

骨形成不全症による大腿骨変形に対して行った Telescopic Rod 挿入術の合併症の検討

心身障害児総合医療療育センター 整形外科

喜多岡 亮 太・伊 藤 順 一・森 田 裕 之
山 本 和 華・田 中 弘 志・小 崎 慶 介

要 旨 【序文】骨形成不全症の臨床上的問題の一つに度重なる骨折による四肢の変形がある。当センターでは、大腿骨骨折後の変形に対し骨切りおよび髄内 Telescopic Rod 挿入術を行っている。今回はその術後合併症の頻度、内訳について検討した。【対象】7年間に大腿骨髄内 Telescopic Rod 挿入術を行った20例30肢を対象とした。術前後の診療記録、X線画像を参照しrodの転位や変形、合併症の有無について評価した。【結果】合併症は30肢中10肢(33%)に見られ、rodのpull out, migration、大腿骨とrodが彎曲変形し入れ直した症例が3肢、偽関節化した症例が1肢、感染に対してデブリドマンを行った症例が1肢であった。【考察】OIでも活動度の違いにより成長速度が異なり、術後の合併症の頻度に差があることが示唆された。【結語】起こり得る合併症を予測して、手術の適応やタイミングを決定する必要がある。

序 文

骨形成不全症(Osteogenesis Imperfecta: 以下、OI)の臨床上的問題の一つに度重なる骨折による四肢の変形がある。骨折を繰り返すことで四肢の変形が増悪し、それにより疼痛、機能障害、外見上のコンプレックスなどさまざまな問題が出現する。四肢の変形が進行してしまうと矯正する手段は手術以外にないが、その中でもOIに対する髄内 Telescopic Rod 挿入術は広く行われている手術である。当センターでは、大腿骨骨折後の彎曲変形に対して矯正骨切りもしくは分節骨切りと髄内 Telescopic Rod (AESCULAP®) 挿入術を行っている。これは、変形した大腿骨を骨切りし、アラインメントを整えた上で大腿骨近位より外筒、遠位より内筒を挿入し骨髓腔内で接合するもので、大腿骨の成長に伴いrodがtelescopeし伸長

するという特徴を持つ。一方、諸家のこれまでの報告によると合併症が高頻度に見られ、再手術が必要になることも多い¹⁾。今回は当センターにおける本術式の術後合併症の頻度、内訳について検討した。

目 的

OIの患児の大腿骨変形に対する髄内 Telescopic Rod 挿入術の合併症を減らすため、その内訳、頻度を検討し分析すること。

対象・方法

2012年から2019年までに当センターでOIの大腿骨変形に対して矯正または分節骨切り、髄内 Telescopic Rod 挿入術を行った20例30肢を対象とした。20例30肢の内訳は、男児が14例21肢、女児が6例9肢であった。手術時の平均年齢

Key words : osteogenesis imperfecta(骨形成不全症), curved femur(大腿骨変形), telescopic rod(telescopic rod)

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 喜多岡亮太
電話(03)3974-2146

受付日 : 2020年1月31日

は5.8歳(2~13歳), 平均体重は13.2 kg(10~24 kg)であった。Sillence分類ではtype Iが2例, IIIが8例, IVが6例, 不明が4例であった。術後平均フォロー期間は4.2年(0.5~7年)で, 術前後の診療記録, X線画像で術後の合併症の有無を評価した。

結 果

合併症は30肢中10肢(33%)に見られた。10肢の内容は, rodのpull outが2肢, migrationが3肢, 大腿骨とrodが共に弯曲変形し入れ直しを要した症例が3肢, 偽関節化し内固定を追加した症例が1肢, 感染に対してデブリドマンを行った症例が1肢であった。

症例呈示

上記の合併症のうち感染以外の四つについて症例を供覧する。

① rodのpull out

Sillence type IVで独歩可能な6歳・男児。右大腿骨の著明な変形に対して矯正骨切り術, 髄内Telescopic Rod挿入術を行った(図1)。術後1年で外筒の近位へのpull outが起り(図2), 体動時の痛みが増強したため再手術によりrodの近位を骨髓内へ押し込んだ。

② rodのmigration

Sillence type IIIで独歩不可能な5歳・男児。左大腿骨骨幹部骨折に対して整復, Telescopic Rod挿入術を行った(図3)。大腿骨の成長に伴いrodがtelescopeしていたが途中で止まってしまい, 遠位が引き上げられて骨髓内に迷入した(図4)。迷入した後も自覚症状はないため経過観察としている。

③大腿骨, rodの弯曲変形

Sillence type Iで独歩可能な7歳・男児。左大腿骨の著明な変形に対して矯正骨切り, Telescopic Rod挿入術を行った(図5)。初回手術時は径3 mm, 長さ130 mmのrodを使用した。術後4年で大腿骨, rod共に骨切り部で外側凸の弯曲変形が進行し, 同部位の痛みが強くなったため再



図1. 初回手術直後



図2. 初回手術後1年



図3. 初回手術直後



図4. 初回手術後4年



図5. 初回手術直後



図6. 初回手術後4年

手術を行った(図6). 上記インプラントを抜去し, 再度矯正骨切りを行い径5 mm, 長さ200 mmのrodを挿入した(図7).

④偽関節

Sillence type IV, 独歩可能でさまざまなスポーツもしている6歳・男児. 右大腿骨骨折に対して整復, Telescopic Rod 挿入術を行った(図8). 術後2年で骨切り部の癒合が得られず(図9), 痛みが続いたため同部位にプレート, スクリューによる内固定の補強手術を行った. 術後1年で骨癒合は完成し痛みは消失した(図10).

考 察

上記の①から④について個別に考察し, その上で全体の考察を加える.

① rod の pull out

これまで諸家の報告でも rod の pull out が最多の合併症とされている¹⁾⁶⁾. rod の pull out は, 殿筋群の張力により抜ける力がかかるとされ, そのため独歩可能な症例の方が独歩不能の症例と比較して抜けてきやすいと考えられている. 当センターでは, この合併症を経験してから, 外筒のT piece と殿筋群の停止部(大転子)を吸収糸で縫着することで予防を図っている. この縫着を開始してからは1例も見られていないため, 手術手技の工夫である程度頻度を減らすことのできる合併症であると考ええる.

② rod の migration

rod が telescope しなくなることが migration の原因となるが, telescope しなくなる原因として大腿骨の弯曲が大きくなること, または rod が閉塞してしまうことがある⁴⁾. 考えられる対応策としては初回手術時に, 大腿骨の弯曲が強い症例に対しては1箇所の矯正骨切りで無理に rod を接合しようとせず, 分節骨切りとしてなるべく rod をスムーズに接合することが挙げられる. また, 細い rod を選択してしまうと次に示すような遷延癒合により大腿骨の弯曲が進行し telescope が止まってしまうこともあるため, 適切な太さの rod を選択することも重要である. しかし, その



図7. 再手術直後



図8. 初回手術直後



図9. 初回手術後2年

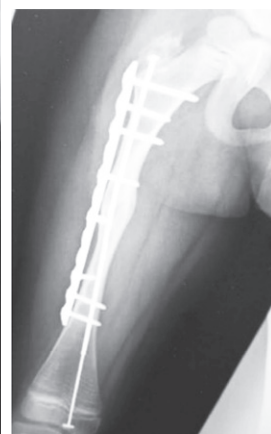


図10. 再手術後1年

ような点に注意していても経過観察の途中で rod が自然に閉塞し migration を来すこともあるため, 手技の工夫のみでは完全には防ぎきれない合併症であると考ええる.

③大腿骨, rod の弯曲変形

当センターの結果では, 術後の大腿骨の弯曲変形は Sillence 分類 I または IV で独歩可能な症例に大きくなる傾向が見られた. OI でも独歩可能な症例は, 独歩不能の症例と比較して大腿骨の横径の成長がはるかに速いとの報告もあり³⁾, 大腿骨の横径と rod 径の gap が大きくなると固定力が低下し弯曲変形が進行する一因になると示唆された. また, 当センターで入れ直しを要した症例は, 全例が rod の telescope が進行して内筒の先端

(遠位の部品の近位端)が骨切り部を超えてしまい、彎曲変形が進行していた。内外筒の overlap lesion が少なくなると徐々に強度が低下し、内筒の先端が骨切り部を超えてしまうと急激に rod の強度が低下し変形が進行すると考えられた。これをなるべく減らすための対策としては、初回手術時になるべく長い rod を選択することが挙げられる。また、術後経過観察中に、特に独歩可能な症例で大腿骨の成長速度が速い症例については、なるべく彎曲変形が進行する前に入れ直しを検討することが重要である。彎曲が強くなってしまうとインプラントの抜去が困難となり、再度骨切りを行わなければならないため手術時間、出血量と増加し患児の負担が増えてしまうためである。

④偽関節

特に活動度の高い症例では、rod のみでは固定力不足となり偽関節または遷延癒合となる症例が報告されている²⁾。そのような症例に対しては上記のようなプレートによる固定の補強が有効であり、本症例のような患児に対しては初回手術時に rod 挿入術だけでなくプレート固定術を併用することを推奨する報告もある²⁾。現在当センターでは、初回手術後1年を目途に骨癒合の評価を行い、癒合遅延や偽関節となる可能性の高い症例についてはプレート固定による補強手術を検討している。

OI の患児の手術は、OI の持つさまざまな特徴により難しい場合が多い。一般的には、体力的に余力が乏しい低体重であることに加え易骨折性、易出血性、心疾患の合併等も多く長時間の手術や多数回の手術は避けたいのが現状である。その中で Telescopic Rod 挿入術の利点は、長管骨の変形を矯正し機能障害を軽減できること、骨折時の痛みや変形を軽減できること、rigid な髄内釘と比較して rod の telescope 機能により再手術の回数を減らすことがある⁵⁾⁷⁾。逆に欠点は、固定力不足となり得ることや大腿骨の横径成長には対応できないことから偽関節や遷延癒合を来し彎曲変形を来し得ること、膝関節内の展開が必要であり感

染のリスクがあることなどが挙げられる。最終的に二次的な手術が必要になる患児は 90% に及ぶとする報告もある¹⁾²⁾⁵⁾。当センターの今回の結果は、これまでの諸家の報告と比較すると内訳としては同じような結果であったが、合併症の見られた症例が 33% と頻度は低い結果となった。今回報告したのはフォロー期間平均 4 年の中期成績であるため、さらに長期的にフォローすると頻度が上昇する可能性はある。しかし、今回報告した rod の転位や遷延癒合については、手術手技の工夫により減らし得る合併症であると考ええる。また、遷延癒合についても術後の経過観察を慎重に行い必要な場合は早めに再手術を行うことで、二次的な手術が必要になっても手術時間を短縮したり、出血量を減らしたりと患児の負担を減らすことができるのではないかと考えた。

結 論

当センターでの OI の大腿骨変形に対する Telescopic Rod 挿入術の合併症の内容、頻度について検討した。合併症の頻度は諸家の報告と比較すると低い結果となった。患児の負担を減らすために、OI の患児一人一人の活動度や四肢骨の成長速度を予測しながら手術の適応、適切なタイミングを見極める必要がある。

文献

- 1) El-Adl G, Khalil MA, Enan A et al : Telescoping versus non-telescoping rods in the treatment of osteogenesis imperfecta. Acta Orthop Belg **75** : 200-208, 2009.
- 2) Franzone JM, Kruse RW : Intramedullary nailing with supplemental plate and screw fixation of long bones of patients with osteogenesis imperfecta : operative technique and preliminary results. J Pediatr Orthop B **27** (4) : 344-349, 2018.
- 3) 本間政文 : 骨形成不全症における下肢骨横径成長と歩行能力. 厚生省子ども家庭総合研究事業平成 11 年度研究報告書 : 199-202, 1999.
- 4) Lang-Stevenson AI, Sharrard WJ : Intramedullary rodding with Bailey-Dubow extensible rods in osteogenesis imperfecta. An interim report of

- results and complications. J Bone Joint Surg Br **66**(2) : 227-232, 1984.
- 5) 中村雅洋, 肥後 勝, 宮内裕史ほか: 骨形成不全症に対する Bailey-Dubow Rods の使用経験. 整形災害外科雑誌 **45** : 272-275, 1996.
- 6) Rosenberg D L, Goiano E O, Akkari M et al : Effects of a telescopic intramedullary rod for treating patients with osteogenesis imperfecta of the femur. J Child Orthop **12** : 97-103, 2018.
- 7) 高嶋明彦, 藤井敏男, 井上敏生ほか: 小児の易骨折性疾患に対する Telescoping Nail 法による治療経験, 整形災害外科雑誌 **41** : 16-20, 1992.