

尿路結石を併発した両側乳児股関節脱臼の1例

清水 淳也¹⁾・藤田 裕樹²⁾・山下 敏彦³⁾

1) 済生会小樽病院 整形外科

2) 北海道立子ども総合医療・療育センター 整形外科

3) 札幌医科大学 整形外科

要旨 症例は6か月の乳児で、肝 ALK 陽性ヒストオサイトーシスに対する化学療法のため小児科病棟に入院していた。両股関節脱臼を認め、牽引中に撮影したCTで左尿路結石を認めた。股関節脱臼の治療を優先し、overhead traction 法による整復術を施行してギプス固定をした。ギプス固定後は両親に抱っこを積極的にしてもらおうよう促した。生後8か月よりクエン酸カリウム・クエン酸ナトリウム水和物の内服を追加し、1歳2か月時に尿路結石は消失した。尿路結石は小児に発生することはまれであるが、長期臥床が誘因となって発生することがあるといわれている。乳児股関節脱臼に対する牽引治療を行う際は、尿路結石の発生に注意すべきであり、特に化学療法など脱水が危惧される治療が行われる場合は念頭におくべきである。

はじめに

乳児股関節脱臼は先天性的要因に加え、不良肢位などの後天的要因も関連して発生する。また、尿路結石は小児に発生することはまれであるが、長期臥床が誘因となって発生することがある⁵⁾⁹⁾。

今回われわれは、肝腫瘍に対する化学療法によって長期臥床した乳児に発生した両側股関節脱臼例を経験し、overhead traction 法(以下、OHT法)による牽引治療中に尿路結石を認めたまれな1例を経験したので報告する。

症例

この症例報告は、ご家族の同意を得て、その旨を診療記録上に記載して行った。

症例は6か月女児で、主訴は両股関節開排制限

であった。出生直後より腹部腫瘍の精査のため、北海道立子ども総合医療・療育センター新生児集中治療室および小児科病棟に入院となっていた。腹部腫瘍は肝 ALK 陽性ヒストオサイトーシスの診断で生後2週より小児血液腫瘍内科において化学療法を生後5か月まで施行された。生後5か月時に両股関節の開排制限に小児科医が気づいたため、生後6か月時に当科紹介受診となった。出生後より入院していたため、自治体による股関節の診察を含めた3~4か月検診は行われていなかった。

当科初診時、両股関節ともに開排制限が70°で、大腿部の皰は非対称、Allis 徴候は陰性であった。また、Ortolani および Barlow のクリックテストは両側ともに陰性であった。出生時に小児科で撮影された腹部単純X線像を後方視的に確認すると、右大腿骨頭の外方化を認めた(図1)。また、

Key words : bilateral hip dislocation(両股関節脱臼), urinary calculi(尿路結石), chemotherapy(化学療法), prolonged bed rest(長期臥床)

連絡先 : 〒 047-0008 北海道小樽市築港 10 番 1 済生会小樽病院 整形外科 清水淳也 電話(0134)25-4321

受付日 : 2021 年 1 月 9 日



図1. 出生児腹部単純X線像
両大腿骨頭の外方化を認める.

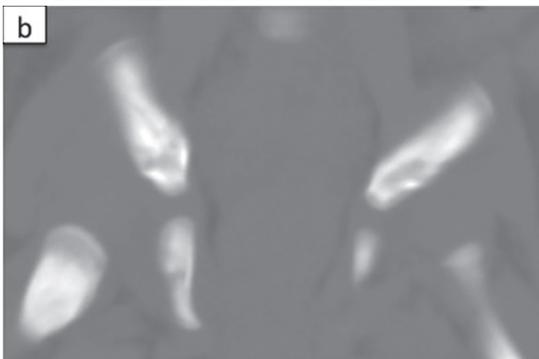
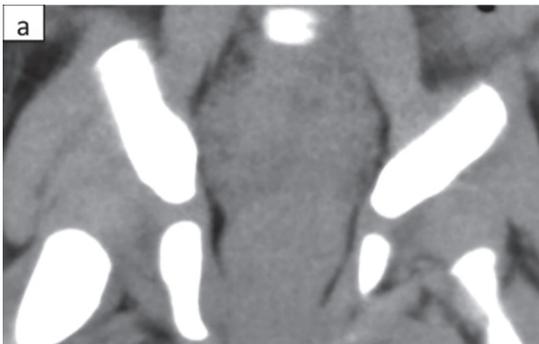


図2. 出生1か月時腹部単純CT
a 軟部条件
b 骨条件
両股関節脱臼を認める.

生後1か月時に撮影された腹部CTを確認すると、両股関節脱臼を認めていた(図2)。当科紹介時の生後6か月時の単純X線股関節正面像では、両股関節の完全脱臼を認めた(図3)。当院では45°以上の開排制限を認める場合または山室a値が5mm以下の場合、装具治療開始前に水平牽引を1~2週間程度行っている。そのため、本症例では水平牽引施行後にリーメンビュージェル(以



図3. 出生5か月時単純X線像(整形外科初診時)
両股関節脱臼を認める.

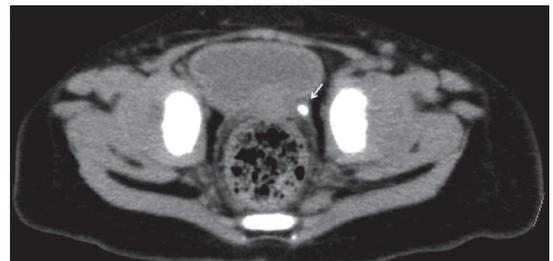


図4. 8か月時腹部単純CT
左尿路結石を認める(矢印).

下, Rb)による装具治療を行う方針とした。水平牽引施行1週後に腹部腫瘍の経過観察目的に撮影した腹部CTで左尿路結石を認めた(図4)。尿は淡黄色で、混濁なし、潜血は(±)、白血球は(2+)であった。泌尿器科と相談し、自然排石を期待して股関節脱臼の治療を優先することとした。2週間の水平牽引を施行後にRbによる装具治療を施行するも左股関節脱臼の整復を得ることができなかったため、生後7か月からOHT法を施行した。OHT法はKanekoら⁴⁾の報告に準じて施行した。8か月時のCTでも尿路結石残存を認めたため、泌尿器科よりクエン酸カリウム・クエン酸ナトリウム水和物の内服が開始となった。OHT法による非観血的整復術後にLorenz位でギプス固定を行い(図5)、ギプス固定後は両親に抱っこを積極的にしてもらうよう促した。退院後はできるだけギプス装着下での座位、水分摂取を勧めた。9か月時の尿中カルシウム/クレアチニン比は0.29(基準値:0.21未満)であった。1歳2か月時



図5. OHT法による牽引治療後非観血的整復時単純X線写真



図6. 最終経過観察時単純X線写真(1歳10か月時)

に尿路結石は消失し、最終経過観察時の1歳10か月時の単純X線では股関節脱臼は認めなかった(図6)。

考 察

肝腫瘍に対する化学療法で入院中に両乳児股関節脱臼を認め、股関節脱臼に対する牽引治療を行っている際に尿路結石を認めた1例を経験した。

乳児股関節脱臼はさまざまな要因で発生する。出生前の因子として骨盤位、遺伝、女児などがあり、出生後の因子として向き癖、抱き方など下肢の自由な運動を妨げる環境が関係していると報告されている。本症例では出生後より肝腫瘍に対する化学療法のため臥床を余儀なくされていた。股関節脱臼の発症時期の特定は困難だが、長期に入院していたことに加え、乳児股関節検診も行われていなかったため、開排制限の有無すら評価を受

けていなかった。生後より長期の入院となっている患者に対しても、脱臼の有無の確認を行うべきであった。

小児尿路結石は全年代の1~2%程度と報告され⁶⁾、特に1歳以下の乳児における尿路結石の発生はまれである。小児に少ない理由は尿中への結石予防物質の排出量が成人より多いためと報告されている⁷⁾。症状は血尿や疼痛のほか尿路感染症による膿尿や発熱で発見されることもある。本症例のように化学療法および水平牽引による不動は、尿流停滞による尿路結石形成のリスクの1つと考えられる。

小児整形外科疾患との合併の報告は少ないが、ペルテス病やDDHと尿管結石の合併例が報告されている⁵⁾。尿路結石は、不動によって骨吸収が増加し、血中および尿中のカルシウム濃度が上昇することが原因の1つと考えられている¹⁾。青木ら²⁾はペルテス病、DDH治療中の尿路結石の発生要因の1つとして脱水を挙げている。また、Catterallら³⁾はペルテス病患者の約4%に尿路奇形を認め、1.8%に尿路結石を合併したことを報告している。一般に化学療法施行中は食思不振に加え嘔気、下痢が生じた場合には脱水が生じることがある。本症例では化学療法による安静に加え、脱水があった可能性があり、尿中カルシウム排泄作用が亢進していた可能性がある。そのため、尿路結石が発生しやすい状況であったと考えられる。過去の報告では、わずか1週間の不動によって尿中カルシウム量が増加することが報告されている⁵⁾¹¹⁾。牽引による1週間の不動後にすでに尿路結石を認めており、牽引後早期に発生した可能性がある。

小児尿路結石は、高カルシウム尿症が誘因となって発生すると考えられる。Pakら⁸⁾の基準によれば尿中カルシウム/クレアチニン比が0.21以上であれば高カルシウム尿症であるとしている。一方、尿中クエン酸量も重要で尿中カルシウム/クエン酸比を0.326未満とすべきとした報告もある¹⁰⁾。治療に臥床を要する整形外科疾患の患児には尿検査によるモニタリングを検討してもよいか

もしれない。本症例では化学療法後の経過観察目的の腹部単純CTで偶然尿路結石を発見したが、乳児の場合は症状の訴えが曖昧であることもあるため、OHT法などの長期臥床を必要とする治療をする場合には機嫌が悪くないかなどを確認すると共に尿検査や腹部単純X線撮影を行う必要があるかもしれない。さらに本症例のような化学療法を施行されている場合や夏季であることなど脱水を誘発される要因がある場合は十分に注意する必要があると考えられる。

成人の尿路結石に対する治療はガイドラインが定着しているが、小児尿路結石は罹患率が低いいため治療に関する報告も少ない。飲水や補液による脱水の改善やクエン酸カリウム・クエン酸ナトリウム水和物の内服による保存治療ならびにそれでも改善しない場合は経尿道的尿路結石破碎術などの手術治療も考慮される。乳児であるため、経尿道的尿路結石破碎術の際には複数回のステント留置を要する。牽引による不動は尿路結石の治療としては望ましくないが、本症例では股関節脱臼の治療を優先し、牽引を継続したうえでクエン酸カリウム・クエン酸ナトリウム水和物の内服による保存治療を行い、ギプス固定後は抱っこを推奨することで結石が消失した。

重度先天性疾患患児や本症例のように、出生直後から長期入院中の患児に対する乳幼児健診の施行は重要な課題である。長期入院中の患児に対しても、乳児股関節脱臼の発生に十分注意し、各自治体の3~4か月検診を受診することができなければ入院中に開排制限がないことを確認したり、エコーによる検査を行うべきである。

まとめ

化学療法後に両股関節脱臼が判明し、水平牽引中に尿路結石を認めたまれな1例を経験した。股関節脱臼に対する牽引治療を行う際は、尿路結石の発生に注意すべきである。

なお、本論文について開示すべきCOIはない。

文献

- 1) Andrew PI, Rosenberg AR : Renal consequences of immobilization in children with fractured femurs. *Acta Paediatr Scand* **79** : 311-315, 1990.
- 2) 青木 清, 赤澤啓史, 三宅由晃ほか : ペルテス病加療中に尿路結石を認めた2例—岡山周辺におけるペルテス病季節性の調査を含めた検討—。 *日小整会誌* **21** : 113-117, 2012.
- 3) Catterall A, Roberts GC, Wynne-Davies R et al : Association of Perthes' disease with congenital anomalies of genitourinary tract and inguinal region. *Lancet* **15** : 996-997, 1971.
- 4) 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.
- 5) Korkeas F, Segal AB, Heilberg IP et al : Immobilization and hypercalciuria. *Pediatr Nephrol* **21** : 1157-1160, 2006.
- 6) 久保星一, 荒川 孝, 宋 成浩 : 尿路結石症の保存療法と手術療法。 *小児科診療* **68** : 1601-1608, 2005.
- 7) Miyake O, Yosihmura K, Yoshioka T et al : High urinary excretion level of citrate and magnesium in children. *Urol Res* **26** : 209-213, 1998.
- 8) Pak CY, Kaplan R, Bone H et al : A simple test for the diagnosis of absorptive, resorptive and renal hypercalciurias. *N Engl J Med* **292** : 498-500, 1975.
- 9) Polinsky MS, Kaiser BA, Baluatre HJ : Urolithiasis in childhood. *Pediatr Clin North Am* **34** : 683-710, 1987.
- 10) Srivastava T, Winston MJ, Auron A et al : Urine calcium/citrate ratio in children with hypercalciuric stones. *Pediatr Res* **66** : 85-90, 2009.
- 11) Zerwekh JE, Ruml LA, Gottschalk F et al : The effects of twelve weeks of bed rest on bone histology, biochemical markers of bone turnover, and calcium homeostasis in eleven normal subjects. *J Bone Miner Res* **13** : 1594-1601, 1998.