 2006.
- 5) 鳥居 俊, 岩沼聡一朗, 戸島美智生, 飯塚哲司, 大伴茉菜: 日本人健康小児における四肢除脂肪量比の発育変化. 日本成長学会雑誌 **22**: 39-42, 2016.

## 小・中学生男子サッカー選手における Sever 病の有病率

早稲田大学スポーツ科学学術院

鳥居 俊

**要 旨** Sever 病は海外では9~15歳ごろに多いとされるが、国内での調査報告がない。本研究では小・中学生男子サッカー選手を直接検診することで、自発痛と圧痛の位置より Sever 病の有病率を調査した。小学4年生で有病率が40%と最も高く、次いで5年生で31%、中学1年生で20%となっていた。有病率は骨端核出現後の小学校4、5年生で最も高くなっていた。

### 緒 言

発育期に発生する骨端症では Osgood-Shlatter 病の頻度が最も高く、発生要因に関する研究も多く行われてきた。一方、踵骨の骨端症である Sever 病では、正確な発生数を検討した報告がほとんどなく、好発年齢についても正確な報告がない。従来、後遺症状を残すことが少ない良性疾患とされており、十分な検討がなされてこなかったと考えられる。しかし、活発なスポーツ活動を行う小児では、疼痛のために活動が制限される者もあり、疫学的な検討が必要である。

そこで、本研究では地域サッカークラブに所属する小・中学生を対象に Sever 病の発生状況について問診と直接診察を行った結果を報告する。

### 対象と方法

2017年度に地域サッカークラブチームに所属し、検診を受けた小学3年生以上、中学3年生までの男子サッカー選手159名を対象とした。検診では身長、体重、坐高、踵部痛の有無と圧痛部位の診察を行った。踵骨後下方の骨端部に明らかに圧痛がある場合には超音波断層装置により観察を行い、圧痛の位置が骨端核に一致していることを

確認し、Sever 病とみなした。

統計処理には StatView 5.0(Windows 版)を用いた。体格については、一元配置分散分析により学年間で比較し、post-hoc test として Fisher 検定を用いた。Sever 病と思われる者の割合の学年間の比較には Fischer の正確確率検定を用いた。Sever 病の有無と体格との関係については二元配置分散分析を用い、主効果が認められた場合には post-hoc test として Fisher 検定を用いた。いずれも危険率5%未満を有意差とした。

### 結 果

学年ごとの人数、身長、体重、坐高を表1に示す。小学4年生と5年生、小学6年生と中学1年生の間のみ有意差がなかったが、それ以外の学年間にはすべて有意差があった。

Sever 病の有病率は小学4年生で40%、5年生で31%と高く、中学1年生で20%と再び高くなっていた(図1)。小学4年生は小学5年生以上のすべての学年と、小学5年生は中学1、2年生と、中学1年生は中学2、3年生と比べて有意に高率であった。

学年ごとに Sever 病の有無と身長との関係を検討したが、有意差はなかった(図2)。同様に体

**Key words** : Sever disease(Sever 病), incidence(有病率), boys(男児)

連絡先 : 〒359-1192 埼玉県所沢市三ヶ島 2-579-15 早稲田大学スポーツ科学学術院 鳥居 俊 電話(04)2947-6746

受付日 : 2018年2月17日

表 1. 対象の学年別人数と体格

学 年	人数(名)	身長(cm)*	体重(kg)*	坐高(cm)*
小学 3 年生	12	128.6 ± 4.5	27.1 ± 4.2	70.8 ± 2.3
4 年生	10	137.2 ± 5.6	35.0 ± 6.7	75.6 ± 3.0
5 年生	13	138.9 ± 6.3	31.7 ± 4.6	74.9 ± 2.9
6 年生	12	149.9 ± 4.9	40.4 ± 6.5	79.8 ± 2.2
中学 1 年生	41	150.6 ± 7.6	40.7 ± 7.1	79.9 ± 4.7
2 年生	38	158.2 ± 7.0	46.5 ± 6.7	84.0 ± 4.1
3 年生	33	163.8 ± 6.3	52.8 ± 7.4	87.3 ± 3.7

\*小学 4 年生, 5 年生の間, 小学 6 年生, 中学 1 年生の間のみ有意差なし, 他の学年間はすべて有意差あり

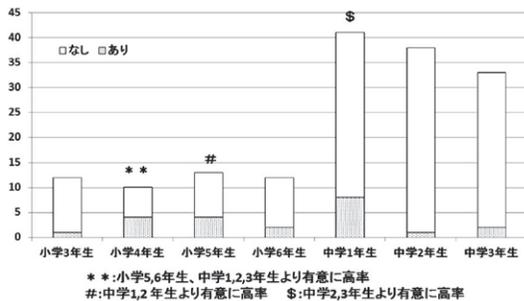


図 1. 学年別の Sever 病の有無

小学 4 年生で最も高く (40%), 次いで 5 年生 (31%), 中学 1 年生 (20%) で高い。小学 4 年生は小学 5 年生以降の全ての学年より, 小学 5 年生は中学 1, 2 年生より, 中学 1 年生は中学 2, 3 年生より有意に高率だった。

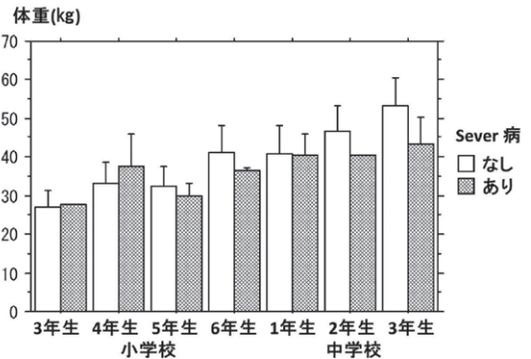


図 3. Sever 病の有無と体重との関係

どの学年でも Sever 病の有無で体重に有意差はなかった。

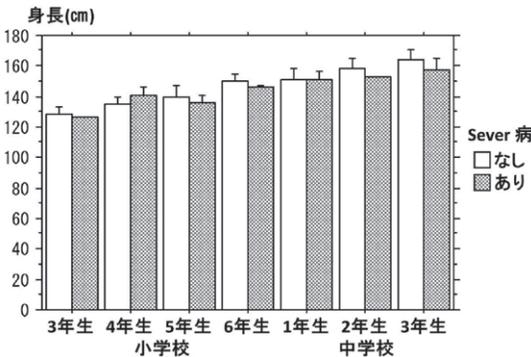


図 2. Sever 病の有無と身長との関係

どの学年でも Sever 病の有無で身長に有意差はなかった。

重 (図 3) や坐高についても有意差はなかった。

### 考 察

Sever 病は踵骨の後下方の骨端部に痛みを有する骨端症とされ, 海外の報告<sup>2)~4)</sup>では 9~15 歳に

多いとしている。Ogden<sup>2)</sup>によれば, 踵骨の骨端核の出現は 6~10 歳, 癒合は男子で 15~18 歳, 女子で 12~16 歳とされ, この間にスポーツなどによる負荷が加わり, 骨端症が生じるとしている。

本研究でも, 小学 4 年生から 5 年生, 暦年齢では 10 歳ごろに最も多く発生していたが, 中学 1 年生でも多くみられた。小学 4 年生ごろは出現した骨端核や脆弱な成長軟骨にアキレス腱や足底腱膜を介した力が加わり, 損傷が生じやすいと考えられる。一方, 中学 1 年生で再び増加していたのは, 中学生になって練習量や強度が高くなっていることが推測される。Sever 病の危険因子として体格の関連性を検討したが, 特に関連を見出すことができなかった。

Sever 病の疼痛に対してはヒールカップが有効とされ<sup>2)</sup>, 本研究の対象に対しても使用を勧めている。予防的な使用が有効かどうかを検討した先

行研究はないが, Perhamre S et al<sup>3)</sup>の記す効果メカニズムを考えると, 好発年代のスポーツ少年たちで試みてよい方法と考えられる.

本研究の限界として, Sever 病の有無を踵骨の骨端部の自発痛と圧痛のみによって評価した点が挙げられる. しかし, X線像で必ずしも典型的な変化があるわけではなく, アキレス腱附着部の滑液包炎などを鑑別できれば, 疼痛による診断が主となるとされている<sup>1)</sup>.

### 結 語

小・中学生男子サッカー選手における Sever 病の有病率を直接検診で調査した. 小学4, 5年生で高い発生率を示していた.

### 文献

- 1) 藤原 憲 太: Sever 病(踵骨骨端症: calcaneal apophysitis). 小児科臨床 12: 2459-2463, 2013.
- 2) Ogden JA: Skeletal injury in the child. 3rd ed, Springer, New York, 164, 1999.
- 3) Perhamre S, Lundin F, Klassbo M et al: Sever's injury: treatment with insoles provides effective pain relief. Scand J Med Sci Sports 21: 819-823, 2011.
- 4) Perhamre S, Lundin F, Klassbo M et al: A heel cup improves the function of the heel pad in Sever's injury: effects on heel pad thickness, peak pressure and pain. Scand J Med Sci Sports 22: 516-522, 2012.

## 2017 年度 Iwamoto-Fujii Ambassador 帰朝報告

宮崎県立こども療育センター 整形外科

門内 一郎

このたび 2017 年度 4 代目 Iwamoto-Fujii Ambassador として、2017 年 6 月 30 日から 7 月 16 日にベラルーシ共和国の首都ミンスクにある Republic Scientific-Practical Center of Traumatology and Orthopedics (RSPC TO) を訪問しましたのでここにご報告いたします。

今回私が応募させていただいたのは、小児整形外科医としての経験年数は 8 年程度と浅く、もっと世界の小児整形外科に触れてみたいと考えてのことでした。本来の JPOA Ambassador という立場とはほど遠いのですが、佐賀整肢学園こども発達医療センター和田晃房先生の後押しもあり、そこをあえて応募させていただいたというのが本音です。

さて、無事に選出していただき非常にありがたいと思いつつも、さてどこへ行こう？と悩むことになりました。もともとはアメリカに行ってみたいと思っていたのですが、アメリカは手続きが煩雑でオペ見学もままならない、ましてや手洗いなんてとんでもない、それ以前にアメリカ訪問先のつてがないという状況でした。そのような中、九州大学整形外科・中島康晴教授、佐賀整肢学園・和田晃房先生が温かく手を差し伸べてくださり、無事にベラルーシ共和国にある RSPC TO へと訪問先が決定いたしました。

ここで、ベラルーシ共和国のことをご存じない方も多いと思いますので、ご紹介させていただきたいと思います。ベラルーシ共和国は、日本から西へおよそ 8000km 離れた東ヨーロッパに位置する共和制国家で、東にロシア、南にウクライナ、西にポーランド、北西にバルト三国の一角であるラトビア、リトアニアと国境を接する内陸国家です。人口は約 940 万人、総面積は日本の半分程度で、言語はロシア語とベラルーシ語があり、日常的にはロシア語が多く使用されています。そのため、街中で英語表記は皆無で、英語でのコミュニケーションはまったくとれません。そのような国ですので、2013 年の調査で在留日本人総数はわずか 50 人余り、日本人の 99% 以上が行くことのない国といわれています。

首都ミンスクは北海道の北に位置する樺太島の最北端とほぼ同じ緯度に当たり、夏は温暖で冬は長く寒さが厳しいのが特徴の亜寒帯温潤気候です。私が訪れた 7 月の平均最高気温は 23℃ で、観光に最適時期といわれています。にもかかわらず、訪問した 2017 年 7 月は 10 年に一度くらいという冷夏で、朝の平均気温は 10℃ 以下とジャケットを着ていても凍えるくらい寒かったです。

さて、話を訪問先である RSPC TO に戻したいと思います。RSPC TO はミンスクの南方に位置する国立の外傷および整形外科病院です(写真 1)。RSPC TO には年間およそ 3 万人もの患者が紹介され、全整形外科手術は年間 8000 件余り、そのうち小児整形外科手術件数は 700 件以上と、非常に多くの症例数をこなしています。



写真 1.

その RSPC TO でお世話になったのが、小児整形外科の Aleh Sakalouski (アレック・サカロフスキー) 教授です(写真2左)。Sakalouski 教授はベラルーシ国営放送で特集されるほど有名な先生なのですが、非常にフレンドリーな先生で、訪問中は日々の送迎、食事からアフターファイブまで、ずっと私の面倒をみていただきました。

Sakalouski 教授で有名なのが、今訪問の最大の目的である Triple Pelvic Osteotomy です(写真3, 4)。これは Anatoly Sakalouski 先生が1974年に編み出した手術法で、重症な股関節疾患に対して非常に効果的な治療法となっています。ちなみに、お気づきのように Anatoly Sakalouski 先生は Sakalouski 教授のお父上であり、親子そろって国立病院の小児整形外科教授を務める父子鷹おやこだかです。

RSPC TO の1日は8時からの全体カンファレンスに始まります。カンファレンスは病院のドクター全員が出席し、Director(病院で一番偉い人)を目の前にして、若い先生たちが術前術後のプレゼンテーションを行います。そして、術前に関してはプレゼン後 Director がサインをしていました(写真5, 6)。カンファレンスの後は、9時から手術が行われ、小児整形外科は月曜から木曜は1列、金曜日は2列手術を行



写真2.

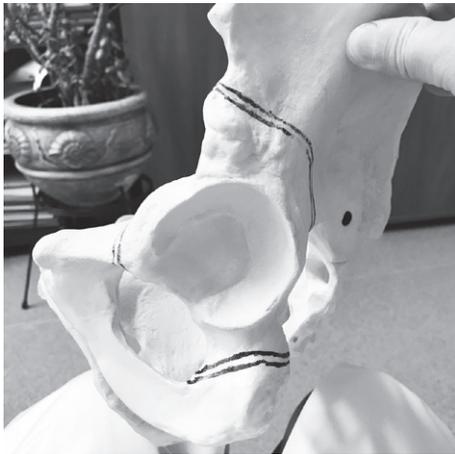


写真4.

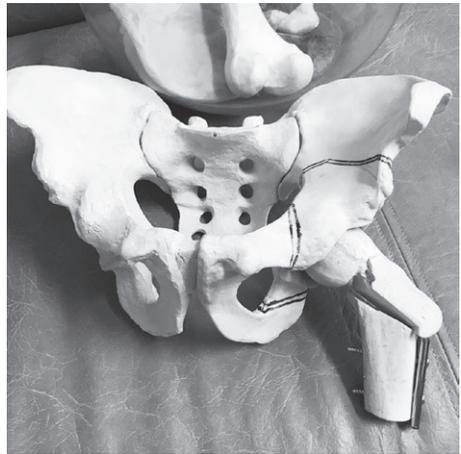


写真3.



写真5.

«Согласовано»  
зав. лабораторией, а.м.н., проф.  
О.А.Соколовский

Операционная № 1  
Детское отделение  
11.07.2017 г.

№	Время	Ф.И.О.	Палата	Операция	Обе- добо- ление	Бригада
1.	9.00	Слечук А.А., 6 лет	208	Тройная остеотомия таза слева	наркоз	Соколовский О.А. Сердюченко С.Н. Иширо
2.	11.30	Полов М.К., 4 года	211	Детрсионная остеотомия костей правого предплечья	наркоз	Левковский Ю.В. Климов Р.В. Иширо
3.	12.30	Зверов Н.Н., 3 лет	205	Устранение деформации 3 пальцев обоих стоп	наркоз	Левковский Ю.В. Климов Р.В. Иширо
4.	13.30	Габрусев В.В., 13 лет	212	Удаление пластины из левой бедренной кости	наркоз	Демощев А.Б. Климов Р.В. Иширо

Директор РИИЦГО, проф.

И.б. зав. отд., к.м.н.

Белский А.В.

Шалевский И.Э.

写真6.

えるようになっていました。驚いたことに、15時までに終わらなかった手術は、なんと翌日に持ち越されており、とても日本では考えられない慣習でした。そして、15時から再びカンファレンスを行い、16時にはすべて業務終了となっていました。ちなみに、金曜日だけは14時カンファレンスの15時終了となっており、いわゆるプレミアムフライデーが毎週といった感じでした。

さて、いよいよ手術見学ですが、1例目8歳・女兒の両側白蓋形成不全で、早速 Triple Pelvic Osteotomy を手洗いして見学させてもらえました。そのメスさばきはまさに電光石火の早業というべきでしょうか、骨切り・ワイヤー固定までわずか45分、閉創まで含めても1時間と驚くべきものでした。

しかも、X線透視は用いずに骨切り・ワイヤー固定まで行い、その後にX線撮影を行って確認するだけというものでした(写真7)。ただ、X線透視を用いないのは、30数年前にベラルーシ南東に位置するウクライナ共和国・チェルノブイリで原発事故が起こり、今もなお国家予算の多くが使われながら放射線対策が行われており、そのため、医療においても放射線被曝を最小限にとどめておかななくてはならないからだということでした。

手術を通してほかに驚いたことは、このご時世ほとんどのものがディスポであるにもかかわらず、お国柄なのでしょうか、ほとんどすべてのものがリユースされていました。それは体内に挿入されるものも同様で、骨端軟骨発育抑制術では eight Plate 様のプレートとスクリューが使用されていたのですが、eight Plate は繰り返し使用することにより破損してしまうとのことで、再利用できるように独自にプレートとスクリューを作製して使用しているとのことでした。

先述したように、手術は月曜から金曜まで毎日行われ、しかも金曜日は2列同時進行で行われているため、今回訪問させていただいた正味9日間での手術件数は30症例以上でした。そのうち、小児股関節手術8件を含む計26件の小児整形外科手術に直接手洗いして参加させていただくことができ、当センターで行う手術症例の半年分以上の症例を経験させていただきました。

こうしてお話すると、今回の訪問のほとんどが手術で終わったようになりますが、アフターファイブもしっかりと面倒をみていただきました。夕食はほぼ毎日スタッフの誰かがミンスクの街を観光がてら連れ出してくださり、独りで夕食を食べた記憶がほとんどないと言ってよいほどでした(写真8, 9)。また、休日にはミンスクから離れ、ベラルーシの世界遺産であるミール地方の城と建造物群(写真10)や、街から150km以上離れた湖畔へ教授の家族旅行に泊まりがけで

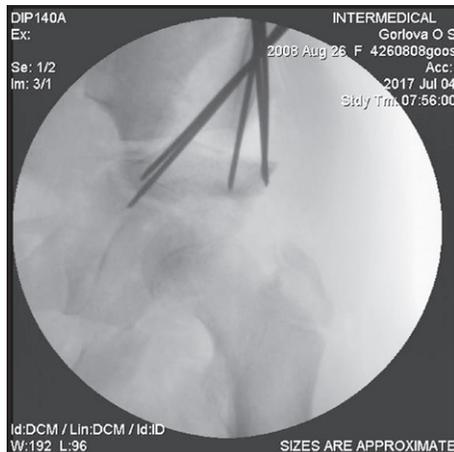


写真7.



写真8.



写真9.

同伴させてもらったり(写真11), さらにはライフル射撃や戦車に乗せてもらったりと、日本では経験できないようなことを数多く経験させてもらいました(写真12, 13).

いよいよベラルーシともお別れの時が近づいてきているところ、教授室にお呼ばれた際に、教授室の壁に掛かった一枚の写真に気がきました。そこには、初めてベラルーシへ単身訪問され、その技術を日本へと持ち帰られた亀ヶ谷真琴先生がスタッフの皆さんと一緒に写っていました(写真14)。その時、これまで良好な関係を築いてくださった先生方のおかげで、このような有意義なフェローライフを送ることができたのだと改めて感じ、深く感謝した瞬間でした。

最後になりましたが、フェローを設立してくださった岩本幸英先生、藤井敏男先生、国際委員会の中島康晴委員長をはじめ委員の皆さま、また、何から何まで私の面倒をみて下さいました和田晃房先生に感謝申し上げます。そして何より、医師3人しかいない当センターにもかかわらず、快く送り出していただいた川野所長をはじめ、当センタースタッフにこの誌面をお借りして感謝の意を表したいと思います。今回の経験をしっかりと現場で反映させ、本当の意味でのJPOA Ambassador となるよう日々精進してまいりたいと思います。



写真 10.



写真 11.



写真 12.



写真 13.



写真 14.

## 2018年度 Iwamoto-Fujii Ambassador 帰朝報告

北海道立子ども総合医療・療育センター 整形外科

藤 田 裕 樹

このたび 2018 Iwamoto-Fujii Ambassador として 2018 年 11 月 12 日から 30 日までの期間 Royal Children's Hospital Melbourne を訪問しましたのでここに報告します。

### はじめに

私が所属する北海道立子ども総合医療・療育センターは 2007 年 9 月に新築移転し、その移転に際し新しく VICON MX20 という 3 次元動作解機器を導入いたしました。導入当初から積極的に本学会で発表を行ってききましたが、導入施設が至極限られるため、宮崎県立子ども療育センター(柳園先生、川野先生、門内先生)と質問をし合う非常に狭い関係が続きました。しかし、数年前に愛知県三河青い鳥医療療育センターの則竹先生が gait lab を積極的に使用し、CP 児への治療に応用し始めたのが刺激となり、ぜひ最先端の gait lab に行きどのような所見、どのようなカンファレンスにて surgical decision making に至っているのかを知りたいという思いになりました。また、平成 29 年 10 月の 1 か月間、佐賀整肢学園和田晃房先生の下で股関節手術の勉強をさせていただいた際に ambassador への応募を強く後押しいただいたことも非常に大きかったです。渡航先としては、CP 児での著書および論文、そして現在の歩行解析界では Gillette 以上の勢いをもつ University of Melbourne の Prof. H. K. Graham が所属する Royal Children's Hospital Melbourne (以下、RCHM) (写真 1) を選択いたしました。

### 方 法

今回は、2014 年初代 ambassador である大阪市立総合医療センター北野利夫先生、2015 年兵庫県立子ども病院小林大介先生、2016 年神奈川県立子ども医療センター中村直行先生、2017 年宮崎県立子ども療育センター門内一郎先生、諸先生方の帰朝報告に記載されているようなツテが皆無であったため、2017 年 12 月にいきなり Prof. Graham (写真 2) にメールをすることから始めました。メールアドレスは web で検索し、RCHM 内にある Murdoch Children's Research Institute の HP にそれを見つけ、メールをしてみました。正直なところあまりにもご高名な先生であるため返事には 1 か月くらいかかるものだと思っておりましたが、2017 年 12 月 23 日(こちらからメールしたその日)に“Dear Doctor Fujita, Thank you for your email and congratulations on being selected as the Iwamoto-Fujii Ambassador for 2018. You will be welcome to visit our hospital and see our CP service and Gait Laboratory. Best wishes for the new year and I look forward to meeting you. Kerr Graham”のメールが届いたときにはうれし涙が出そうでした。こうして RCHM 訪問が決まりました。RCHM の都合上

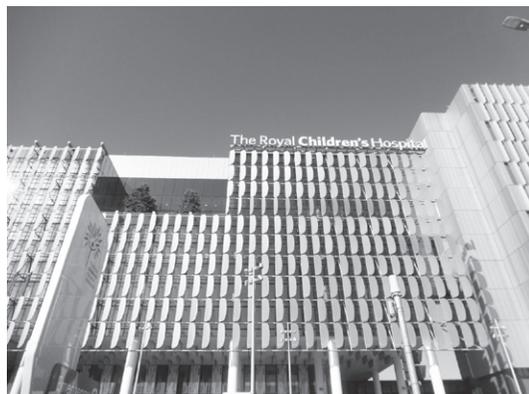


写真 1. Royal Children's Hospital Melbourne

訪問が11月12日から30日と決定し、渡航まで1年弱の期間があったので、訪問時の宿泊先、病院に提出する書類などの準備は比較的余裕をもって進めることができました。宿泊先は極力経費節減のためにwebでアパートを探し、なんとか病院近くに借りることができました。

### Melbourne

11月に訪問したため、北海道の季節との真逆感をかなり感じました。特に帰国する際のメルボルン空港の気温は30℃、千歳空港は-8℃でした。渡航前日の11月9日に市内でテロ事件が起きたことにより、渡航への期待が一気に不安に変わってしまいました。しかし、RCHM周辺はRoyal Hospital、そして何より広大な敷地を有するUniversity of Melbourneといった学術的な雰囲気を有しつつ、RCHMの真裏にはこれまた広大なRoyal Park, Princess Parkがあり、不安は早々に一掃されました。建築物も企業の高層ビルが建ち並ぶなかにVictorian State Libraryといった古い建築物の融合があり非常に美しく住みやすさを感じました。

### Royal Children's Hospital Melbourne

整形外科医は研修医を含めて15名程度(写真3)、年間手術件数は2000以上と常勤医2名の当センターでは到底かなわない規模でした。DirectorはMichael B. Johnsonです。欧米の小児整形外科医では珍しくないのでしょうか、彼も脊椎、股関節、腫瘍、神経筋疾患の足部変形、一般外傷などほぼすべての分野で手術をされていました。唯一しないのは多合指趾症などの先天性上肢奇形でしょうか。Dr. Johnsonの奥方が高校の日本語教師をされているとのことで、日本語を若干理解されているようでした。また、外来中は日本の「おいお茶」を飲むなど、随所に日本通の姿が垣間見えました。その他の専門として、同じ脊椎班としてDr. Gary Natrass、変形矯正班としてDr. Leo Donan、Dr. Chris Harris、股関節班としてDr. Slattery Davidなど各パーツのprofessional doctorで構成されていました。

そして、今回の主目的であった脳性麻痺治療部門は、Dr. H. K. Grahamを筆頭に、Grahamの右腕であるDr. Paulo Selber(写真4)、Dr. Abhay Khotの三本柱で構成されていました。Dr. Paulo Selberはブラジルのサンパウロ出身で、1990年代に米国のDr. James Gageのgait labに留学しており、3次元歩行解析に関する知識はエンジニアを思わせるほどの深いものであり、本邦との差を痛感しました。彼は私の滞



写真2. Prof. H. Kerr Graham と筆者



写真3. Royal Children's Hospital Melbourne の整形外科スタッフ(術前カンファレンスの際に撮影させていただきました)



写真4. CP治療に関してはDr. Kerr Graham に次ぐNo.2のポジションにいるDr. Paulo Selber

在中の supervisor であり、いろいろ相談に乗っていただき支えられました。Gage の lab 留学中は愛知県三河青い鳥医療療育センターの則竹先生と一緒にだったことも何かの縁を感じました。彼は2019年5月からNew YorkにあるUniversity of Columbiaの gait lab のヘッドになることが決まりました。彼が自分の lab を確立し得た4~5年後にはぜひ訪問したいことを伝え、それを後輩への道につなげたいと思っています。

滞在中は事前に組まれたスケジュールに則り動いていましたが、2週目、3週目はある程度脳性麻痺を重点的にDr. Grahamの手術などを主体にflexibleに動かしていただきました。毎週水曜日は術前術後カンファレンスがあり、朝8時から正午までの4時間程度熱い議論が交わされていました。ただ土地柄なのか張り詰めた空気感はなく、終始和やかに進行している印象がありました。それでも症例ごとの最後を締めるのはやはりDr. JohnsonやDr. Grahamであり、非常に説得力のある言葉で周囲を納得させ空気を一変させる姿が印象的でした。ところで、アフターファイブで飲みに行ったのは一度きりで、それ以外は研修医並みにRCHM関連の論文を読みあさっていました。自分の病院ではダウンロードできないGait & Postureの論文をGrahamにお願いしてPDFで大量にもらい楽しみながら読んでいました。書類等の雑務に追われることなくのんびり歩行解析関連の論文を読める幸せを感じた時間でもありました。決して普段はこのような真面目な人間ではありませんが。

### Gait Lab

世界でもトップクラスの gait lab です(写真5)。今回の ambassador を志願した一番の理由がここにあります。フットサルができるのではと思えるほどの広い lab であり、video camera は10台、force plate は10枚以上とこれまた当センターとの規模の違いを見せつけられました。Lab の中心はPTの Pam Thomason

です(写真6)。彼女はRCHMが関連する多くのJBJS論文のco-authorであり、実際に評価し surgical decision suggestion をしています。症例の年齢、麻痺のタイプ、理学所見、3次元歩行解析のkinematic data, kinetic data, Gait Deviation Index, Gait Variable Score, Gait Profile Score, Movement Analysis Profile などの総合評価をし、selective dorsal rhizotomy をすべきか orthopaedic surgery をすべきか、後者ならどの部位をすべきか、rotational osteotomy が必要か否かを suggestion します。それを毎週金曜日の gait lab conf に提示して、最終的な手術決定となっていました。Gait lab conf も濃厚であり、金曜日朝8



写真5. 院内の Murdoch Children's Research Institute にある Gait Lab



写真6. Murdoch Children's Research Institute Gait Lab のPTのトップである Pam Thomason



写真7. セントパトリック大聖堂

時からスタートして終わるのは正午と、水曜日の conf 同様 4 時間コースでした。しかし、これこそが自分の求める ambulate CP children の治療決定へのプロセスであり、ぜひこのシステムを北海道にも定着させようという思いを強めてくれた lab であり conf でした。また、当センターの crouching 症例への治療概念を変えたのはここでの経験と指導でした。半腱様筋は膝窩での延長しか考えてきませんでした。しかし、3次元歩行解析にて、決してハムストリングの length や velocity が短縮あるいは遅延があるわけではないことを提示され、かつ将来的な骨盤の前方傾斜を回避する目的で、半腱様筋を大内転筋内顆枝に移行する術式および大腿骨遠位骨端線前方の骨端抑制術との組み合わせを取り入れるようにしました。しかし、そもそも初回報告が 2006 年の JBJS であり、12 年経って取り入れている自分のふがいなさを思い知る指導ともなりました。

訪問が 11 月と、日本小児整形外科学会の前の月であったことが非常に良かった点が一つありました。ちょうど当センターの房川医師が“Gait Profile Score based on 3-dimensional gait analysis evaluates the walking ability of spina bifida”という演題で第 29 回日本小児整形外科学会に英文ポスターでエントリーしていました。滞在中特に Pam Thomason にはポスターの内容について適切なアドバイスをいただきました。その結果、房川医師は見事最優秀ポスター賞を授賞することができました。

#### まとめ

当フェローを設立された岩本幸英・藤井敏男両先生、国際委員会の中島康晴先生をはじめとした委員の皆様には深謝申し上げます。平成 29 年 10 月に佐賀整肢学園に研修に行かせていただいた際に、藤井先生には直接激励のお言葉をいただきました。その言葉が応募への気持ちを固める大きなきっかけとなりました。

さて、整形外科のトップである自分が 3 週間も病院を空けてよいのだろうか？という葛藤は常にありました。しかも海外に……。自分が手術をした患児も病棟に残して行きました。このフェローは当センターの多くの人のサポートもあって成立しました。当センタースタッフの方々、そして不在を完璧にカバーしかつ第 29 回日本小児整形外科学会で英文ポスターの最優秀賞を取り期待に応えてくれた房川祐頼先生そして不在期間を承諾していただいた患児およびそのご両親・関係者に深く感謝申し上げます。

この文章が届くことはありませんが、Web や論文での遠い神様の存在であった Kerr Graham。彼が RCHM 退官直前の忙しい時期にもかかわらずフェローを受けてくれ、しかも懇切丁寧に指導してくれたすべてが自分の財産となりました。感謝を表現する言葉が見つかりません。

最後に、残念ながら本邦の歩行解析は Gillette, Melbourne には遠く及びません。しかし、常に先頭を追いかける気持ちを失わず、この分野を盛り上げていきたいと考えております。今後ともご指導、ご鞭撻のほどよろしくお願い申し上げます。

## 一般社団法人 日本小児整形外科学会雑誌投稿規定

(平成 3 年 6 月 28 日制定)  
(平成 23 年 5 月 10 日改定)  
(平成 24 年 12 月 12 日改定)  
(平成 25 年 11 月 9 日改訂)  
(平成 27 年 12 月 6 日改訂)

1. 投稿論文の主著者、共著者は一般社団法人日本小児整形外科学会の会員であること(編集委員会が認める場合を除く)。

2. 論文は和文または英文とし、原則的に未発表のものとする。掲載論文の著作権は、日本小児整形外科学会に属する。日本小児整形外科学会は投稿論文をデジタル媒体(CDやホームページでの公開など)として使用する場合がある。他誌(英文誌)への再投稿には、編集委員会に申請し許可を得る必要がある。

3. 論文はタイトルページ、要旨、本文、文献、図の説明文、図、表、からなる。

### 1) タイトルページについて

以下のものを記す。

論文題名：日本語と英語で併記する(英語題名は日本語題名と同じ内容の英訳であること)。

著者名：日本語と英語で併記する。

所属機関：日本語と英語で併記する。番号により各著者の所属を示す。

キーワード：5個以内。日本語と英語で併記する。

連絡先：郵便番号、住所、電話番号、FAX番号、e-mail、氏名。

### 2) 要旨について

要旨のみで目的、対象・方法、結果、結論がわかるように簡潔に記載する。

略号を用いることができるのは要旨の中で3回以上使用される場合とし、最初に全スペルを記述、括弧内に略号を記載し2回目以降略号を使用する。全スペルの提示なく使用できる略号は特に常用されているもの(例、MRIなど)に限る。

#### ①和文論文の場合

和文要旨(400字以内)を提出する。

#### ②英文論文の場合

英文要旨(200語以内)を提出する。

### 3) 本文について

本文は序文、対象・方法、結果、考察、結論からなる。記載にあたって、序文の中で結果や結論を繰り返さない。考察は結果の単なる繰り返して

はなく、得られた結果がいかに結論に結びつくかを論理的に説明する。

数字は算用数字を用い、度量衡単位はCGS単位で、m, cm, l, dl, kg, mgなどとする。薬剤名は一般名とし、必要に応じて商品名を併記する。機器名は商品名で記載し、会社名、所在地名を括弧内に追記する。略号を用いることができるのは、本文中に同一用語が3回以上使用される場合とし、最初に全スペルで記述、括弧内に略号を記載し2回目以降略号を使用する。全スペルの提示なく使用できる略号は特に常用されているもの(例、MRIなど)に限る。

#### ①和文論文の場合

横書き、20字×20行の原稿用紙換算で、本文と文献の合計を15枚以内とする。

口語体、新かなづかい、常用漢字を基準とする。学術用語は日本整形外科学会用語集、日本医学会医学用語辞典に準拠する。外国語はできるだけ邦訳し、邦訳し得ない外国語や人名などは外国語綴りとする(例外ペルテス病)。カタカナ表記は常用されるもの(外国の地名など)のみとする。

#### ②英文論文の場合

A4版、ダブルスペースCentury、11ポイント換算で、本文と文献の合計12枚以内とする。

### 4) 図、表について

図、表は合計で10個以内とする(組写真は用いられている図、各々を1枚と数える)。表は文字、数字と横線のみで作成する。番号を付け、本文中に挿入箇所を指定する。図、表ごとに標題を付け、図には説明文を付ける。図、表は鮮明なものとし、図はjpegで、300dpi手札版(約9×13cm)程度のサイズとする。カラーは実費著者負担とする。

表はできるだけエクセルのファイルで作成すること。

### 5) 文献について

原則として本文中に引用されたもので、10個以内とする。記載順序は著者名のアルファベット順とし、同一著者の場合は発表順とする。本文中に肩番号を付けて照合する。著者名は3名までとし、4名以上は「ほか、et al」とする。

誌名の省略は公式の略称を用い、英文誌は

Index Medicus に従う。

記載例を下記に示す。

(例)

- 1) Aronson DD, Zak PJ, Lee CL et al : Posterior transfer of the adductors in children who have cerebral palsy. A long term study. J Bone Joint Surg 73-A : 59-65, 1991.
- 2) Kruse RW, Bowen JR, Heinhoff S : Oblique tibial osteotomy in the correction of tibial deformity in children. J Pediatr Orthop 9 : 476-482, 1989.
- 3) Ogden JA : The uniqueness of growing bone. In Fractures in Children (Rockwood CA et al ed), Lippincott, Philadelphia, 1-86, 1972.
- 4) Schuler P, Rossak K : Sonographische Verlaufskontrollen von Hüftreifungsstörungen. Z Orthop 122 : 136-141, 1984.
- 5) Tachdjian MO : Pediatric Orthopedics, Saunders, Philadelphia, 769-856, 1972.
- 6) 滝川一晴, 芳賀信彦, 四津有人ほか : 脚長不平等に対する経皮的膝骨端線閉鎖術の治療効果. 日小整会誌 15 : 50-54, 2006.
- 7) 吉川靖三 : 先天性内反足. 臨床整形外科(大野藤吾ほか編)7巻, 中外医学社, 東京, 837-859, 1988.

#### 6) チェック表について

論文の体裁を整えるため, 原稿をまとめる際にチェック表の項目を確認すること。

共著者に senior author がいる場合は校閲を受けた上で署名をもらい, 原稿とともに投稿すること (チェック表は, ホームページからのダウン

ロード或いはコピー可)。

4. 論文は十分に推敲し提出する。英文論文は, 本学会が校正者を紹介する場合がある。その費用は投稿者の負担とする。

5. 他著作物からの引用・転載については, 原出版社および原著者の許諾が必要である。予め許諾を得ること。

#### 6. 倫理的配慮について

本誌に投稿されるヒトを対象とするすべての医学研究は, ヘルシンキ宣言を遵守したものであること。患者の名前, イニシャル, 生年月日, 病院での患者番号, 手術日, 入院日など, 患者の同定を可能とする情報を記載してはならない。臨床疫学的研究も当該施設の基準等に合致していること。動物実験を扱う論文では, 実験が当該施設の基準等に沿ったものであること。

7. 論文の採否は編集委員会で審査し決定する。内容の訂正あるいは書き直しを求めることがある。

8. 掲載料は刷り上がり4頁までは無料, これを超える分はその実費を著者負担とする。刷り上がりのPDF(高精細)有料, 別刷は著者実費負担とする。掲載料別刷料納入後, 発送する。

#### 9. 投稿方法

投稿は, 日本小児整形外科学会オンライン投稿システムの手順に従い入力を行う。

〒113-0033 東京都文京区本郷2-40-8

THビル2階

一般社団法人日本小児整形外科学会事務局

電話 03(5803)-7071

FAX 03(5803)-7072

URL : <http://www.jpoa.org/>

# 一般社団法人日本小児整形外科学会

## 名誉会員・功勞会員・役員および評議員

平成 30 年 12 月 14 日現在

### 名誉会員

青木 治人	朝貝 芳美	渥美 敬	石井 清一	石井 良章
石田 勝正	井上 明生	岩本 幸英	植家 毅	扇谷 浩文
奥住 成晴	小田 裕胤	金谷 文則	亀ヶ谷真琴	亀下喜久男
北 純	君塚 葵	日下部虎夫	国分 正一	斉藤 進
齋藤 知行	坂口 亮	坂巻 豊教	笹 益雄	佐藤 雅人
清水 克時	島津 晃	鈴木 茂夫	瀬本 喜啓	高山真一郎
中村 耕三	野島 元雄	野村 忠雄	畠山 征也	浜西 千秋
廣島 和夫	藤井 敏男	船山 完一	本田 恵	松尾 隆
松永 隆信	安井 夏生	矢部 裕	山田 順亮	山室 隆夫
山本 晴康	吉川 靖三			

### 功勞会員

麻生 邦一	泉田 良一	井田 英雄	糸満 盛憲	猪又 義男
今給黎篤弘	岩谷 力	小田 法	笠原 吉孝	加藤 哲也
城戸 研二	木下 光雄	久保 俊一	小宮 節郎	佐藤 啓二
司馬 良一	杉 基嗣	勝呂 徹	土谷 一晃	徳橋 泰明
戸山 芳昭	中島 育昌	中塚 洋一	二井 英二	西山 和男
野村 茂治	乗松 尋道	肥後 勝	廣橋 賢次	藤井 英夫
別府 諸兄	堀井恵美子	松崎 交作	松下 隆	松野 丈夫
宮岡 英世	望月 一男	茂手木三男	森 修	渡辺 真

### 賛助会員

日本特殊陶業(株) 科研製薬(株) 帝人ファーマ(株) 東名ブレース(株) 日本ケミファ(株)  
日本イーライリリー(株)

### 役員

理事長	大谷 卓也			
副理事長	鬼頭 浩史	薩摩 眞一		
理事	赤澤 啓史	稲葉 裕	落合 達宏	北野 利夫
	倉 秀治	西須 孝	田中 康仁	帖佐 悦男
	中島 康晴	藤原 憲太	町田 治郎	松本 守雄
監事	吉川 一郎			
学術集会会長	川端 秀彦(第 30 回会長)	服部 義(第 31 回会長)		
	尾崎 敏文(第 32 回会長)			

評 議 員

青木 清	赤澤 啓史	秋山 治彦	池上 博泰	池邊顯嗣朗
一戸 貞文	伊藤 順一	伊藤 弘紀	稲垣 克記	稲葉 裕
射場 浩介	伊部 茂晴	内尾 祐司	内川 伸一	宇野 耕吉
遠藤 直人	遠藤 裕介	大関 覚	太田 憲和	大谷 卓也
岡 佳伸	岡野 邦彦	桶谷 寛	尾崎 誠	尾崎 敏文
落合 達宏	柿崎 潤	加藤 博之	金治 有彦	金子 浩史
神谷 宣広	川口 泰彦	川野 彰裕	川端 秀彦	岸本 英彰
北川 由佳	北野 利夫	北野 元裕	吉川 一郎	鬼頭 浩史
金 郁喆	金城 健	日下部 浩	窪田 秀明	倉 秀治
小泉 涉	小崎 慶介	小寺 正純	小林 大介	小林 直実
後藤 昌子	西須 孝	西良 浩一	櫻吉 啓介	薩摩 眞一
佐藤 英貴	品田 良之	柴田 徹	島村 安則	志村 司
下村 哲史	神野 哲也	杉山 肇	関 敦仁	平良 勝章
高橋 祐子	高村 和幸	滝川 一晴	武田浩一郎	田中 康仁
田村 太資	帖佐 悦男	土屋 大志	津村 弘	徳山 剛
戸澤 興治	戸祭 正喜	中川 敬介	中島 康晴	中村 直行
中村 幸男	仁木 久照	西山 正紀	野口 康男	芳賀 信彦
萩野 哲男	服部 義	樋口 周久	福岡 真二	藤原 憲太
二見 徹	星野 裕信	細川 元男	町田 治郎	松村 福広
松本 守雄	松山 敏勝	三澤 晶子	三谷 茂	村上 玲子
森岡 秀夫	盛島 利文	森田 光明	柳田 晴久	柳本 繁
山口 徹	山下 敏彦	横井 広道	若林健二郎	和田 晃房
和田 郁雄	渡邊 航太	渡邊 英明		

# 一般社団法人 日本小児整形外科学会 各種委員会

平成 30 年 12 月 14 日現在(○：委員長)  
(\*：副委員長)

## 国際委員会 担当理事：中島康晴

○中島 康晴 \*稲葉 裕 青木 清 金子 浩史 瀬川 裕子 藤原 憲太  
山口 亮介 渡邊 英明  
アドバイザー 亀ヶ谷真琴 国分 正一 藤井 敏男

## 教育研修委員会 担当理事：稲葉 裕

○稲葉 裕 青木 清 池上 博泰 射場 浩介 鬼頭 浩史 後藤 昌子  
櫻吉 啓介 神野 哲也 柳田 晴久  
アドバイザー 北 純 中塚 洋一 堀井恵美子

## マルチセンタースタディ委員会 担当理事：北野利夫

○北野 利夫 一戸 貞文 大谷 卓也 金子 浩史 小林 直実 星野 裕信  
樋口 周久 村上 玲子 和田 晃房  
アドバイザー 尾崎 敏文 服部 義

## 編集委員会 担当理事：落合 達宏

○町田 治郎 遠藤 直人 岡野 邦彦 川野 彰裕 北野 元裕 日下部 浩  
小林 大介 西須 孝 神野 哲也 関 敦仁 平良 勝章 高村 和幸  
徳山 剛 三澤 晶子 横井 広道 渡邊 英明  
アドバイザー 高山真一郎

## 学会あり方委員会 担当理事：薩摩眞一

○薩摩 眞一 神谷 宣広 川端 秀彦 吉川 一郎 金 郁喆 小崎 慶介  
村上 玲子 大谷 卓也(理事長) 鬼頭 浩史(副理事長)  
アドバイザー 芳賀 信彦

## 社会保険委員会 担当理事：帖佐悦男

○吉川 一郎 中村 直行 福岡 真二 樋口 周久 若林健二郎  
アドバイザー 朝貝 芳美

## 広報委員会 担当理事：赤澤啓史

○藤原 憲太 柿崎 潤 金城 健 後藤 昌子 徳山 剛 戸澤 興治  
盛島 利文

## スポーツ委員会 担当理事：田中康仁

○田中 康仁 鎌田 浩史 琴浦 義浩 佐竹 寛史 島村 安則 藤井 宏真  
山本 祐司  
アドバイザー 内尾 祐司 戸祭 正喜 鳥居 俊 山下 敏彦

## 用語委員会 担当理事：倉 秀治

○一戸 貞文 伊藤 順一 北川 由佳 二見 徹 若林健二郎 和田 晃房

## 財務委員会 担当理事：松本守雄

○松本 守雄 池上 博泰 射場 浩介 志村 司 中村 直行  
大谷 卓也(理事長) 鬼頭 浩史(副理事長) 薩摩 眞一(副理事長)

## 倫理委員会 担当理事：鬼頭浩史

○鬼頭 浩史 小泉 渉 神野 哲也 町田 治郎 渡邊 航太 外部委員 4 名

## 健診委員会 担当理事：大谷卓也

○服部 義 江口 佳孝 岡 佳伸 落合 達宏 金城 健 櫻吉 啓介  
瀬川 裕子 高橋 大介 藤原 憲太 星野弘太郎 村上 玲子 若林健二郎  
アドバイザー 朝貝 芳美 北 純 薩摩 眞一 品田 良之 二見 徹

## 編集委員

委員長	町田 治郎	神奈川県立こども医療センター 病院長
委員	遠藤 直人	新潟大学医学部 整形外科学教授
	岡野 邦彦	長崎県立こども医療福祉センター 整形外科部長
	川野 彰裕	宮城県立こども療育センター 所長
	北野 元裕	国立病院機構大阪医療センター 整形外科医長
	日下部 浩	仙川整形外科 院長
	小林 大介	兵庫県立こども病院 リハビリテーション科・整形外科部長
	西須 孝	千葉県こども病院 整形外科部長
	神野 哲也	獨協医科大学埼玉医療センター 第二整形外科教授
	関 敦仁	国立成育医療研究センター臓器・運動器病態外科部 整形外科部長
	平良 勝章	埼玉県立小児医療センター 整形外科科長兼副部長
	高村 和幸	福岡市立こども病院 整形外科科長
	徳山 剛	岐阜県立希望が丘こども医療福祉センター 所長
	三澤 晶子	秋田県立医療療育センター 整形外科科長
	横井 広道	国立病院機構四国こどもとおとなの医療センター 小児整形外科医長
	渡邊 英明	自治医科大学とちぎ子ども医療センター 小児整形外科准教授
アドバイザー	高山真一郎	国立成育医療研究センター臓器・運動器病態外科部 統括部長

(五十音順)

## 第30回日本小児整形外科学会学術集会のお知らせ

会 期：2019年11月21日(木)～23日(土)

会 場：大阪市中央公会堂

〒530-0005 大阪市北区中之島1-1-27

会 長：川端 秀彦(南大阪リハビリテーション病院)

テーマ：小児整形外科医のアイデンティティ

ホームページ：<http://jpoa2019.umin.jp/>

事 務 局：吉田 清志(大阪大学大学院 医学系研究科 器官制御外科学(整形外科))

演題募集期間：2019年5月8日(水)～7月5日(金)

運 営 事 務 局：第30回日本小児整形外科学会学術集会運営事務局

株式会社アカデミック・ブレインズ内

〒540-0033 大阪市中央区石町1-1-1 天満橋千代田ビル2号館10階

TEL：06-6949-8137 FAX：06-6949-8138

E-mail：jpoa2019@academicbrains.jp

併 催：第31回日本整形外科学会骨系統疾患研究会

会長 薩摩 眞一(兵庫県立こども病院整形外科)

## “KPOS(韓国小児整形外科学会)―TPOS(台湾小児整形外科学会) ―JPOA(日本小児整形外科学会)Exchange Fellowship”

【条件】学術集会のポスター部門で、最優秀英文ポスター賞1名に贈られる。最優秀者は、学会から相手先の学会招聘に際して5万円が支給される。

### 第29回学術集会

#### 【最優秀賞】

3次元歩行解析に基づく Gait Profile Score を用いた二分脊椎症患児の歩容評価

Gait Profile Score based on 3-dimensional gait analysis evaluates the walking ability of spina bifida

北海道立子ども総合医療・療育センター 整形外科

房川 祐頼

Dept. of Orthop. Surg., Hokkaido Medical Center for Child Health and Rehabilitation Hiroyori Fusagawa

### Iwamoto-Fujii Ambassador 募集案内

平成24年(2012年)に福岡市で開催された第23回日本小児整形外科学会会長 岩本幸英先生(九州大学名誉教授)より基金として190万円の寄贈を受け、本学会の国際化に多大な貢献をされた藤井敏男先生と連名で新設されたfellowshipです。このfellowshipは日本小児整形外科学会の国際化および国際貢献を目的とし、fellowは学会を代表して我が国の小児整形外科を諸外国に広め、諸外国から知見を吸収して、国際交流・相互理解を深める役割を担います。

応募締切：2019年10月31日 必着

なお、応募はホームページからお願いします。

## 広報委員会からのお知らせ

### WEB登録のおすすめ

学会ではホームページの有効利用のため、会員の皆様にWEB登録をお願いいたしております。現在正会員、準会員、名誉会員、功労会員1205名のうち、770名が登録されています。

WEBに登録されますと、

- ・会員名簿、学会誌バックナンバー、理事長ブリーフィング、日本小児股関節研究会リーメンビュゲル治療に関するワーキンググループによるリーメンビュゲル治療マニュアルの閲覧等
- ・会員名簿変更申請

などが可能になります。

会員名簿の閲覧による各地区の会員への紹介が容易になり、学会誌の閲覧によりの確な情報を得ることが可能です。

登録方法は一般社団法人日本小児整形外科学会のホームページを開き、会員ページをクリックしていただければWEB登録の方法が掲載されております。

必要なものは郵送封筒の宛名ラベルに記載されている6ケタの会員番号と携帯電話以外のメールアドレスのみです。

皆様のWEB登録を心よりお待ちしております。

### 勤務医療機関掲載のおすすめ

また、一般社団法人日本小児整形外科学会では、会員が常勤で勤務している医療機関を学会ホームページの、一般の方々が閲覧できるページに掲載しております。

ご希望の方は学会ホームページ上の“お申込み”ボタンから手続きが可能です。会員番号はこの学会誌の郵送封筒の宛名ラベルに記載されている6ケタの会員番号です。

委員長 藤原憲太

## 広告掲載会社一覧(順不同)

メドトロニックソファモアダネック株式会社	株式会社八神製作所
日本特殊陶業株式会社	有限会社野坂義肢製作所
BioMarin Pharmaceutical Japan株式会社	久光製薬株式会社
株式会社エム・イー・システム	日本イーライリリー株式会社
株式会社近畿義肢製作所	シオノギ製薬株式会社
グラクソ・スミスクライン株式会社	メダクタジャパン株式会社
宮野医療器株式会社	株式会社洛北義肢
株式会社西日本義肢製作所	アステラス製薬株式会社
武田薬品工業株式会社	株式会社有菌製作所
アレクシオンファーマ合同会社	日本臓器製薬株式会社
ジンマー・バイオメット合同会社	帝人ナカシマメディカル株式会社
株式会社大仁商店	三笠製薬株式会社
ジョンソン・エンド・ジョンソン	日本メディカルネクスト株式会社
株式会社松本義肢製作所	東名ブレース株式会社
有限会社長野製作所	エーザイ株式会社
株式会社ムトウ	持田製薬株式会社
帝人ファーマ株式会社	公益財団法人鉄道弘済会
株式会社サージカル・スパイン	メイラ株式会社
第一三共株式会社	有限会社中部義肢
科研製薬株式会社	有限会社渡辺義肢製作所
株式会社アンカーメディック	京セラ株式会社
株式会社東機質	

日本小児整形外科学会雑誌第27巻の制作にあたりましては、上記の皆さまより多大なご支援を賜りました。ここに謹んで御礼申し上げます

一般社団法人  
日本小児整形外科学会  
理事長 大谷卓也





## 「運動器の10年」世界運動

一般社団法人 日本小児整形外科学会ホームページでは、会員専用ページを設けております。  
「registered 会員」だけがご利用いただけますので、ご希望の方はお申込み下さい。

(\* 「registered 会員」の申込み <http://www.jpoa.org/>からアクセスできます)

会員専用ページでは、オンラインで下記がご利用できます。

\* 会員名簿(勤務先のみ)の閲覧

\* 会員情報変更(勤務先・自宅の住所変更)---開設しておりますのでご利用ください。

(補足)：ホームページの会員名簿について

ホームページ掲載を登録(registered)された方のみ掲載しています。

また、閲覧可能な会員は登録(registered)された方のみです。

会員名簿には、勤務先に関する情報のみ(勤務先名・勤務先住所・勤務先 TEL 番号・勤務先 FAX 番号)を掲載しています。

**購読申し込み** 日本小児整形外科学会雑誌(年3回刊)は一般社団法人 日本小児整形外科学会機関誌ですが、会員外の方にもお頒けいたします。希望の号数と誌代・送料を添えて、学会事務局宛お申し込みください。

**入会申し込み** 新規入会を希望される方は、住所(確実な連絡先)、氏名、所属を明記の上、学会事務局までお申し込みください(封筒に「新入会申込」と表書してください)。

### 日本小児整形外科学会雑誌

第27巻第2号

2018年12月25日 発行©

**定価 4,500 円** (本体価格 4,167 円 税 333 円)

編集・発行者 一般社団法人

日本小児整形外科学会

理事長 大谷卓也

〒113-0033 東京都文京区本郷2-40-8 THビル2階

電話 (03)5803-7071

FAX (03)5803-7072

E-mail : [jpoa@jpoa.org](mailto:jpoa@jpoa.org)

URL : <http://www.jpoa.org/>

印刷・製本 三美印刷株式会社

〒116-0013 東京都荒川区西日暮里5-9-8

電話(03)5604-7031 FAX (03)5604-7038

Printed in Japan