《症例報告》

特発性骨折を繰り返した重度障害児 —1 例報告—

奥村須江子*¹ 岩崎 紀子*¹ 菊地 尚久*¹
水落 和也*² 安藤 徳彦*¹

A Child with Severe Disability who had Repeated Spontaneous Fractures: A Case Report

Sueko OKUMURA,*¹ Noriko IWASAKI,*¹ Naohisa KIKUCHI,*¹
Kazuya MIZUOCHI,*² Norihiko ANDO*¹

Abstract: We reported a case of a ten-year-old boy who experienced multiple spontaneous fractures subsequent to hypoxic brain damage. In August 1996, he developed spastic tetraplegia due to asphyxia caused by near-drowning at the age of eight. In October 1997, with no obvious cause, he suffered a left femoral neck fracture. In November 1999, 6 days after he was brought to our clinic for consultation for the first time, he suffered a left femoral subtrochanteric fracture, followed by a suprachondylar fracture of the left femur, and 5 months later, a suprachondylar fracture of the right femur, all spontaneously. No traumatic episodes that might provoke these fractures were found. Although the causes of spontaneous fractures are usually multifactorial, such as osteoporosis, nutritional deficiency, adverse effects of anticonvulsants, and accelerated calcium excretion, it is suspected that the major causes for these fractures were severe spasticity and contractures on the lower extremities. To prevent spontaneous fractures and plan for early diagnosis and treatment, physiatrists should be aware of uncommon musculoskeletal complications in children with severe disability. (*Jpn J Rehabil Med* 2001; 38: 662-665)

Key words: 重度障害児 (child with severe disability), 特発性骨折 (spontaneous fracture), 拘縮 (contracture)

はじめに

重度障害児の骨折については、1966年に McIvor ら¹⁾が脳性麻痺児の骨折について報告して以来いくつかの報告がある。今回我々は同一患者に4回の特発性骨折を認めた例を経験したので、考えられる関連因子や今後の注意点について文献的考察を加えて報告する。

症 例

1. 患 者: 10歳, 男児。
2. 病 名: 低酸素脳症, 痙性四肢麻痺。
3. 現病歴

平成8年8月2日(6歳9カ月時)プールで溺水し心肺停止後20分で蘇生したが、低酸素脳症により重度の痙性四肢麻痺が残存した。平成8年12月全身の著しい痙縮に対し脊髄硬膜外電極埋め込み術が施行さ

2001年2月19日受付, 2001年7月9日受理

*¹ 横浜市立大学医学部付属市民総合医療センターリハビリテーション科/〒232-0024 神奈川県横浜市南区浦舟町4-57
Department of Rehabilitation Medicine, Yokohama City University Medical Center

*² 横浜市立大学医学部付属病院リハビリテーション科/〒236-0004 神奈川県横浜市金沢区福浦3-9
Department of Rehabilitation Medicine, Yokohama City University Hospital

れた。平成9年10月他院入院中特に誘因なく啼泣し、その後左下肢の短縮を認めたためレントゲン検査を行ったところ左大腿骨頸部骨折を認めたが、既に慢性期との判断で保存的に治療された。その後転居に伴い平成11年4月23日当科初診した。

4. 初診時現症

意識状態は開眼しており、痛み刺激に対しては顔をしかめ発声するが、追視はなく、呼びかけに対しても反応はなかった。全身の筋緊張亢進を認め、臥床時の肢位は上肢は常に屈曲位、下肢は股関節、膝関節とも常に伸展位で除皮質肢位に近い肢位を呈していた。随意運動はなく、非対称性緊張性頸反射を認めた。関節可動域は肩関節の屈曲、外転に中等度の制限を認め、両手関節に重度の屈曲拘縮を認めた。また左股関節、両膝関節にも屈曲制限を認め、両足関節には著しい尖足拘縮を認めた。棘果長は右60cm、左54cmと左下肢の短縮を認めた。全身の皮膚には皮下血腫はみられなかった。股関節、膝関節に腫脹、熱感、圧痛はみられず、各関節に運動痛はなかった。ADLは全介助で栄養は経鼻胃管より、排泄はおむつで、おむつ交換や入浴は母親が介護していた。

リハビリテーション（以下、リハ）外来プログラムは四肢、体幹の変形、拘縮の進行予防、より多くの感覚刺激を与えることを目標に定め、週1回の四肢ROM訓練、リラクセーションを処方した。

医学的管理としては、他院神経内科よりバルプロ酸ナトリウム450mg/day、ゾニサミド100mg/day、塩酸トルペリゾン75mg/day、アルファカルシドール1ml/day、エリスロマイシン500mg/day、経管栄養剤（エンシュアリキッド®）800ml/dayが処方されていた。

5. 検査所見

血液検査所見では血算は異常なく、生化学所見では血清アルカリホスファターゼ2,576IU/l、カルシウム12.2mg/dlと高値であり、血清リンは1.7mg/dlと低値だった。腎機能や副甲状腺機能は異常を認めなかった。初診時のレントゲン写真上陳旧性の左大腿骨頸部内側骨折が認められた（図1）。骨密度測定では腰椎骨塩量0.308g/cm²と減少していた。

6. 経過

平成11年4月29日夕方より特に誘因なく泣き出し、レントゲン写真上左大腿骨転子下骨折が認められたが、局所の安静と鎮痛剤投与で経過観察とした。

平成11年9月上旬から再び突然泣き出したり発熱することがあり、10月18日の診察時左膝の腫脹が認められ、レントゲン写真上左大腿骨頸上骨折が認められた。整形外科を受診し左下肢にギプスシーネ固定による保存的加療が施行された。

平成12年3月13日当科外来受診時に右股関節を動かすと顔をしかめ、レントゲン撮影を行うと右大腿骨頸上骨折が認められ、右下肢にギプスシーネ固定が施行された（図2）。

図1 初診時レントゲン写真
陳旧性の左大腿骨頸部内側骨折を認める。

図2 平成12年3月のレントゲン写真像
両側の大腿骨頸上骨折を認める。

いずれの骨折に際しても直前の外傷機転はなく、痙攣発作との関連もなかった。

外来訓練では再骨折の危険に注意しながら痙縮や関節拘縮の進行予防目的で慎重にROM訓練を行っていた。また家族へおむつ交換時のポジショニングやリラクセーションを得やすい肢位、できるだけ日光にあたること、座位時間を長くすることを指導した。

考 察

McIvor ら¹⁾は脳性麻痺患者において、関節の拘縮や長期臥位による骨の廃用性萎縮が、反復骨折の原因になると述べている。また亀谷^{2,3)}は重症心身障害児の骨折について、寝たきり患者の方が車椅子使用の患者や歩行可能な患者より骨折の合併が多かったと報告している。Miller ら⁴⁾や長谷ら⁵⁾も重度身体障害者にみられた特発性骨折の原因として骨の廃用性萎縮、栄養障害による骨膜性骨化の不良、痙縮、関節拘縮等を挙げている。

Brunner ら⁶⁾は脳性麻痺患者にみられた特発性骨折について主な骨折部位は大腿骨顆上部と大腿骨骨幹部で、ほとんどの骨折は保存的治療で経過良好であったが、大腿骨骨幹部やそれより近位部では外科的治療も考慮すべきだと述べている。その理由は保存的治療は股関節の脱臼や下肢の短縮が起りやすいが、外科的治療では骨折の不正癒合が避けられ、早期から患肢を動かせるためだと述べている。骨折の予防として荷重をかけること、股関節や膝関節の強直を防ぐこと、長期の固定を避けることを挙げている。

その他に抗痙攣剤の長期投与による骨軟化症及びそれによる骨脆弱性の増加も骨折の原因になるといわれている^{5,7)}。Lee ら⁸⁾は重度障害者において骨折した患者の68%が抗痙攣剤を服用しており、42%に血清ビタミンDの欠乏を認め、ビタミンDの欠乏は多発性の特発性骨折を起こす危険を大きくしていると報告している。抗痙攣剤の長期服用は、活性型ビタミンD₃を不活化し、骨のカルシウム代謝障害をきたして骨軟化症や骨粗鬆症を起こすといわれている⁹⁾。また抗痙攣剤が直接骨細胞、造骨細胞の機能障害を起こし、クル病、骨軟化症をきたす可能性があるとも述べられている¹⁰⁾。

本症例は同一患児に4回の特発性骨折を認めた稀な例である。初回骨折後ビタミンD製剤が投与されているが、血清カルシウム値も高値であり、レントゲン

検査上も骨軟化症の所見はみられなかったが、腰椎骨密度やレントゲン写真像から骨粗鬆症の所見を認めた。慎重なリハや家族への指導を行っていたが、骨粗鬆症やコントロール困難な著しい痙縮と下肢の関節の拘縮が存在しており、これらのことが何らかの誘因となり骨折を繰り返したと思われた。介護動作時の骨折も考えられ、例えば仰臥位から座位にする場合、患者は股関節や膝関節に拘縮がある状態で背部より押され、股関節を無理に屈曲したり、外旋している肢位では大腿骨に回旋力が加わり骨折が生じてしまう。またおむつ交換時、股を上げようとして介護者が膝関節付近や下腿に力を加えると、てこの原理で顆上部に力が加わり骨折する可能性もある。介護動作時に外力が直接骨折を生じる方向に働いたのではなく、股関節、膝関節に拘縮があるため加わった外力を逃がすことができないために骨折が起きるという意見もある⁹⁾。4回目の骨折後はこれまでの経験からセラピストや家族への指導を更に徹底させ、現在のところ特発性骨折は起こしていない。

このような特発性骨折が、physical therapy, positioning等で予防できるかについて今後検討が必要であるが、本症例のように重度の痙性麻痺を呈し、下肢関節に拘縮を伴う例では特発性骨折を生ずる危険性があるということを念頭において家族への介護指導、リハ処方時のセラピストへの情報提供が必要であると思われた。

ま と め

特発性下肢骨折を繰り返した重度の痙性四肢麻痺児の症例を報告した。原因として骨粗鬆症、痙縮、関節拘縮、抗痙攣剤の長期投与による骨軟化症等が考えられたが、骨粗鬆症に加え、痙縮と関節拘縮が特に強い関連因子ではないかと思われた。重度障害児は意思表示が困難なため、日常のケアの指導、訓練処方を行うリハ科医は保護者の訴えやわずかな徴候に注意深く対処することが必要である。

文 献

- 1) McIvor WC, Samilson RL: Fractures in patients with cerebral palsy. J Bone Jt Surg 1966; 48A: 858-866
- 2) 亀谷統三: 重症心身障害児施設における骨折について (1). 小児の精神と神経 1974; 14: 167-173
- 3) 亀谷統三: 重症心身障害児施設における骨折について (2). 小児の精神と神経 1974; 14: 227-237

- 4) Miller PR, Glazer DA: Spontaneous fractures in the brain-crippled, bedridden patient. Clin Orthop Relat Res 1976; **120**: 134-137
- 5) 長谷好記, 津下健哉, 片山昭太郎, 黒瀬靖朗, 福原宏平, 長尾 彰, 山本健之: 重度身体障害者の介護中に生じた大腿骨骨折の原因と予防について. 総合リハ 1989; **17**: 207-210
- 6) Brunner R, Doderlein L: Pathological fractures in patients with cerebral palsy. J Pediatr Orthop Part B 1996; **5**: 232-238
- 7) 石原 昂, 大石敬子: 重症心身障害のリハビリテーション. 神経進歩 1975; **19**: 334-340
- 8) Lee JJK, Lyne ED: Pathologic fractures in severely handicapped children and young adults. J Pediatr Orthop 1990; **10**: 497-500
- 9) 数馬欣一, 斎藤 篤, 斎藤敏郎: 重度心身障害児の骨折に関する臨床的 X 線学的観察. 小児科臨床 1982; **35**: 2815-2827
- 10) 中村利孝, 吉川靖三, 黒川高秀, 二ノ宮節夫, 高木道人, 中村千行, 岡野一年: 抗痙攣剤長期服用中にみられた骨軟化症の 1 例. 関東整災誌 1976; **7**: 279-285