
整形・災害外科 第32巻 第1号（1月号）（昭和64年1月1日 発行） 別冊

整・災 外

Orthop Surg Traumatol

特集：先天性偽関節症の病態と治療

Conventional method による先天性下腿偽関節症の治療成績

坂 卷 豊 教

金 原 出 版 株 式 会 社

特集 先天性偽関節症の病態と治療

Conventional method による先天性下腿偽関節症の治療成績

坂 巻 豊 教*

要旨：先天性下腿偽関節症に対して従来種々の方式の骨移植術が行われてきたが、成功率は低いのが実情である。慶大整形外科および関連病院において治療がなされた17例の成績を調査し、本法が実用に供しうる方法であるかどうかを検討した。手術法は髓内釘+骨移植(Charnley)、二重骨移植法(Boyd)、バイパス法(McFarland)、単純遊離骨移植など計47回に及んだ。3歳すぎまで偽関節部の骨吸収・欠損が少なかった場合、本法により骨癒合が得られる可能性がある。しかし患児および家族の身体的、社会的負担を考えると本法に固執することは好ましくなく、年齢、治療歴、偽関節部の状態を考慮して慎重に決定すべきである。

はじめに

先天性下腿偽関節症に対して従来種々の形成の骨移植術が行われており、conventional method としては二重骨移植術(Boyd³⁾、髓内釘+onlay 式骨移植(Charnley⁵⁾、Van Nes¹⁵⁾、バイパス骨移植術(McFarland¹⁰⁾、節状骨切り術(Sofield¹³⁾があげられる。これらの報告によると一つの方法に熟達した術者によって行われながら結果は満足すべきものではなく、手術時期とか不成功に終わった場合の次の手術法の選択などについては明らかにされていない。本症に対する手術法は近年他の有力な方法にとって代わられつつあるが、conventional method の成績をふりかえることによ

り、ある種の条件のもとでは生き残ることができる方法であるかを検討した。

I. 症 例

男児6例、女児11例、計17例で全例とも片側例である。うち7例に café-au-lait 斑がみられ von Recklinghausen 病との関連があると考えられる。

生下時にすでに骨折を認めていたもの2例、骨折により本症と診断された時期が1歳未満のもの10例、1歳代3例、2歳代2例である。

診断確定時より一貫して治療を行ったものは11例、残る6例は他施設で1回から3回の手術を受けた後に受診したものである。

本症の分類には Heyman and Herndon⁷⁾をはじめ、Badgley¹⁾、Rathgeb¹¹⁾、Boyd⁴⁾などが一般的に用いられているが、初診時のX線像を明確に当てはめることが困難であったため図1に示すような分類を用いた。

* Toyonori SAKAMAKI, 慶應義塾大学医学部、整形外科教室

Congenital pseudarthrosis of the tibia treated by conventional methods

Key words: Bone graft, Tibia, Congenital pseudarthrosis

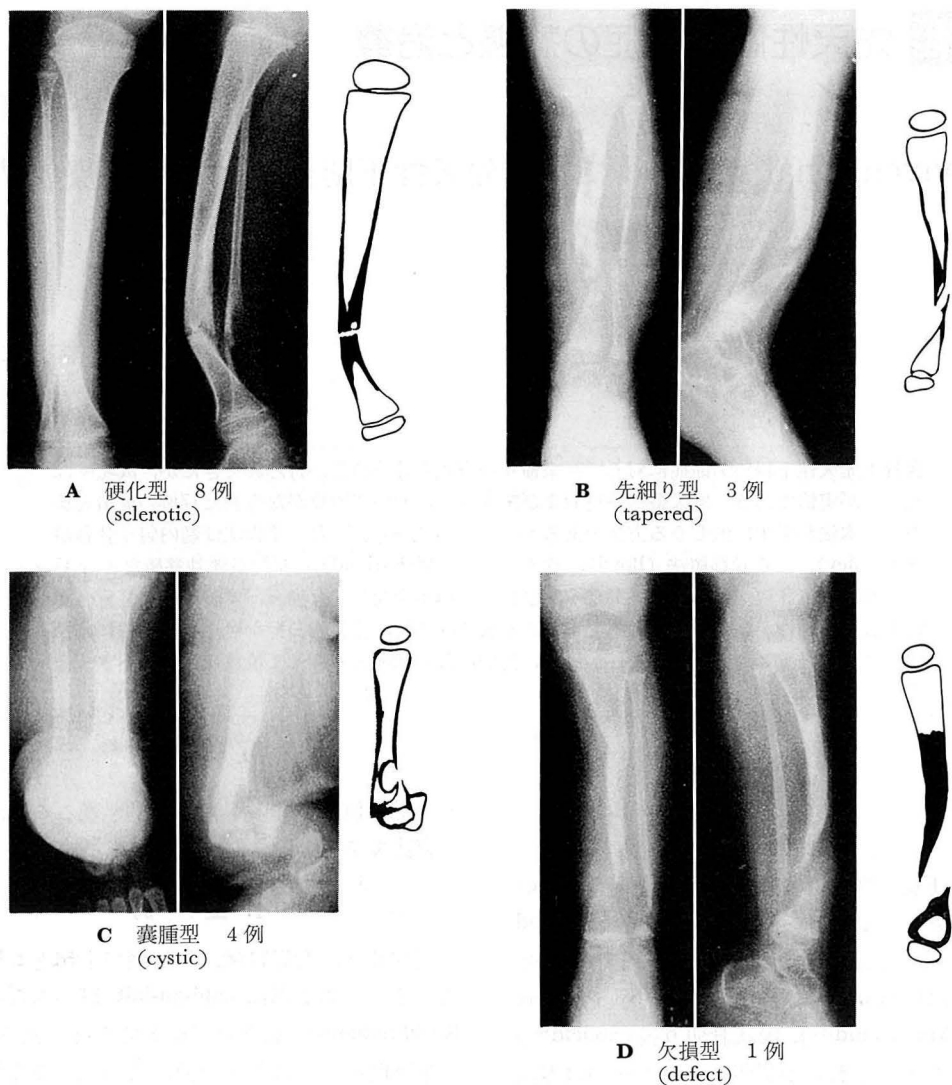


図 1 初診時X線像の分類

II. 結 果

1. 分 類

A (髓腔閉塞型) 8例, B (先細り型) 3例, C (囊腫型) 4例, D (欠損型) 1例, 不明 1例である。

2. 手術内容と手術回数

髓内釘+onlay 式骨移植 (Charnley, Van Nes) 20回, 遊離骨移植術 (一部創外固定も加える) 11回, 二重骨移植法 (Boyd) 10回, バイパス骨移植

術 (McFarland) 3回, プレートによる骨接合術 3回, 計47回である。このうち遊離骨移植術 9回, Charnley 法 1回は他施設で行われたものである。

3. 骨癒合率

癒合に至ったものは5例, 残る12例は失敗に終わっている。失敗例のうち2例は血管柄付骨移植, 1例は電気刺激法によりそれぞれ癒合, 1例には切断術が施行された。結局現在も偽関節のままであるのは7例である。

表 1 癒合群の手術時期

	性	初診時 X線像	初回手術時期	手術回数	最終手術時期	最終手術法	最終手術より骨癒合までの期間
1	男	C	7 カ月	2	2 歳 2 カ月	McFarland	1 年 4 カ月
2	男	A	2 歳 2 カ月	3	8 歳	Boyd	1 年
3	女	D	2 歳 9 カ月	4	13 歳 4 カ月	Charnley	2 年
4	女	A	3 歳 10 カ月	5	5 歳 10 カ月	Boyd	1 年 3 カ月
5	女	A	4 歳 9 カ月	2	8 歳 9 カ月	Charnley	1 年 2 カ月

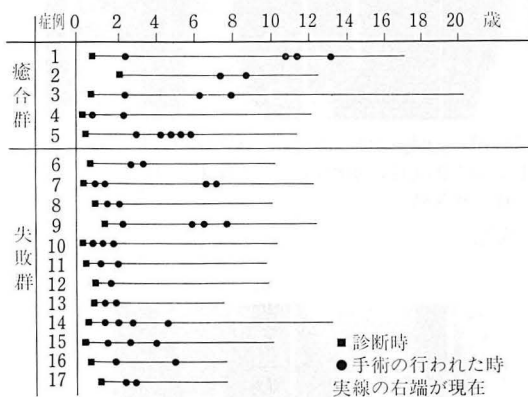


図 2 手術施行状況

のべ手術回数でみると癒合 6 回、失敗 41 回である。癒合例のうち 1 例は Boyd 法でいったん癒合したのち彎曲が進行したため McFarland 法を施行したところ上端が偽関節となり、この部分に再度 Boyd 法を行ったものである。

癒合群の初回手術時年齢は 7 カ月から最高 4 歳 9 カ月であり、手術回数は 2 回 2 例、3～5 回が各 1 例である。最終手術は 2 歳 2 カ月に行われた 1 例以外はいずれも 5 歳以上、最高 13 歳 4 カ月である。最終手術後骨癒合まで最も早いもので 1 年、最も遅いもので 2 年 1 カ月、平均 1 年 4 カ月を要した。

4. 手術施行状況

全例の手術施行状況をみると大きな違いは癒合群の手術施行時期が遅いのに対し、失敗群は年少期に頻回に行われている点である。初回手術時年齢のみに限ってみても 2 歳を境にそれ以前に手術が行われていたかが大きな違いで、癒合群は 1 例を除いて 2 歳以前に手術が行われておらず平均 2

表 2 手術法との関連

手術法	癒合	失敗
髄内釘+骨移植 (Charnley)	2回	18回
二重骨移植 (Boyd)	3	7
パイパス法 (McFarland)	1	2
遊離骨移植+外固定	0	11
プレート固定+骨移植	0	3
計	6回	41回

歳 10 カ月である。これに対し、失敗群は 1 歳前後に集中しており、初回手術時年齢の平均は 1 歳 4 カ月である。

手術施行回数は癒合群平均 3.4 回、失敗群は平均 2.7 回と明らかな差はなかった。

5. 手術法との関連

のべ 47 回の手術のうち骨癒合が得られた直接の方法は Charnley 法 2、Boyd 法 3、McFarland 法 1 である。Boyd 法、McFarland 法での癒合率が比較的高い一方、Charnley 法は不成功になる率が高く、単純な遊離骨移植術、プレートによる骨接合術などはすべて失敗している。

6. 初診時 X 線像との関連

C の囊腫型は 4 例中 2 例が癒合、失敗のうちの 1 例ものちに電気刺激法を行って比較的容易に癒合しており、他の型に比べ予後良好である。他の型においては症例数が少ないこともあり予後との関連は明らかではない。

7. 代表例

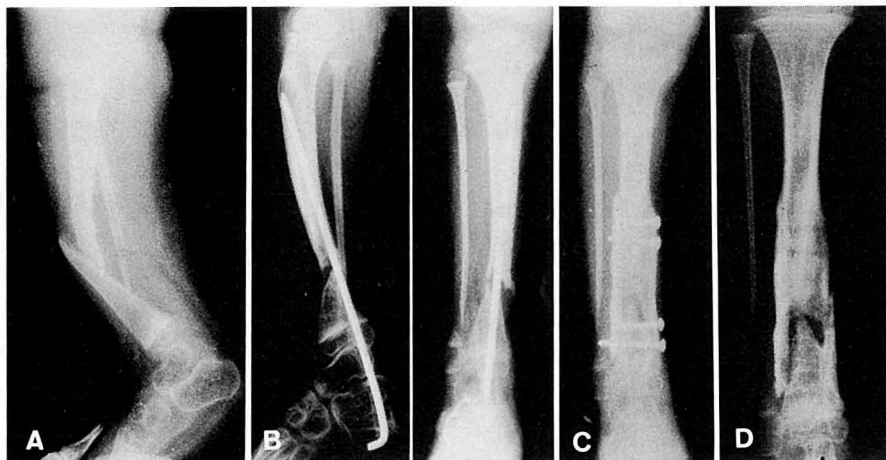
症例 1: M.K.

1 歳 5 カ月で偽関節となり装具を用いていたもので、2 歳 8 カ月、3 歳 4 カ月時と手術を行った。



A 1歳6カ月。硬化型の偽関節。**B** 2歳9カ月（Charnley 法施行後1カ月）。十分な量の骨移植を行ったが、この後まもなく偽関節となる。**C** 3歳4カ月時2回目の手術施行。4歳4カ月時のX線像。偽関節が中枢方向に移動しているため固定性不良。**D** 9歳時。

図 3 M.K., 女性



A 1歳8カ月時。先細り型の偽関節。**B** 1歳7カ月時に Charnley 法を行ったが失敗。5歳6カ月時のX線像。**C** 5歳9カ月。Boyd 法施行後3カ月、早くも骨吸収が始まる。**D** 6歳2カ月。再び明らかな偽関節となる。

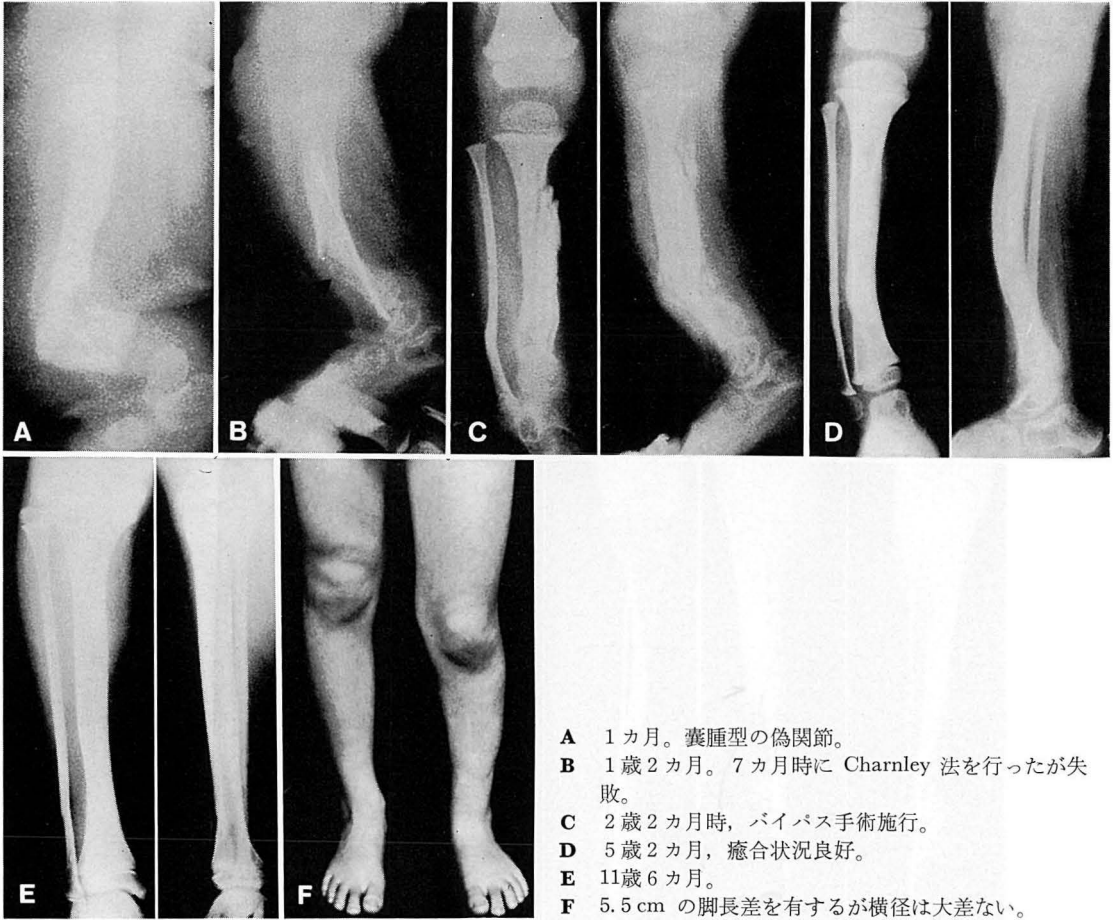
図 4 A.M., 女性

初回手術の際、母親より採取した十分な量の腸骨を用いたにもかかわらず2カ月後より吸収が始まった。2度目の手術も同様の方法によったが同様な骨吸収と先細り傾向が進行し、9歳の現在装具を用いて生活している。

症例 2 : A.M.

他施設で PTB 型装具をつけており、1歳8カ

月時に当院初診。1歳9カ月時に父親の腸骨を用いて Charnley 法を施行した。3カ月頃より移植骨の吸収と先細り傾向がみられ偽関節となった。5歳1カ月時に Boyd 法を行い、瘢痕の完全切除、強固な固定、父親の腸骨を用いた十分な量の骨移植を行ったにもかかわらず3カ月後には移植した全域にわたって吸収が始まった。のちに（7



- A 1 カ月。囊腫型の偽関節。
 B 1 歳 2 カ月。7 カ月時に Charnley 法を行ったが失敗。
 C 2 歳 2 カ月時、バイパス手術施行。
 D 5 歳 2 カ月、癒合状況良好。
 E 11 歳 6 カ月。
 F 5.5 cm の脚長差を有するが横径は大差ない。

図 5 Y.T., 男性

歳時), 血管柄付骨移植を施行した。

症例 3: Y.T.

診断時囊腫型の例で、生後 1 カ月下腿下 1/4 に大きな囊腫を伴った偽関節が存在した。7 カ月時 Charnley 法を行ったが間もなく偽関節となった。2 歳 2 カ月時 McFarland 法を行い癒合, 11 歳 6 カ月の現在脚長差が 5.5 cm ある以外は横径の成長も十分に装具なしで日常生活が可能である。

症例 4: S.S.

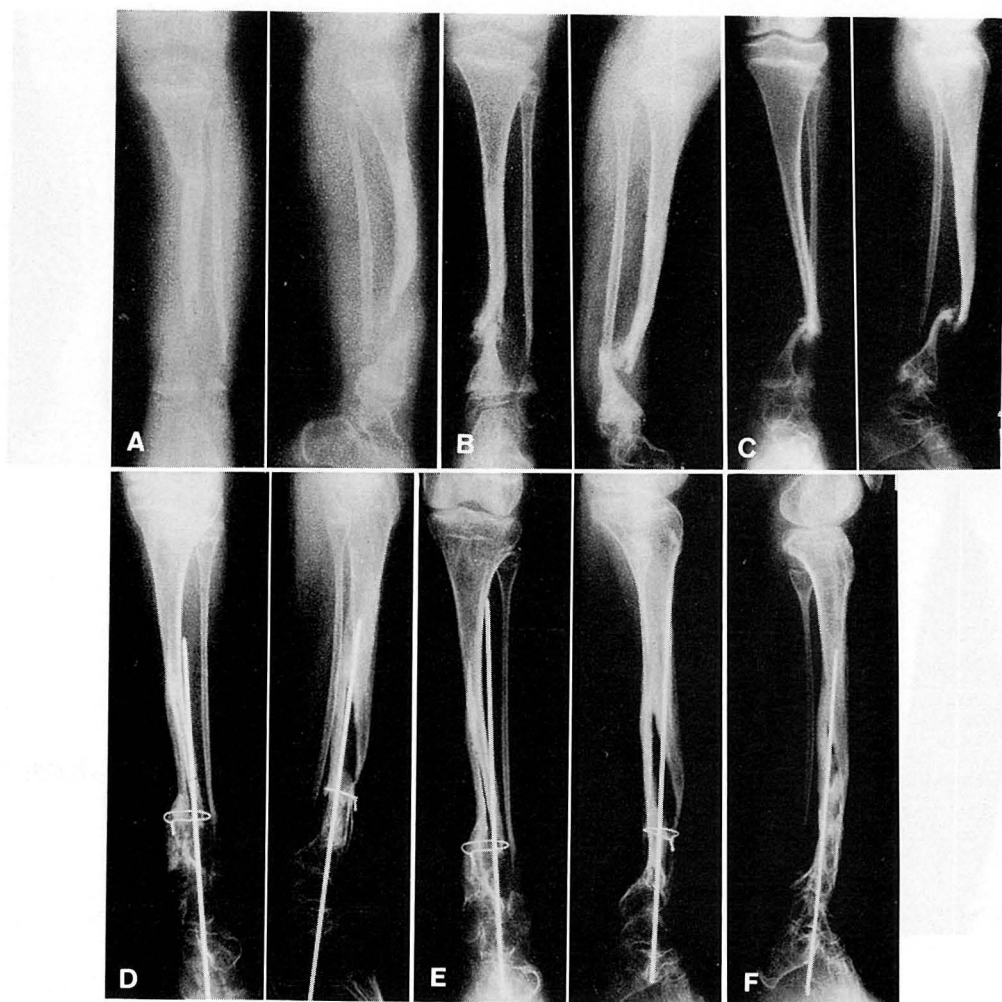
2 歳時に他施設で単純遊離骨移植術を行ったが癒合せず装具を使用して経過を観察した。12 歳, 13 歳時に自家腸骨の onlay 型骨移植を行い, なんとか癒合した。その後 12 歳, 13 歳時に自家腸骨の onlay 型骨移植を追加し良好な癒合状態となっ

た。18 歳 7 カ月の現在, 足関節の可動性は不良であるが骨癒合は完成している。

8. 現在の状態

癒合した 5 例は全員独立歩行可能である。脚長差は健側に比べ 1.0 cm 長い 1 例のほかは 1.5 cm, 3 cm, 4 cm, 8 cm の短縮である。8 cm の短縮を有する例 (図 6, S.S. 例) のみは足関節が 20° の底屈位拘縮を有しているため補装具を必要としている。

現在も偽関節のままである 7 例はいずれも長下肢装具を用いて歩行しているが, 最大の脚長差の例は脛骨の上, 下端を残すのみで健側との差は 14 cm にも及んでいる。偽関節ではあってもまだ 12 歳前後の症例が多いため, なんとか形だけでも残



A 2歳，欠損型の偽関節。装具を用いて経過観察。B 5歳8カ月。C 11歳。
D バイパス骨移植施行後1年（12歳2カ月）。E 13歳6カ月。F 18歳7カ月。

図 6 S.S., 女性

っていて欲しいという両親の思いが，経過を観察するのみにとどめている状況である。

III. 考 案

本症は生下時より偽関節を認める場合もあるが，多くは anterior bow, narrow sclerotic canal のある high risk tibia が何ら誘因なく，あるいは小外傷を契機に偽関節に移行することによる。この時期は生後12～18カ月頃であることが多い¹²⁾。これまでは装具を用いて保護することが大切であ

るし，骨折を発見した際にも変形を防ぐため不可欠である。保存的治療で癒合させることは著しく困難であり，また偽関節部の骨吸収が進行する場合や変形が増強する場合には何らかの観血的治療が考慮されなければならない。手術を行うにあたっては方法，時期，偽関節部の状態を考えなければならない。さらに失敗した場合，前回手術とどのくらいの間隔をとったらいかが，再手術の方法が大きな問題となる。

1. 先天性下腿偽関節症に対する conventional method

主なものは dual onlay graft (Boyd⁸⁾), intramedullary nailing and onlay graft (Charnley⁵⁾, Van Nes¹⁵⁾), by-pass graft (McFarland¹⁰⁾) である。他に fragmentation and intramedullary pinning (Sofield), transarticulation graft (Baw²⁾), decoration osteomusculaire (Judet), 東野法¹⁴⁾ などがある。これらの報告では Boyd の 85.7%, Van Nes の 90.5% を除いては癒合率は 50% 前後である。この数字には 1 度の手術で成功したかどうかの記載は含まれておらず、またそれぞれの方法に熟達した術者によて報告であることを考えると、一般的には失敗する確率が高いといわざるを得ない。

これらの方法はそれぞれに主張する点があり、一長一短を有するものであるが、病巣の完全切除、強固な内固定、荷重線をより有利な方向へ変更すること、術後に装具をしっかりと用いること、を重要としている点では一致している。Boyd 法は海綿骨を入れる槽を作り、周囲の hamartomatous な線維組織により圧縮されるのを防ぐこと、母床骨の径が増すことなどを特徴とする。Charnley 法は固定力の強さの点に大きな特性を有する。McFarland 法は移植骨が健全な骨部分と接触すること、安定して接合部には常に圧縮力が加わる仕組みになっていることを特徴とする。

2. 手術方法について

今回調査した中では Boyd 法 (のべ 10 回の手術のうち 3 回癒合) と McFarland 法 (のべ 3 回の手術を行い、1 回は癒合、ほとんど癒合した後に Boyd 法を行い完全に癒合したもの 1 回) の成功率が他に比較して高かった。とくに後者はただ 1 回の手術で癒合させるには無理があると思われるが安全な手術といえる。教室泉田も予防的に良い方法であると述べている⁸⁾。

Boyd 法が成功した 3 例に共通する点は偽関節部の硬化と先細り傾向が少なかったことである。Boyd は sclerosis と tapering のある例でもなるべく早期に十分な病的軟部組織の切除を行うことにより癒合させ得ると主張しているが、一般的に

は大きなギャップのある場合には難しいとされている¹²⁾。教室泉田は固定性の点から末梢骨片の長いものであること、手術にあたっては骨母床を傷つけないことを条件にあげている⁸⁾。

Charnley 法は成功率が低かったが、これは固定力の弱さに主な原因があったと思われる。また髓内釘が長軸方向に移動した例も多くあり、太めのものを用いて固定性を高めると共に刺入部に工夫をすることが大切である。

McFarland 法が行われた場合の成功率は今回調査した中では高く、conventional method として本法は有効な方法であると考ええる。これは先にのべた健全な骨部分と移植骨と接触すること、移植骨に圧縮力が加わるという特徴のほか、本症における hamartomatous な組織の中に移植骨を置くという危険から回避させることが有利な点であるといえる。本法を施行する上で大切なことは母床との接続部をしっかりとさせること、荷重線と移植骨長軸が一致するようにさせることである。

単純遊離骨移植術は今回の調査において成功した例はなく、一般的にも否定的である。

3. 手術時期

本症に対する手術時期としては、3 歳以前にはどんな手術法によってもほぼ確実に失敗するから可及的保存的に行うべきであるとする消極的意見¹⁾ から、逆に変形が進行することを防ぐ意味での積極的手術法をとるべきとの意見⁶⁾⁸⁾¹⁴⁾ まで種々ある。著者の今回の調査では (図 2), 幼少期に頻回に手術の行われた場合に成功したものはなく、3 歳頃までは装具を用いて変形を防止しつつ経過をみるべきであることを強調したい。3 歳以下では組織の反応が強く移植骨は吸収されやすく、またどの方法を選ぶにせよ十分な固定力を得られないからである。骨癒合が得られなかった場合の次の手術までの期間について明らかにすることは困難であったが、最低 1 年は待機することが必要であると思われた。

4. 初期 X 線像との関連

A (硬化型) は 8 例中 2 例, B (先細り型) は 3 例中 1 例, C (囊腫型) は 4 例中 2 例, D (欠損型) はゼロ、の癒合状況であり、囊腫型が他の

方法に比較して良好であった。Boyd⁴⁾も囊腫型のものは骨癒合を得やすいと報告しており、X線上のタイプは参考にすべき点であろう。

5. Conventional method の限界, 意義

本症に対する最も有力な治療法は血管柄付骨移植術ということで確立していると思われるが, conventional method の適応といえるものは3歳以降まで偽関節部の先細り, 骨欠損がなく持続した場合, X線像では囊腫型に属する場合, であると考え。今回の調査結果をふりかえると, 不屈の精神をもって対処すれば骨癒合を得られる可能性はあるが, 患児および家族の身体的, 社会的な面を考えるならば本法に固執することは好ましくない。

ま と め

1) Conventional method により治療を行った先天性下腿偽関節症17例の治療成績を調査し, 実用にてえ得る方法であるか検討を加えた。

2) 手術回数はのべ47回に及んだが, このうち骨癒合は6回しか得られなかった。年少時に頻回に手術操作が加えられた場合の成績が特に不良であった。

3) 3歳すぎまで偽関節部の骨吸収・欠損が少なかった場合には骨癒合が得られる可能性がある。しかし失敗した後も本法に強く固執することは好ましくなく, 血管柄付骨移植術などの信頼ある方法をとるべきである。

(症例を提供していただいた国立小児病院, 東京都立清瀬小児病院, 東京歯科大学市川病院, 茨城県立こども福祉センターの諸先生に感謝する。

本論文の要旨は第61回日本整形外科学会シンポジウム「先天性下腿偽関節症の病態と治療」にて発表し

た。)

文 献

- 1) Badgley CE et al: Congenital kyphoscoliotic tibia. J Bone Joint Surg **51-B**: 100—105, 1969
- 2) Baw S: The transarticular graft for infantile pseudarthrosis of the tibia; a new technique. J Bone Joint Surg **57-B**: 63—68, 1975
- 3) Boyd HB: Congenital pseudarthrosis of the tibia. J Bone Joint Surg **40-A**: 1245—1270, 1958
- 4) Boyd HB: Pathology and natural history of congenital pseudarthrosis of the tibia. Clin Orthop **166**: 5—13, 1982
- 5) Charnley J: Congenital pseudarthrosis of the tibia treated by the intramedullary nail. J Bone Joint Surg **38-A**: 283—290, 1956
- 6) Eyre-Brook AL et al: Infantile pseudarthrosis of the tibia. J Bone Joint Surg **51-B**: 604—613, 1969
- 7) Heyman CH and Herndon CH: Congenital posterior angulation of the tibia. J Bone Joint Surg **31-A**: 571—580, 1949
- 8) 泉田重雄ほか: 先天性下腿偽関節—病理所見から見た治療法の検討. 日整会誌 **51**: 1166—1167, 1977
- 9) 君塚 葵ほか: 先天性下腿偽関節の治療成績. 整・災外 **23**: 291—301, 1980
- 10) McFarland B: Pseudarthrosis of the tibia in childhood. J Bone Joint Surg **33-B**: 36—46, 1951
- 11) Rathgeb JM et al: Congenital kyphoscoliosis of the tibia. Clin Orthop **103**: 178—190, 1974
- 12) Sage FP: Congenital anomalies. Campbell's Operative Orthopaedics, 6th ed, Mosby, 2670—2678, 1980
- 13) Sofield HA et al: Fragmentation, realignment and intramedullary rod fixation of deformities of the long bones in children. J Bone Joint Surg **41-A**: 1371—1391, 1959
- 14) 東野修治: 先天性下腿彎曲症ならびに偽関節の治療. 整形外科 **20**: 121—125, 1969
- 15) Van Nes CP: Congenital pseudarthrosis of the leg. J Bone Joint Surg **48-A**: 1467—1483, 1966