

先天性下腿偽関節症に対する Conventional bone graft

坂巻 豊教*

Key words : 骨移植 (bone graft), 胫骨 (tibia), 先天性偽関節 (congenital pseudarthrosis), 臨床成績 (clinical result), レックリングハウゼン病 (von Recklinghausen disease)

Abstract 先天性下腿偽関節症に対して従来から種々の方式の骨移植術が行われてきたが、1回の手術操作で癒合させることは困難であり、手術時期の決定、失敗した場合の次の手術の方法や間隔など未解決の問題が多い。本症は近年、血管柄付き骨移植術が主流になっているが、ある種の条件のもとでは実用に供しうる方法であるかを調査した。調査対象は17例で手術法は髄内釘+骨移植 (Charnley)、二重骨移植 (Boyd)、バイパス法 (McFarland)、遊離骨移植で延べ47回に及んでいる。骨癒合が得られたのはこのうち6回のみで、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歳すぎまで偽関節部の骨吸収・欠損が少なかった場合、X線上囊腫型の場合に骨癒合が得られる可能性がある。術式では McFarland 法が他に比較して有望であった。しかし失敗した場合も強く本法に固執することは患児および家族の身体的、精神的な見地から考えて好ましくない。

はじめに

先天性下腿偽関節症は難治性であるが故に歴史的に幾多の観血的治療法が試みられてきたが、これらによると一つの方法により熟達した術者によって行われながらも成功率は満足すべきものではない。Conventional bone graft としては図1のようなものがあげられるが、この中では二重骨移植術 (Boyd¹⁾)、髄内釘+on-lay 式骨移植術 (Charnley²⁾、Van Nes)、バイパス骨移植術 (McFarland⁴⁾) などの報告が多い。本邦では水島、東野らの独創的な方法がある。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れつつあるが conventional bone graft の成績をふりかえることにより、ある種の条件下、即ち手術時期、偽関節の様態などを考慮すれば生き残ることができる方法であるかを検討した。

症 例

慶応義塾大学整形外科および関連施設で治療を行った17例を調査対象とした。男児6例、女児11例で、全例片側罹患である。うち7例に cafe-au-lait 斑がみられ von Recklinghausen 病との関連が深いと考えられる。

生下時にすでに骨折を認めていたもの2例、骨折が発生しX線撮影をはじめて行って本症と診断されたもの15例である。後者15例の診断時期は1歳未満10例、1歳代3例、2歳代2例である。

診断確定時から一貫して治療を行ったもの11例、前施設で1回から3回の手術を施行されたのちに来院したもの6例である。

本症の分類には Heyman and Herndon、Boyd Badgley、Rathgeb、杉浦らのものがあり、とくに前2者の分類が多用されているが、今回の症例すべてを無理なく当てはめることは困難であった。X線像により明解なことと、予後に関連性がある

* Toyonori SAKAMAKI, 〒160 東京都新宿区信濃町35 慶応義塾大学整形外科学教室

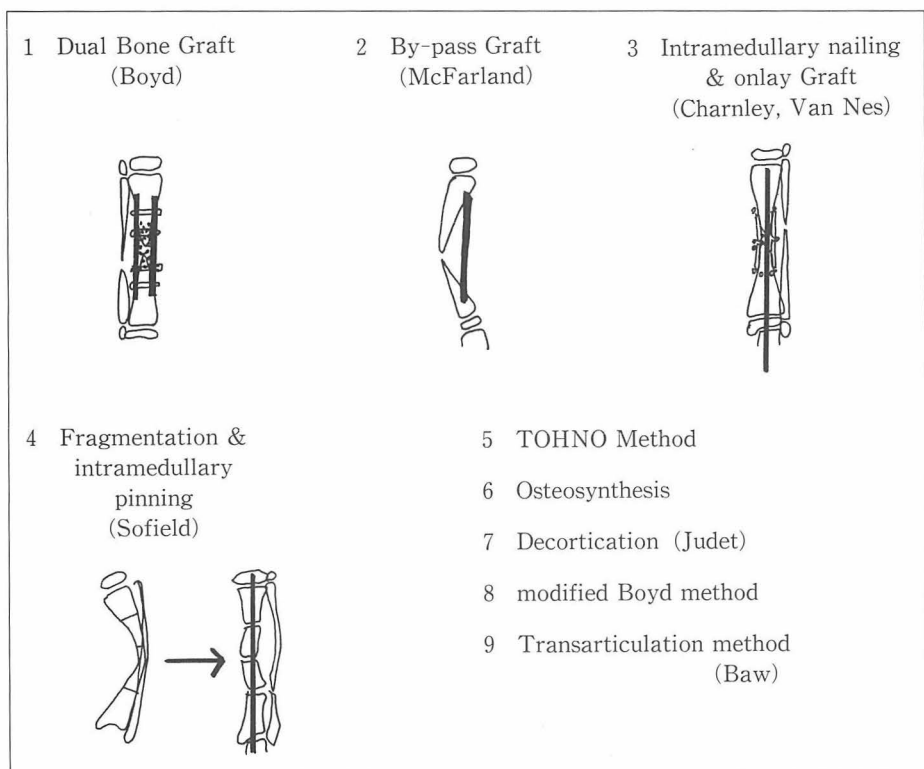


図 1.
Conventional bone
graft

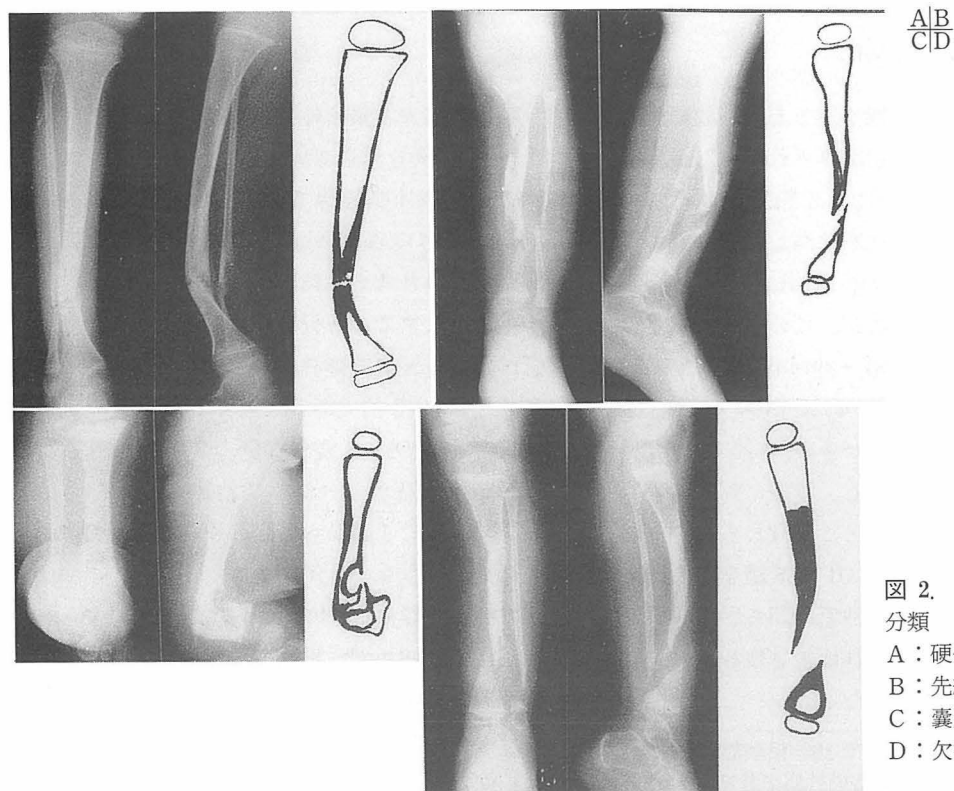
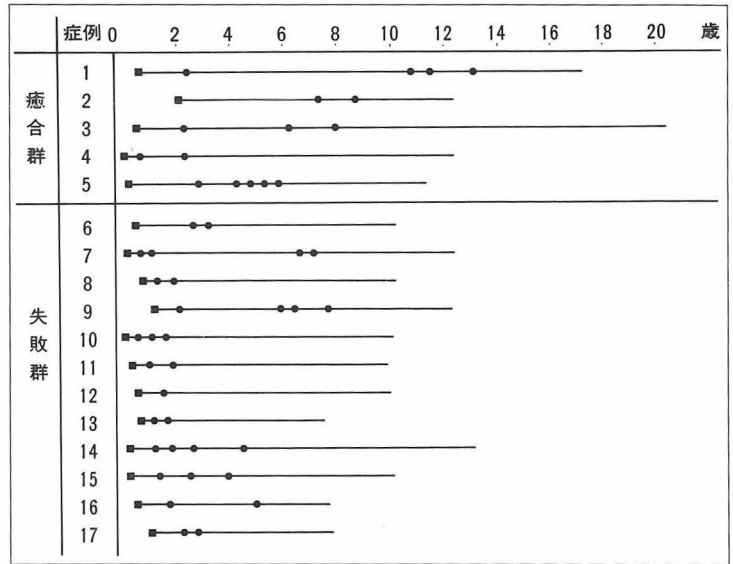


図 2.
分類
A：硬化型
B：先細り型
C：囊腫型
D：欠損型

表 1. 癒合群の内容

	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 か月	2	2 歳 2 か月	McFarland	1 年 4 か月
2	男	C	2 歳 2 か月	3	8 歳	Boyd	1 年
3	女	B	2 歳 9 か月	4	13 歳 4 か月	Charnley	2 年
4	男	A	3 歳 10 か月	5	5 歳 10 か月	Boyd	1 年 3 か月
5	女	A	4 歳 9 か月	2	8 歳 9 か月	Charnley	1 年 2 か月

図 3.
手術施行状況
■ 診断時
● 手術が行われた時期
実線の右端が現在の時期を示す



ことから図 2 に示す分類を用いた。杉浦のものと
同じである。硬化型は偽関節部に硬化部を有する
が胫骨の狭窄はないもの、先細り型は骨折端が細
く硬化し、髄腔の閉塞を有するもの、嚢腫型は嚢
腫部分が偽関節となっているもの、欠損型は先細
り型の断端であるが両端が大きく離れているも
の、である。A (硬化型または髄腔閉塞型) 8 例、
B (先細り型) 3 例、C (嚢腫型) 4 例、D (欠損型)
1 例、分類不能 1 例である。

結 果

1. 骨癒合率

癒合に至ったもの 5 例、失敗 12 例であった。失敗
例のうち 2 例は血管柄付き骨移植により、1 例は
電気刺激法により癒合、1 例には切断術が施行さ
れた。7 例は現在でも偽関節の状態である。

2. 手術内容と手術回数

1) 延べ手術回数

手術は総計 47 回行われた。髄内釘+on-lay 式
骨移植 (Charnley, Van Nes) 20 回、遊離骨移植
術 11 回、二重骨移植術 (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 回である。

2) 手術法と癒合率の関連 (表 1)

総計 47 回の手術の結果は癒合 6 回、失敗 41 回
であった。癒合 6 回の内訳は Charnley 法 2, Boyd
法 3, McFarland 法 1 であった。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
しており、Charnley 法も失敗になる率が高かつ
た。癒合術のうちの 1 例は Boyd 法でいったんは
癒合したものの弯曲が進行したため McFarland
法を施行したが上端が偽関節となり、再度 Boyd

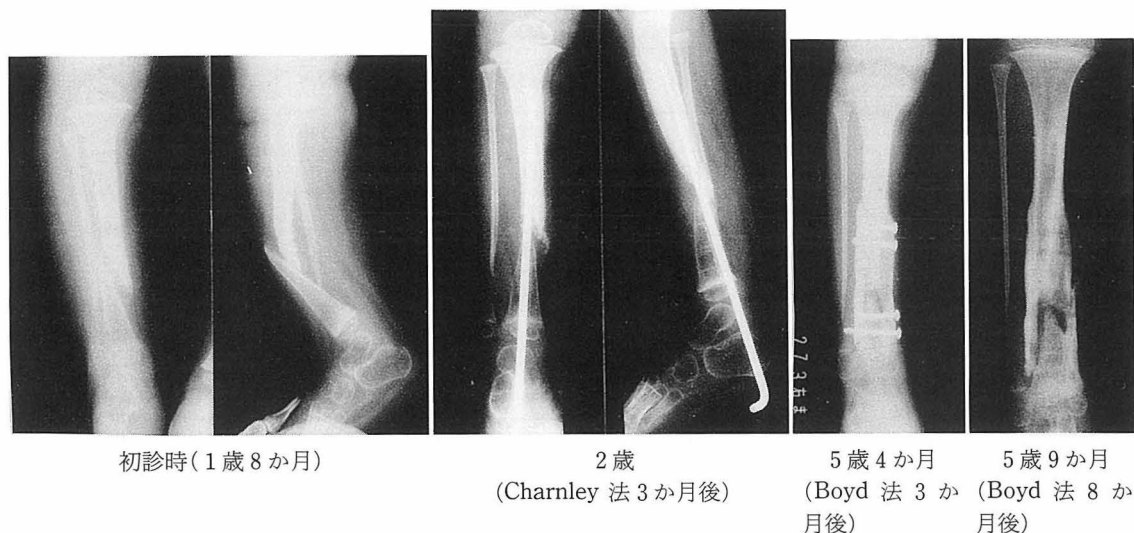


図 4. A. M. 例

法を行い癒合した例である。Boyd 法, McFarland 法が他の方法に比して好成績のように見受けられるが有意の差ではない。

3) 手術施行状況(図3)

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が大きな違いである。初回手術時年齢でみると、癒合群では1例を除いて2歳以前には手術が行われておらず、平均では2歳10か月である。これに対し失敗群では1歳前後に集中しており、平均1歳4か月と明らかな違いがみられる。

手術施行回数でみると、癒合率は2回2例, 3～5回が各1例、平均3.4回であった。これに対し失敗群は平均2.7回と明らかな差はなかった。

4) 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良い経過で癒合に至っており、他の型に比べて予後良好である。他はA2例、B1例であるが症例数からいって相関を論ずるには至らない。

5) 代表例

症例1：A. M.

前医でPTBを用いて保存的治療を行っていたが、1歳8か月時に当院を受診した。先細り型の

偽関節であり、1歳9か月時父親の腸骨を用いて Charnley 法を行った。3か月後には移植骨の吸収と先細り傾向が起り再び偽関節となった。5歳1か月時 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か月後には早くも吸収が始まり、偽関節となった。

症例2：M. K.

先天性下腿彎曲症で経過をみていたが、1歳5か月時に骨折を起こし来院した。彎曲の矯正も兼ねて Charnley 法を施行した。母親より採取した十分な量の骨移植を行ったにもかかわらず1か月後より吸収がはじまり経過不良となった。3歳2か月時、2回目の同法を行ったが2か月後には早くも吸収と先細り傾向が進行した。9歳の現在、装具を用いて歩行している。

症例3：Y. T.

診断時囊腫型で、生後1か月時下腿末梢1/4付近に大きな囊腫を伴った偽関節が存在した。7か月時に Charnley 法を行ったが間もなく偽関節となった。2歳2か月時 McFarland 法を行い癒合、その後は順調な経過をたどった。11歳6か月の現在、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。

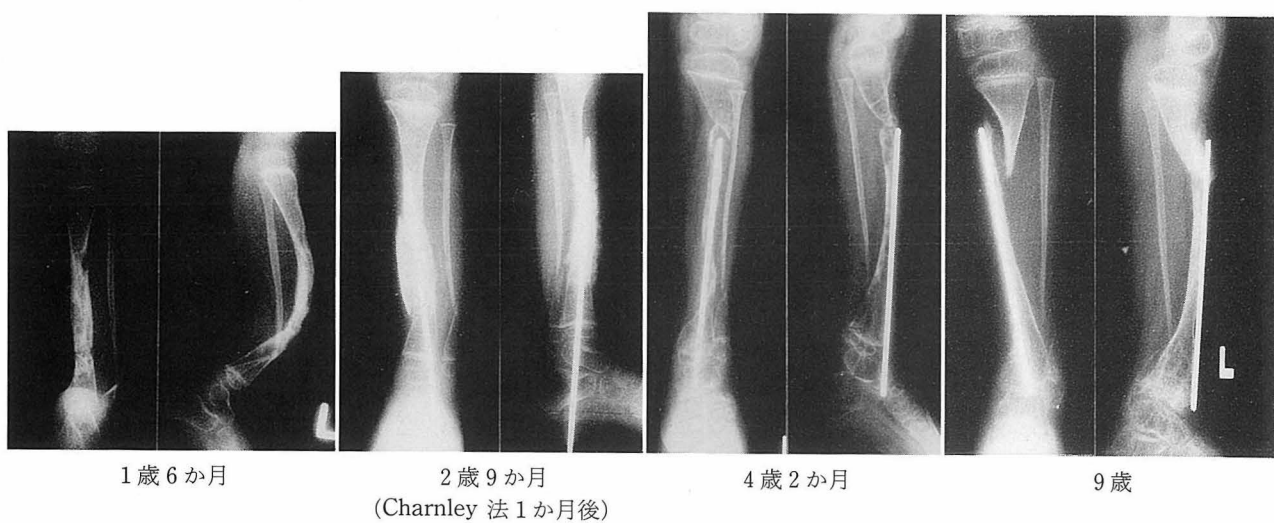


図 5. M. K. 例.

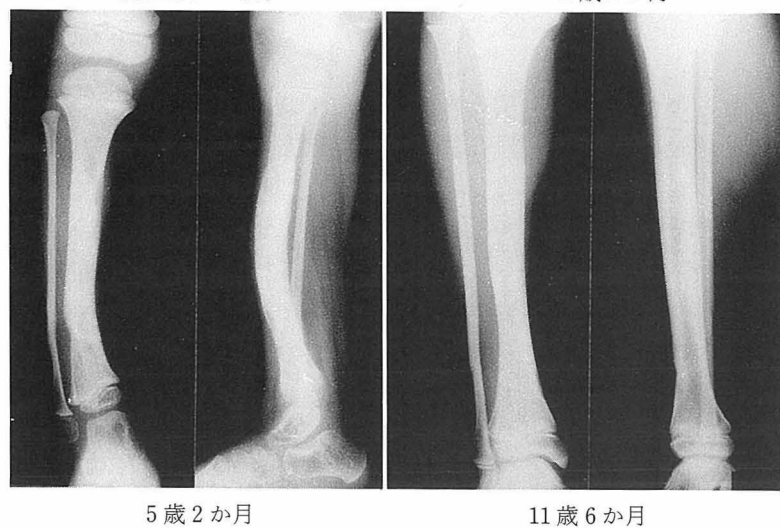
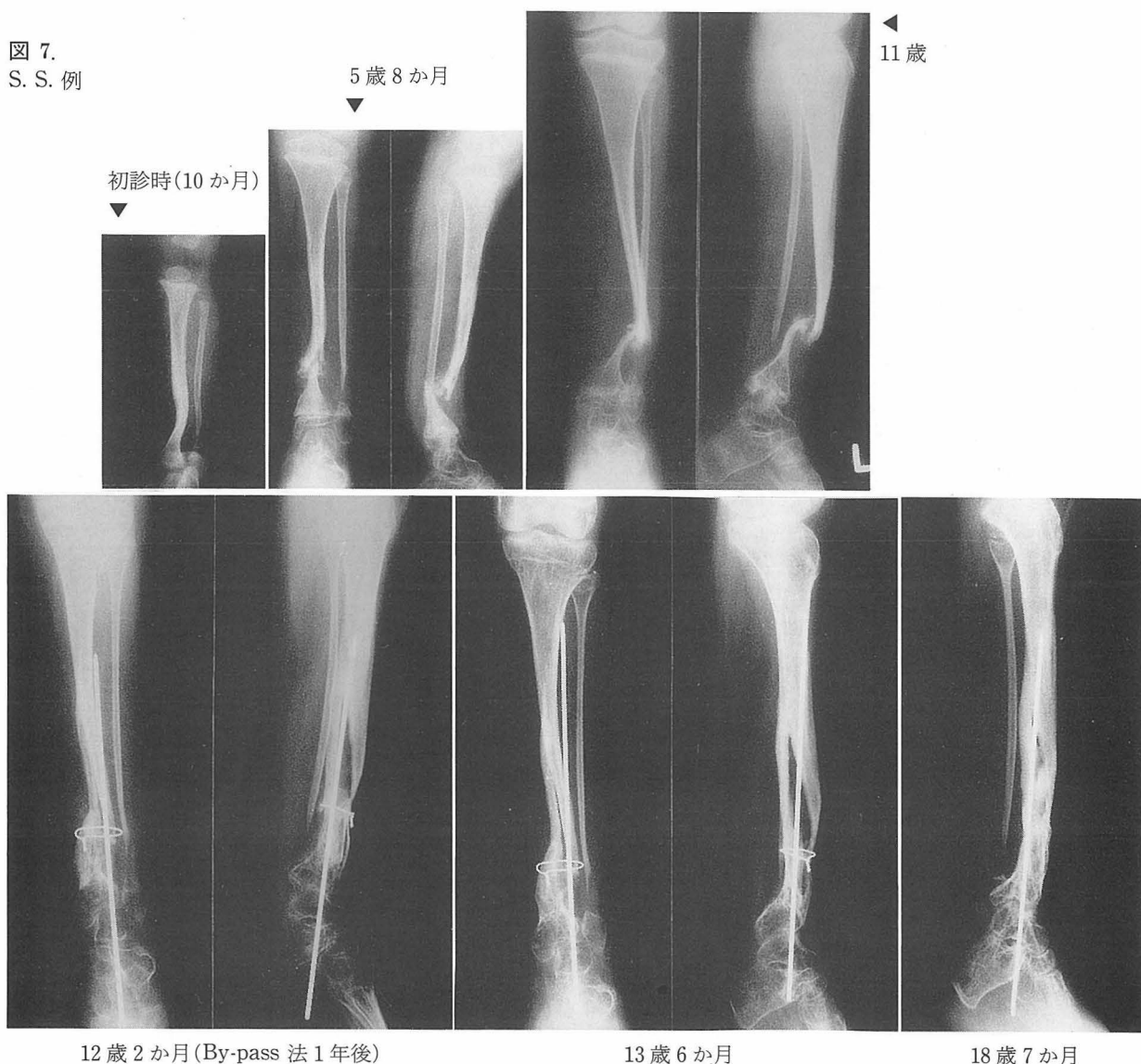


図 6.
Y. T. 例

図 7.
S. S. 例



症例 4 : S. S.

先天性下腿彎曲症であったものが2歳8か月時に骨折を起こして偽関節となった。前医で遊離骨移植術を行ったが癒合せず、装具を使用し経過を観察した。11歳2か月時に欠損部を大きく架橋するような on lay 骨移植を行い、かろうじて癒合した。その後13歳時にも onlay 骨移植を追加し良好な癒合を得た。18歳7か月の現在、8 cm の短縮があり、また足関節は底屈位をとっており可動性は殆どないが、癒合は達成されている。

6) 現在の状態

脚長差は1例が健側に比べ1 cm 長い。これは

Boyd 法で癒合した例であるが、癒合後5年6か月経過した10歳6か月時に変形治癒に対しての矯正骨切りを行ったことによる過成長の結果である。癒合例は他はすべて短縮となっており、脚長差は1.5 cm, 3 cm, 4 cm, 8 cm である。8 cm の例(図7, S. S. 例)以外は補装具なしで歩行可である。

7例は現在もなお偽関節の状態であり、すべて長下肢装具を用いて歩行をしている。最大の脚長差の例は胫骨の上、下端を残すのみで、14 cm もの短縮がある。どの例も多数回の手術を重ねているため、次の手術をすすめてもなかなか同意が得られない状況にある。切断術が行われたのは1例

のみであるが、現在なお偽関節であるなかには切断を施行した方がよいとみられる例もある。しかし本症は学童期にあるため両親の決断による訳で、切断術の実施は困難であるのは当然といえる。

考 案

本症は生下時より偽関節であ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。保存的治療で癒合させることは著しく困難であり、歴史的にみても骨癒合を得るために幾多の骨移植術式が考え出されてきた。最近では血管柄付き骨移植術という有力な方法が主流であるが、従来の諸骨移植術が手術時期、術前の状態などを勘案すれば生き残ることができる方法であるかについて言及したい⁵⁾。

1. 先天性下腿偽関節症に対する conventional method

主なものは dual bone graft (Boyd), intramedullary nailing and onlay graft (Charnley, Van Nes), by-pass graft (McFarland), である。他に fragmentation and intramedullary pinning (Sofield), transarticulation graft (Baw), decorication osteomusculare (Judet), 東野法などがある。これらの方法では Boyd の 85.7%, Van Nes の 90.5%を除いては 50%前後の癒合率である。この数字には一度の手術で成功したかどうか、手術時年齢についての検討などは含まれておらず、しかもそれぞれの方法に熟達した術者による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、を重要としている点では一致している。しかし手術時には強固な内固定と分量の骨移植を行っても、本症特有の hamartomatous な線維組織の増生、浸潤には打ち勝つことができず移植

骨および母床の吸収が起こることが多いのが現状である。

2. 各手術法の比較

Conventional な骨移植術のなかでとりわけ成功率が高い方法は残念ながら無いが、今回調査したなかでは Boyd 法 (のべ 10 回の手術のうち 3 回癒合) と McFarland 法 (延べ 3 回の手術のうち 1 回は癒合、殆ど癒合したが横径が不十分で Boyd 法を追加して施行し完全に癒合したもの 1 回) の成功率が他の方法に比べ高かった。とくに McFarland 法は失敗しても欠損の生ずる部分が少なく安全であり、また予防的にも良い方法であると考えている。

1) Boyd 法

Boyd は sclerosis と tapering のある例でもなるべく早期に十分な軟部組織の切除を行うことにより癒合させ得るとし、海綿骨部分が周囲からの線維組織に侵入されるのを防ぐ槽としての意味を述べている¹⁾。しかし一般的には大きなギャップのある場合は難しいとされており、今回の成功した 3 例も偽関節部の硬化と先細り傾向が少なかった例である。教室の泉田は固定性の点から末梢骨片の長いものであること、骨母床を傷つけないようにすること、を条件にあげている。

2) Charnley 法

固定性の強さと、変形矯正の点ですぐれた方法であるが、今回調査した症例はいずれも固定力に問題があったとみられ成功率は低かった。成長とともに釘が短くなること、骨成長帯を損傷することも欠点である。

3) McFarland 法

移植骨が健全な母床部分と接合されること、移植骨に圧縮力が加わること、hamartomatous な組織の中に移植骨を置く危険から避けられること、などの点で有利である。今回の調査症例の中でも本法の成功率は高く、conventional bone graft として有効であると考えている。本法の実施にあたって大切なことは母床との接続をしっかりとさせること、荷重軸と移植骨長軸が一致するように

させることである。

4) 遊離骨移植術

これまでの報告ではいずれも無効であり、筆者らの症例においても有効であった例は無かった。

3. 手術時期

本症に対する手術時期として、3歳以前にはどんな方法によっても、また正確な術式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見方と、変形が進行するのを防ぐ意味で積極的に手術を行うべきとの意見がある³⁾。

図3に示されるように低年齢時に頻回に手術の行われた場合には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も強調したい。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、またどの方法をとるにせよ十分な固定力が得られないからである。

4. 偽関節の型との関連

手術を施行しようとする時点でのX線上の型との関連は症例数が少ないこともあり明らかではなかったが、嚢腫型の場合は4例中2例が癒合したこと、およびBoyd¹⁾もこの型のものは骨癒合を得やすいと報告していることから注目してよいと考えられる。

5. Coventional bone graft の意義

偽関節部の先細りや欠損がない場合、嚢腫型である場合、などには3歳すぎに本法を試みる価値はあろう。しかし血管柄付き骨移植術という有力な方法がある現在、conventionalな骨移植に固執するのは好ましくない。少なくとも頻回の手術操作により母床を荒らしてしまうことは避けなければならない。本疾患において患児および両親の身体的、精神的、社会的負担は長期にわたるものであることを忘れてはならない。

文 献

- 1) Boyd, H. B.: Congenital pseudarthrosis of the tibia., J Bone Joint Surg., 40-A: 1245~1270, 1958.

- 2) Charnley, J.: Congenital pseudarthrosis of the tibia treated by the intramedullary nail., J Bone Joint Surg., 38-B: 283~290, 1956.
- 3) 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.
- 4) McFarland, B.: Pseudarthrosis of the tibia in childhood., J Bone Joint Surg., 33-B: 36~46, 1951.
- 5) 坂巻豊教: Coventional method による先天性下腿偽関節症の治療成績。整・災外, 32: 11~18, 1989.

ピン・ボード

第35回日本リウマチ学会総会

日 時: 1991年4月25~27日

会 場: 日本都市センター, 全共連ビル(東京千代田区)

特別講演: Virgil Hanson (Department of Pediatrics
Children's Hospital of Los Angeles)

ウイルス感染と関節炎/西岡久寿樹(東京女子
医大教授)

人工関節・材料とデザインの進歩/山室隆夫(京
大教授)

会長講演: 小児膠原病の臨床と予後

シンポジウム(指定):

RAの病因からみた治療の将来戦略/司会 水

島裕(聖マ医大教授), 安倍達(埼玉医大教授)

関節炎患者の日常生活の改善/司会 腰野富久

(横浜市大教授), 松井宣夫(名市大教授)

膠原病の病因としての接着分子異常/司会 奥

村 康(順大教授), 澤田滋正(日大助教授)

RAとJRAは同一疾患か/司会 渡辺言夫(杏

林大教授), 山口雅也(佐賀医大教授)

ワークショップ(公募): ムチランス型RAの病態と対

策, RAのMTX療法, リウマチ性疾患への遺

伝子工学応用, リウマチの人工膝関節の長期成

績, リウマチの東洋医学的療法, 小児膠原病の

診断と治療, 膠原病と心肺病変, 膠原病と精神・

神経障害, 膠原病と妊娠・出産, 膠原病とサイ

トカイン, 膠原病と抗原認識分子, 抗リン脂質

抗体症候群, 多クローン性B細胞活性化, モデル

動物と実験関節炎, 関節炎とレトロウイルス,

関節炎における骨軟骨破壊, 関節軟骨とケミカ

ルメディエーター, 痛風・結晶性関節炎

ポスターワークショップ(公募): RAの改訂診断基準の

評価, リウマチ性疾患の画像診断, リウマチ性

疾患の装具と理学療法, 人工関節の合併症, 膠

原病と大腿骨頭壊死, 皮膚病変をともなう関節

炎, JRAのQOL

一般演題(公募): 抄録用紙ご希望の方は下記にご連絡く

ださい(1990年12月8日締切り)。

会 長: 大国真彦(日大教授)

連絡先: 〒173 東京都板橋区大谷口上町30-1 日本大

学小児科 第35回日本リウマチ学会総会事務

局 電話 03-972-8111(内線2442, 2443) FAX

03-957-6186