

鑑別に難渋した二分脊椎児の脛骨遠位成長軟骨板(骨端線)損傷の一例

新潟大学大学院医歯学総合研究科 機能再建医学講座 整形外科学分野

相 場 秀太郎・村 上 玲 子・遠 藤 直 人

要 旨 明らかな誘因なく下肢の成長軟骨板損傷を生じ、骨腫瘍や骨髄炎との鑑別に難渋した二分脊椎の一例を報告する。症例は2歳・女兒で右足関節腫脹と熱感が生じ、画像検査で右脛骨遠位骨幹端の骨破壊像と周囲の炎症像を認めたため造影MRIおよび生検を施行したが、これらを疑う所見は認めず成長軟骨板損傷と診断し免荷を開始した。その後は良好に経過し免荷後8か月で骨修復を確認した。二分脊椎に合併する成長軟骨板損傷は知覚障害を背景とする小外傷の蓄積などが原因とされているが、知覚脱失部以遠の受傷では自覚症状に乏しく、周囲もすぐに気づかないことが多い。健常児の成長軟骨板損傷とは身体所見や画像所見が異なるため、しばしば感染や腫瘍などと誤診され治療開始が遅延する。この病態による成長軟骨板損傷が念頭にあれば生検などの侵襲的検査を避けることができ、確定診断前でも早期から免荷・安静を開始して骨破壊を最小限にとどめ早期治癒が可能となり得る。

序 文

二分脊椎児において、明らかな誘因なく下肢の成長軟骨板損傷を生じたという報告が散見されるが、国内・海外を問わず2000年以降の報告は極めて少ない。今回、我々は同疾患児に脛骨遠位成長軟骨板損傷が生じ、骨腫瘍や骨髄炎との鑑別に難渋し確定診断に時間を要した一例を経験したので、文献的考察を加えて報告する。

症 例

症例は女兒で、生下時に開放性脊髄膜瘤に対し脳神経外科で修復術を施行された。また、両内反足と右膝関節脱臼を認め、前者に対してはPonseti法によるギプス固定と両アキレス腱切離術を施行、後者は内反足に対するギプス矯正中に整復された。両股関節脱臼も合併していたが、現在まで未治療である。精神発達遅滞は認めず、両下肢麻痺(L3髄節残存、Sharrard分類3群)を伴

うものの、短下肢装具(Ankle-Foot Orthosis: 以下、AFO)にてつかまり歩きが可能だった。

2歳6か月時、内反足の再発に対して徒手矯正後に2回目の両アキレス腱切離術を施行した。術後3週でギプス固定を終了し、日中はAFOを装着し荷重開始した。術後4週、足関節背側に発赤および腫脹を認めたが、活動時に疼痛や熱感は認めず、単純X線(図1)を撮影して不顕性骨折が疑



図1. 右下腿単純X線像 アキレス腱切離術後4週

Key words : spina bifida(二分脊椎), myelomeningocele(脊髄膜瘤), physeal injuries(成長軟骨板損傷)

連絡先 : 〒 951-8510 新潟県新潟市中央区旭町通一番町 757 新潟大学 整形外科 相場秀太郎 電話(025)227-2272

受付日 : 2019年10月13日



図2. 右下腿単純X線像 アキレス腱切腱術後3か月(発症後8週)

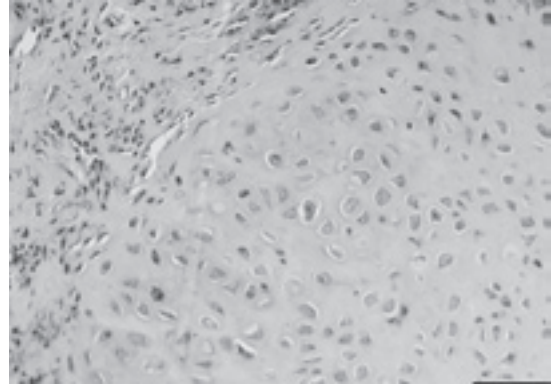


図4. 病理組織像
幼弱な軟骨組織で、炎症細胞浸潤に乏しい。感染や腫瘍性病変は認めない。

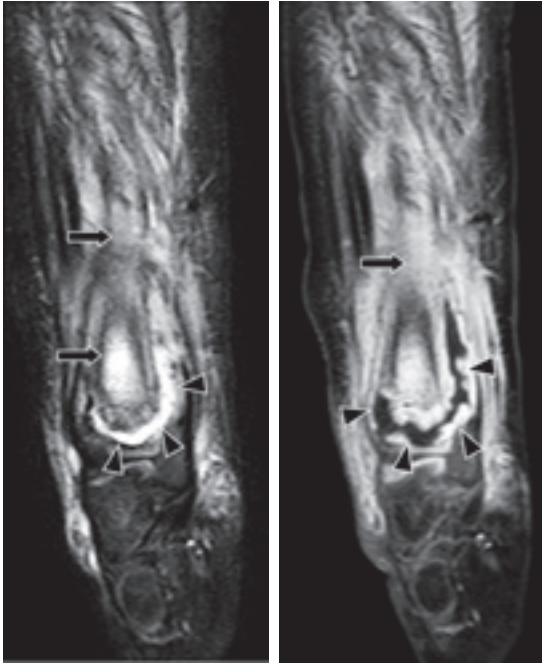


図3. 右下腿MRI像 当科受診時 a|b

a: 単純MRI T2強調脂肪抑制

b: 造影MRI T1強調脂肪抑制

脛骨遠位骨幹端～骨端に骨破壊像を認め造影効果を伴っている(矢尻). 骨幹端髄内にもT2強調高信号を認め周囲の軟部組織にも波及している(矢印).

われ経過観察となった。その後も活動制限を行わず、AFO装着下にて患肢荷重が続いていた。術後3か月(発症後8週)、他県のリハビリ施設に短期入所した際に右下腿腫脹が遷延しているとの訴



図5. 右下腿単純X線像 生検施行時(発症後4か月) 骨破壊が進行(以降、患肢非荷重を開始)。

えがあり単純X線を撮影(図2)、同部位の骨破壊像を認め骨腫瘍が疑われたため2歳10か月で当科紹介となった。

当科受診時(発症後10週)、右下腿近位から足関節にかけて軽度腫脹を認めたが、疼痛の訴えはなく、WBC 11430/ μ L、好中球 43.0%、CRP 0.04 mg/dLと炎症反応は低値だった。単純X線像では脛骨遠位骨幹端から骨端にかけて骨破壊像を、また、脛骨遠位外側に骨膜反応を認めた。造影MRIでは、これらの所見に加えて同部位に造影



図 6. 右下腿単純 X 線像 免荷後 1 か月(発症後 5 か月) 過剰な化骨形成を認める.

効果を伴う T2 高信号を認めた. また, 骨幹端の骨髓内にも T2 高信号を認め, 周囲の筋軟部組織にも炎症の波及が疑われた(図 3-a,b). 細胞針生検では悪性所見や膿瘍の流出を認めなかったが, 検査結果からは骨腫瘍や化膿性骨髓炎が否定できなかったため開放生検の方針となった. しかし, 開放生検の病理診断でも悪性細胞や炎症性細胞浸潤を認めず(図 4), 同部位の培養検査も陰性であったことから, 骨腫瘍や骨髓炎ではなく成長軟骨板損傷と診断した. 生検直後(発症後 4 か月)より, 患部への負荷を避けるため本病歴中で初めて患肢免荷を開始(図 5), 免荷後 1 か月(発症後 5 か月)の単純 X 線像で仮骨を認め(図 6), 免荷後 2 か月(発症後 6 か月)より全荷重を許可した. 免荷後 4 か月(発症後 8 か月)で右下腿の熱感が消失, 免荷後 8 か月(発症後 1 年)の時点で単純 X 線像で骨修復を確認した(図 7).

考 察

二分脊椎児に合併した成長軟骨板損傷は 1938 年に Gillies らが初めて報告しており⁴⁾, 国内でも



図 7. 右下腿単純 X 線像 免荷後 8 か月(発症後 1 年) 骨癒合が完了した.

1980 年代を中心に報告が散見される. しかし, 2000 年以降は国内外ともに症例報告が非常に少なく, 渉猟し得た範囲では国内 3 報告, 海外 2 報告を数えるのみである¹⁾⁵⁾⁹⁾¹⁰⁾¹¹⁾.

二分脊椎に合併した成長軟骨板損傷の特徴の一つとして, 疼痛の訴えが少ないため周囲に気付かれにくいことが挙げられる. 健常児では外傷などの受傷エピソードが明確な場合が大半であり, 虐待などの特殊なケースを除いて通常は受傷後速やかに医療機関を受診または救急搬送されることが多い. しかし, 二分脊椎児では知覚脱失部以遠では疼痛が生じないため, マイナートラブルによる軽度の損傷の場合は他覚所見が少なく周囲もすぐには気づかないことが多い. 本症例でも, AFO を装着して荷重していたものの転倒などの外傷のエピソードはなかった. 1960 年以降で渉猟し得た範囲では二分脊椎児の成長軟骨板損傷の国内報告が計 11 報告 18 症例あるが, 明らかな外傷のエピソードが確認された例はなく, 腫脹や熱感などの他覚的所見で気づかれるか, 定期受診時に偶然

発見された例が大半であった。すなわち、見逃されたまま自然治癒した症例や、腫脹や熱感などの所見から感染などと誤診された症例も多く存在すると推測される。

二分脊椎児で下肢の成長軟骨板損傷が生じやすい理由は、知覚障害により疼痛を自覚することが少ないため成長軟骨板へのストレスに対する自覚的な防御機構が働かず、成長軟骨板周囲の微小な損傷と治癒を繰り返すためであり³⁾、さらに慢性的なストレスにより成長軟骨板に微細な動きが生じることで成長軟骨板の石灰化層や肥大層の組織構造の異常をもたらす正常な成長軟骨板の再生が阻害されると考えられる⁷⁾。同損傷における単純X線像の所見は損傷した成長軟骨板の周囲で骨破壊・骨吸収像を示す場合と過剰仮骨の生成を示す場合があり、症例によって大きく異なっている。骨破壊・骨吸収は、成長軟骨板周囲の epiphyseal artery の損傷や血流低下により、成長軟骨板やその周囲の骨が壊死することで生じると考えられる³⁾。一方、過剰仮骨の形成は、成長軟骨板やその周囲が傷害された際に成長軟骨板周囲の骨膜化出血と成長軟骨板への血液の流入が起き、局所が二次的な多血となることで生じると考えられる⁶⁾。前述のとおり、同損傷では受傷時期と医療機関を受診した時期にずれがある可能性が高く、受傷後の免荷状況もばらつきがあるため、単純X線の所見が症例ごとに異なってくると考えられる。さらに本人の自覚症状がないまま微小な損傷と治癒が繰り返されることで、上記の変化が組み合わせられて多様な単純X線像の所見を呈すると考えられる。本症例でも、荷重制限開始前の単純X線像では成長軟骨板損傷に伴う周囲の骨吸収が進行していたが、同時に骨膜反応様の所見も認めており、その以前より微小な損傷とそれに対する仮骨形成があったと推測される。

同損傷のリスクファクターとして、Drummondらはギプス固定期間終了後に起こりやすいと報告した²⁾。前述した本病態に関する国内の報告18症例のうち少なくとも5症例で、発症前に同側下肢のギプス固定を含む治療歴があった。本症例も

アキレス腱切離術後に3週間のギプス固定を行い、固定終了後AFOを装着し活発に動き始めた時期での発症だった。治療による免荷や安静のために骨密度や筋量の低下、関節の拘縮などが生じている状況下で急激に活動量が増加することにより、成長軟骨板へのストレスが増大して生じたと考えられる。

また、付岡らは9~12歳ごろの時期に同損傷を発症するリスクが高まると報告しており、その理由として10歳前後に成長軟骨板の弾性特性が失われ始めるためと述べている¹¹⁾。前述した本病態に関する国内報告でも症例の大半が9~12歳での発症だった。一方、海外報告では2~7歳での発症も数多く報告されており、この発症年齢の差について議論されている論文は確認できなかった。本症例は2歳という低年齢での発症であったが、再発した内反足に対する治療直後の発症であり、ギプス除去後ただちに全荷重歩行を開始して活動性が上がったことが発症の一因になったと考えられる。二分脊椎児の場合は下肢の知覚障害があるため、活動性が高い児や前述のギプス固定終了後のように下肢に負荷がかかりやすい状況では、健常児と比べて成長軟骨板損傷の危険因子が多いと推察される。

本症例では発症から免荷を開始するまでに4か月が経過しており、免荷開始から治療完了までは8か月を要した。本病態に関する報告のうち非免荷期間と治癒までの時間が明記されているものは非常に少ないが、Sternらは11歳の二分脊椎児の脛骨遠位成長軟骨板損傷について発症後2週で免荷を開始し、その後6週間で治癒したと報告した⁸⁾。一方、Chauhanらは12歳の二分脊椎児の脛骨遠位成長軟骨板損傷について、発症から免荷開始まで3か月経過しており、免荷開始後10か月で治癒したと報告した¹⁾。これらの症例は二分脊椎の重症度や年齢、治療方法などの条件が異なっているため厳密な比較は困難だが、治療開始前の非荷重期間が長期であるほど治療に難渋する可能性が高まると推測される。また、本症例では鑑別のために開放生検を行っているが、治療経過中のX

線では生検部位の骨破壊の進行や骨癒合遅延を疑う所見は認めなかった。本病態関連の論文で生検を行ったものは3篇確認できたが、生検と骨癒合遅延との関連性に言及している報告はなくこの点に関しては今後の検討課題である。

本症例では通常の成長軟骨板損傷とは身体所見や画像所見が異なっており、確定診断にMRIと生検を必要としたため診断に時間を要し、その間にも患肢が荷重されていたことで骨破壊が進行する結果となった。本病態に伴う成長軟骨板損傷が念頭にあれば、生検などの侵襲的検査を避け、確定診断前でも早期から免荷・安静を開始して骨破壊を最小限にとどめ早期治癒できた可能性があることから、二分脊椎児の下肢症状に対してこのような成長軟骨板損傷に関する病態を認識することは有用であるといえる。

文献

- 1) Chauhan DK, Dhillon MS, Tripathy SK : Neuro-epiphyseal injury around the ankle: a case report. *Foot* **19** : 133-136, 2009.
- 2) Drummond DS, Moreau M, Cruess RL : Post-operative neuropathic fractures in patients with myelomeningocele. *Dev Med Child Neurol* **23** : 147-150, 1981.
- 3) Edvardsen P : Physeo-epiphyseal injuries of lower extremities in myelomeningocele. *Acta Orthop Scand* **43** : 550-557, 1972.
- 4) Gillies CL, Hartung W : Fracture of the tibia in spina bifida vera. *Radiology* **31** : 621, 1938.
- 5) Khoury JG, Morcuende JA : Dramatic subperiosteal bone formation following physeal injury in patients with myelomeningocele. *Iowa Orthop J* **22** : 94-98, 2002.
- 6) Roberts JA, Bennet GC, Mackenzie JR : Physeal widening in children with myelomeningocele. *J Bone Joint Surg* **71-B** : 30-32, 1989.
- 7) Rodgers WB, Schwend RM, Jaramillo D et al : Chronic physeal fractures in myelodysplasia. *J Pediatr Orthop* **17** : 615-621, 1997.
- 8) Stern MB, Grant SS, Isaacson AS et al : Bilateral Distal Tibial and Fibular Epiphyseal Separation Associated With Spina Bifida. A Case Report. *Clin Orthop Relat Res* **50** : 191-196, 1967.
- 9) 高野満夫, 大類 広, 成田亜矢ほか : 両側に大腿骨遠位骨端線損傷を発生した二分脊椎症の1例. *Jpn J Rehabil Med* **55** : 1-IP-1-3, 2018.
- 10) 富沢仙一, 長谷川惇, 寺内正紀ほか : 過剰化骨を伴い全身反応を呈した二分脊椎症児大腿骨骨端線周囲骨折の1例. *日小外会誌* **13** : 252-253, 2004.
- 11) 付岡 正, 亀ヶ谷真琴, 篠原裕治ほか : 二分脊椎症児における膝関節骨端線周囲骨折. *総合リハ* **30**(2) : 179-182, 2002.