大腿骨骨幹部骨折の治療に難渋した骨 Paget 病の 1 例

岸 本 勇 二* 岡 野 徹* 豊 島 良 太*

Paget's Disease of Bone with Pathological Shaft Fracture
of Femur: A Case Report

Yuji Kishimoto*, Toru Okano*, and Ryota Teshima*

【目的】大腿骨骨幹部骨折をきたし、その観血的治療に難渋した骨 Paget 病の 1 例を報告する。
 【症例】74 歳、女性。65 歳時に骨 Paget 病と診断され、リセドロネートを処方されていたが、転倒し、右大腿部痛をきたした。単純 X 線で著明な bowing deformity を伴う大腿骨の骨幹部骨折を認め、骨 Paget 病に合併した病的骨折と診断した。Ender 釘による骨接合を実施したが偽関節となったため、受傷 7 ヶ月後にケーブルプレートと腸骨移植による偽関節手術を追加した。しかし、やはり骨癒合が得られず、受傷 23 ヶ月後にアノミカル形状を有する髄内釘と腓骨移植による偽関節再手術を実施した。その後、良好な骨癒合が得られ、現在は疼痛なく歩行可能である。【考察】偽関節形成の一因として、大腿骨の著明な bowing deformity と固定性不良が考えられ、著明な変形を伴う骨 Paget 病の骨折に対しては、強固な固定性の獲得と、適切なインプラントの選択が重要と思われた。

We report a patient with Paget's disease of bone complicated a pathological fracture of the femur. A 74-year-old female who had been diagnosed with Paget's disease of bone at the age of 65 years visited our hospital due to thigh pain. We found a shaft fracture of the femur which had remarkable bowing deformity. She underwent osteosynthesis using Ender nail, but developed an established non-union. Seven months later, we performed cable plate fixation with iliac bone graft. However, bone union was not complete, thus another procedure using anatomical intramedullary nailing with peroneal bone graft was required 23 months after the primary surgery. Inadequate stability of osteosynthesis and the bowing deformity of the femur were the causes of non-union. This case suggests that sufficient stabilization with proper implant is important for treating fractures with bone deformity in Paget's disease of bone.

Key words : Paget's disease of bone (骨 Paget 病), femoral fracture (大腿骨骨折), osteosynthesis (骨接合術)

は じ め に

症 例

骨 Paget 病は、骨リモデリングとモデリングの異常により、骨の腫大・変形・疼痛などの症状を呈する疾患であり、わが国での有病率は 2.8 人/100 万人と極めて稀な疾患である²⁾。

今回、大腿骨骨幹部の病的骨折をきたし、その観血的治療に難渋した骨 Paget 病の 1 例を経験したので報告する。

患者：74 歳、女性。

主訴：右大腿部痛。

既往歴・家族歴：特記すべき事項なし。

現病歴と経過：65 歳時に、特に誘因なく右大腿部痛、背部痛を生じたため、当科受診。血清アルカリフォスファターゼは 2,057 IU/L (基準値 295 IU/L 以下) と著明高値を示しており、典型的な単純 X 線所見と骨シンチグラムより骨 Paget 病と診断した (図 1)。診断後、エチドロネート 400 mg/日の 6 ヶ月投与—

* 鳥取大学医学部附属病院整形外科 Department of Orthopaedic Surgery, Faculty of Medicine, Tottori University, Tottori, Japan

図1 初診時検査所見

- a. 骨シンチ：頭蓋骨，骨盤，および右大腿骨などに集積を認める。
 b. 頭蓋骨 Xp：斑状の骨硬化像と骨吸収像が混在し cotton wool appearance を呈している。
 c. 股関節 Xp：右大腿骨には骨透亮像と硬化像の混在と，bowing deformity を認める。

6 ヶ月休薬を開始，その7年後からはリセドロネート 2.5 mg/日の連日投与へと変更した。

治療開始より9年後の74歳時に転倒し，右大腿部痛を生じた。単純X線にて bowing deformity を伴う大腿骨の骨幹部に横骨折を認め（図2-a），骨 Paget 病に合併した病的骨折と診断した。第7病日に Ender 釘2本による骨接合術を実施したが，bowing deformity の凸側である外側骨皮質に骨欠損を残す結果となった（図2-b）。

その後，低出力超音波療法を併用したものの，右大腿部痛が続き，単純X線上も偽関節形成と判断されたため（図2-c），受傷7ヵ月後に偽関節手術を実施した。術中，骨折部の内側は骨性の連続性が得られていたが，外側は瘢痕組織が充満しており，骨折部には異常可動性を認めた。新鮮化ののち，腸骨より採取した自家骨を移植，ケーブルプレートによる固定を追加した（図2-d）。

偽関節手術後，疼痛は軽減し，歩行も可能となったが，ときに右大腿部に激痛を生じるとのことであった。偽関節手術後15ヵ月時点の単純X線で，いまだ骨折線は明瞭であり，また外側には骨欠損が認められたた

め（図2-e），骨癒合が得られていないものと判断，偽関節手術より16ヵ月後（初回手術より23ヵ月後）に腓骨移植とアナトミカル形状を有する髓内釘（Sirius intramedullary nailing system®, Zimmer）による偽関節再手術を実施した（図2-f）。その後，良好な骨癒合が得られ，現在は疼痛なく歩行可能である（図2-g）。

考 察

骨 Paget 病は，欧米では一般的な疾患として知られるが，わが国では極めて稀な疾患である。2002年に日本骨粗鬆症学会が行った全国調査によると，通院中の日本人症例は193例であり，うち二次調査が可能であった169例のうち，大腿骨罹患は46例，さらに骨折合併例に限れば，わずか10例のみと報告されている²⁾。また我々が調べた限りでは，骨 Paget 病の大腿骨病的骨折に対し観血的治療を行った報告は，本邦において，わずか4例であった（表1）^{1) 3) 5) 7)}。

自験例では骨癒合が得られるまで複数回の手術を要した。本邦における他の報告でも，複数回手術を要したもの，あるいは再骨折や遷延癒合など術後経過に問

図2 単純X線像

- a. 受傷時
- b. 初回手術直後
- c. 初回手術より7ヵ月後
- d. 偽関節手術直後
- e. 偽関節手術より15ヵ月後
- f. 偽関節再手術直後
- g. 現在(受傷より53ヵ月後)

表1 本邦における骨 Paget 病の大腿骨骨折に対する観血的骨接合の報告

報告者	報告年	骨折部	インプラント	経過
張ら ¹⁾	1991	骨幹部	プレート	遷延癒合
片山ら ²⁾	1998	転子下	髄内釘	再骨折
谷本ら ⁷⁾	2001	転子下	Ender 釘⇒髄内釘	再骨折
三崎ら ⁵⁾	2005	骨幹部	髄内釘	
自験例	2009	骨幹部	Ender 釘⇒ケーブルプレート⇒髄内釘	偽関節

題を生じたものなどがみられ、骨 Paget 病に合併した大腿骨病的骨折の治療の難しさがうかがえる。一方、症例数が豊富な欧米にあっては、矯正骨切りを行ったうえで髄内釘や創外固定器で固定する方法や⁶⁾、イリザロフ創外固定器を用いる方法が報告されている⁴⁾。

今回、自験例が偽関節にいたった原因として、固定性不良と、著明な bowing deformity の存在があげられる。すなわち、bowing 著明な長管骨の骨折では、凹側に圧迫力が加わる一方で、凸側においては伸延力が加わり続ける。可撓性を特徴とする Ender 釘では

伸延力に抵抗することは不可能であり、また外側に設置したケーブルプレートでも伸延力を十分に減ずることはできなかったのではないかと考えた。最終的には、前彎とラテラリゼーションを有するアノミカル形状の髓内釘を用いることで、bowing の矯正と強固な固定性が得られ、骨癒合を獲得できた。骨 Paget 病の病的骨折に対する骨接合術にあつては、変形や骨折部位など局所要因を十分に考慮した上で、適切なインプラントを選択し、強固な固定性を得ることが重要であると思われた。

ま と め

- 1) 大腿骨骨幹部骨折の治療に難渋した骨 Paget 病の一例を報告した。
- 2) 偽関節形成の原因は、大腿骨の bowing deformity と、固定性不良にあると思われた。
- 3) 適切なインプラントの選択と、強固な固定性の獲得が重要と考えられた。

参 考 文 献

- 1) 張 敬範ら：大腿骨骨幹部骨折を伴った骨 Paget 病の一例。整外と災外，39：1322-1325，1991.
- 2) 橋本 淳ら：わが国における骨 Paget 病の有病率と臨床的特徴。Osteoporosis Japan，15：241-245，2007.
- 3) 片山理恵ら：大腿骨骨折の髓内釘手術後に再骨折した骨 Paget 病の 1 例。整形外科，49：1373-1376，1998.
- 4) Louette, L., Lammens, J., Fabry, G.: The Ilizarov external fixator for treatment of deformities in Paget's disease. Clin. Orthop. Relat. Res., 323：298-303, 1996.
- 5) 三崎智範ら：病的骨折をきたした骨 Paget 病の 2 例。中部整災誌，48：189-190，2005.
- 6) Parvizi, J., et al.: Corrective osteotomy for deformity in Paget disease. J. Bone Joint Surg. Am., 85：697-702, 2003.
- 7) 谷本幸洋ら：両側大腿骨骨折をきたした骨 Paget 病の 1 例報告。関東整災誌，32：58-61，2001.