血管柄付骨移植を用いて治療した 先天性脛骨偽関節 10 例の検討

琉球大学整形外科

金 谷 文 則・茨 木 邦 夫

新 垣 晃・普天間 朝 上

新 垣 勝 男

Louisville Hand Surgery

Tsu-Min Tsai

Vascularized Bone Graft for the Congenital Pseudoarthrosis of the Tibia

by

Fuminori Kanaya, Kunio Ibaraki, Akira Arakaki,
Chojo Futenma and Masao Arakaki

Department of Orthopedic Surgery,
University of the Ryukyus School of Medicine

Tsu-Min Tsai

Louisville Hand Surgery, USA

The long term follow-up of 10 patients with congenital pseudoarthrosis of the tibia treated by vascularized bone graft are reported here. 7 patients were female, and 3 were male. All were classified initially as Boyd's Type 2 pseudoarthrosis. The age at clinical presentation ranged from birth to 6 years old. 7 patients had had 11 previous surgeries prior to vascularised bone grafting, the unions having failed, they were referred to us. The age at vascularized bone grafting ranged from 2 to 13 years. 8 patients had a vascularized fibula graft (VFG) to fill a defect ranging from 6 to 13cm in size. Two patients, one who was a first case of vascularized bone graft, and the other who had a defect of the contralateral fibula caused by a previous surgery, had a vascularized rib graft (VRG).

All the patients except two showed a primary bone union within four months. One VFG and one VRG failed to unite at the proximal junction with the tibia. The VRG nonunion united after receiving a conventional bone graft, but the VFG one failed to unite. As the family refused any further surgery, this case was classified as a failure and continues to wear a brace. The follow-up was from 5 to 12 years. 8 spontaneous fractures were seen in 4 patients who had been successfully treated with conventional bone grafts. Two patients received osteotomies to correct angulation deformities. The leg length discrepancy ranged from 1 to 6cm and averaged 3.8cm. Patients with VRG tended to develop angulation deformities. In spite of several complications, vascularised fibular grafting may be the most reliable technique in achieving bone union in congenital pseudoarthrosis of the tibia.

はじめに

先天性脛骨偽関節，なかでも脛骨の前方屈曲と砂時計様狭窄を示す Boyd の Type 2 型は最も骨癒合を得るのが困難な偽関節のひとつである²⁾。この先天性脛骨偽関節に対し従来は Dual bone graft 法¹⁾，Bypass graft 法⁴⁾，Cross-leg graft 法³⁾そして埋め込み式電気刺激法⁷⁾が用いられてきたが一般にその成績は不良であった。近年血管柄付腓骨移植により良好な結果が得られたとする報告が見られるが長期成績の報告は少ない¹⁰⁾。今回，血管柄付骨移植を用いて治療し5年以上経過した10例につき検討した。

症 例

1971 年より Louisville Hand Surgery にて血管柄付骨移植を用いて治療し5年以上経過した先天性脛骨偽関節は男3例，女7例の10例であった。レ線所見は全例 Boyd の type 2 型であり2例に骨嚢腫を合併していた。初発骨折年齢は生下時から6才，平均18カ月であった。10例中7例に Café au lait spots の合併がみられたが他の骨病変は見られなかった。全例とも他の医療機関で治療を受け骨癒合が得られないため当科に紹介された。血管柄付骨移植術を受ける前の治療法としては全例がギプスまたは装具療法を受け，骨接合術または骨移植術をうけたものが10例中7例，電気刺激療法を受けていたものが5例であり従来の治療法による治療期間は1年3月から6年11カ月であった。

血管柄付骨移植を行った手術時年齢は1才11月から12才11カ月，平均4才4カ月であった。内訳は，血管柄付腓骨移植術を8例に行い，血管柄付肋骨移植術を最初の例と他医にて対側の腓骨移植を受けていた例の2例に行った。手術法としては偽関節部を含めて増殖した線維組織を切除し骨欠損部を対側の血管柄付腓骨または2本の血管柄付肋骨で補填した。骨接合法はスクリュー固定4例，プレート固定4例そして髓内釘固定2例であった。腓骨採取側は足関節の不安定性を予防する目的で遠位脛腓骨癒合術を行った。

移植骨の血流を最初の例を除く9例では Monitoring flap を用い，また初期の5例では術後48時間以内にシンチグラムを行い確認した。血管柄付腓骨移植を用いた8例では，移植骨の長さは6-13 cm，平均8.5

cm であった。血管柄付肋骨移植を行った2例の移植骨長は各々4 cm と7 cm であった。術後はギプスを装着し現在全例装具を装着中である。

術後経過観察期間は5年から11年10カ月，平均7年2カ月であり調査時年齢は7才から14才7カ月，平均11才であった(表1)。

結 果

血管柄付腓骨移植を行った8例のうち7例では一期的に骨癒合が得られた(図1)。1例では近位脛骨の骨吸収が見られ偽関節となった。骨移植術の追加にても骨癒合が得られず再手術を希望しないため装具を装着し経過観察中である(症例7)。移植腓骨癒合後3例に6回の骨折を生じ，2例は移植骨中央部での骨折であり両者ともギプスにて骨癒合が得られた。他の1例は合併した脛骨近位の骨嚢腫部で骨折を生じ2回の骨移植にて癒合したが6.2 cm の下肢短縮と46°の外反変形を来した(症例2)。進行する屈曲変形は2例にみられ1例には骨切り術を行い，他の1例は現在経過観察中である(症例1，4)。なお腓骨遠位部偽関節を合併し足関節動揺性を示した1例に対し遠位脛腓骨癒合術を行った。遺残変形として骨短縮は1-6.2 cm，平均3.5 cm，屈曲変形は4-48度，平均16度，外反変形は10-46度，平均24度であった。

血管柄付肋骨移植のうち移植骨が4 cm の例では一期的に骨癒合を得た。しかしスクリュー抜釘後遠位脛骨部で骨折し骨癒合には3回の骨移植を要した。その後屈曲変形に対し骨切り術を行ったが現在も35°の屈曲変形と20°の外反変形が残存している(症例9，図2)。移植骨が7 cm の例では近位部が脛骨の吸収のため偽関節となり腸骨移植の追加により骨癒合が得られた。遠位部腓骨偽関節による足関節動揺性に対し遠位脛腓骨癒合術を行い，下肢短縮に対しては Ilizarov 法による下肢延長術を行った(症例10)。

考 察

先天性脛骨偽関節に対し従来 Dual bone graft 法，Bypass graft 法，Cross-leg graft 法そして電極埋め込み式電気刺激法などが用いられてきた。Masserman は36例の先天性脛骨偽関節に従来の治療法を行い15例，42%に骨癒合を得たが，17例，47%では骨癒合が得られず切断したと報告した⁵⁾。Morrissey は40

表1 症例の概要

症例	性別/左右	初発骨折	手術時年齢	移植骨長	骨癒合後骨折	二次手術	経過期間	遺残変形		
								短縮	屈曲	外反
1	男/左	6才	12才11ヵ月	VFG 10 cm	0	骨切り3回	6年1ヵ月	4.7 cm	15°	10°
2	*女/左	1才10ヵ月	6才	VFG 8 cm	2回	骨移植2回	8年7ヵ月	6.2 cm	8°	46°
3	女/左	6ヵ月	3才1ヵ月	VFG 13 cm	1回	なし	5年8ヵ月	1.0 cm	15°	10°
4	男/右	3才	4才2ヵ月	VFG 9 cm	0	なし	7年2ヵ月	2.0 cm	48°	17°
5	女/右	4ヵ月	2才7ヵ月	VFG 7 cm	3回	DTF	8年2ヵ月	4.0 cm	5°	10°
6	男/左	2才	3才3ヵ月	VFG 10 cm	0	なし	8年6ヵ月	3.3 cm	14°	35°
7	**女/左	9ヵ月	3才3ヵ月	VFG 6 cm	近位部偽関節	骨移植	5年8ヵ月	—	—	—
8	女/右	7ヵ月	2才8ヵ月	VFG 11 cm	0	なし	5年1ヵ月	3.4 cm	4°	40°
9	女/左	生下時	3才4ヵ月	VRG 4 cm	1回	骨移植3回 骨切り1回	11年10ヵ月	4.5 cm	35°	20°
10	女/左	生下時	1才11ヵ月	VRG 7 cm	0	骨移植 (偽関節部) DTF Ilizarov 法	5年	5.0 cm	37°	10°

* 脛骨近位部囊腫合併例：囊腫部で骨折し著明な下肢短縮と外反変形をきたした。

** 移植腓骨近位部偽関節例：追加手術を希望しないため装具を装着し経過観察中である。

VFG : vascularized fibular graft

VRG : vascularized rib graft

DTF : distal tibio-fibular synostosis

A

B

図1 症例3. 血管柄付腓骨移植. 手術時年齢3才1ヵ月

A. 初診時レ線(2才11ヵ月) Boyd Type 2型の先天性脛骨偽関節を認める.

B. 検診時レ線(術後5年8ヵ月)移植腓骨は横径の肥大が見られ脚長差は1.0 cmであり屈曲変形は15°, 外反変形は10°であった.

図2 症例9. 血管柄付肋骨移植. 手術時年齢3才4ヵ月, 術後11年10ヵ月で脚長差は4.5 cmであり屈曲変形は35°, 外反変形は20°であった.

例に 169 回の骨移植を行い、切断および成績不良例が 22 例 55%であったと報告した⁶⁾。Masserman や Morrissy の報告には骨癒合が比較的得られやすい Boyd の Type 3 型や 4 型が含まれているため最も骨癒合を得るのが困難とされている 2 型のみ骨癒合率は従来の治療法ではさらに低値を示すと思われる。

Weiland¹⁰⁾ は先天性脛骨偽関節に対し Taylor⁹⁾ が報告した血管柄付腓骨移植を 19 例に行った結果 13 例では 1 期的に骨癒合が得られ、6 例に対し 9 回の骨移植を追加し最終的には 18 例に骨癒合が得られたと報告した。本邦では玉井⁸⁾ が本疾患 11 例に対し血管柄付腓骨移植術を行い 5 例に 7 回の骨移植を追加することにより最終的には全例に骨癒合が得られたと報告した。本疾患になぜ骨癒合の遷延あるいは偽関節が好発するかは不明であるが、私たちの症例では偽関節となった 2 例では移植骨は残存したが脛骨の吸収像が見られたことから脛骨の切除が不十分で病的部分が残存したためと考えられた。一方、他医で手術された例で移植骨が急速に吸収された例があることから周囲の増殖した線維組織による骨吸収も考えられるため、脛骨および周囲の線維組織を十分切除することにより、最近の症例では一期的に骨癒合が得られている。骨癒合後の骨折は 4 例に見られたがうち 2 例は移植骨中央部での骨折でありギブスにて骨癒合し、いわゆるストレス骨折と考えられた。残りの 2 例のうち 1 例は合併した脛骨近位骨囊腫部での病的骨折であり Boyd の Type 4 型の合併例と考えられ 2 回の骨移植により骨癒合を得たが著名な下肢短縮と外反変形をきたし現在 Ilizarov 法による脚延長術と変形矯正を考慮している。他の 1 例は血管柄付肋骨移植例で抜釘後にスクリュー穴より骨折し、現在 4.5 cm の下肢短縮、35°の屈曲変形と 20°の外反変形があり前者と同様に Ilizarov 法による矯正を考慮している。本症例は骨癒合後も骨折や変形が発生する傾向があるため骨囊腫合併例や抜釘後は長期間の装具による保護が必要と考えている。

血管柄付移植骨の選択として腓骨と肋骨が考えられる。私たちは最初の例と他医で腓骨を既に移植されていた例に血管柄付肋骨移植を行った。肋骨はその湾曲した形状のため強固な固定を得ることが困難でありさらに長い移植骨を採取すると湾曲が高度となり、骨癒合後も屈曲変形をおこす傾向があるため先天性脛骨偽関節には血管柄付腓骨移植が第一選択と考えている。

下腿の屈曲変形の原因として手術時の不十分な変形の矯正による遺残変形や腓骨部に残存する線維組織や下腿三頭筋の張力による 2 次的な変形が考えられる。本症例では術直後の変形の自家矯正が見られなかったこと、成長期に屈曲変形が進行する傾向があったことから両者の関与を考え、最近では腓骨部の線維組織を十分解離し手術時に十分な変形矯正を行っている。

ま と め

先天性脛骨偽関節 10 例を血管柄付骨移植を用いて治療し 8 例で 1 期的骨癒合が得られ、2 例の偽関節のうち 1 例では追加骨移植により骨癒合を得た。

文 献

- 1) Boyd, H.B.: Congenital Pseudoarthrosis, Treatment by Dual Bone Graft. J. Bone and Joint Surg., 23 : 497-515, 1941.
- 2) Boyd, H.B. and Fox, K.W.: Pathology and Natural History of Congenital Pseudoarthrosis of the Tibia. Clin. Orthop., 166 : 5-13, 1982.
- 3) Farmer, A.W.: The Use of a Composite Pedicle Graft for Pseudoarthrosis of the Tibia. J. Bone and Joint Surg., 34-A : 591-600, 1952.
- 4) MacFarland, B.: Pseudoarthrosis of the Tibia in Childhood. J. Bone and Joint Surg., 33-B : 36-46, 1951.
- 5) Masserman, R.L. et al.: Congenital Pseudoarthrosis of the Tibia. A Review of the literature and 52 cases from the Mayo Clinic. Clin. Orthop., 99 : 140-145, 1974.
- 6) Morrissy, R.T. et al.: Congenital Pseudoarthrosis of the Tibia. J. Bone and Joint Surg., 63-B : 367-375, 1981.
- 7) Paterson, D.C. and Simonis, R.B.: Electrical Stimulation in the Treatment of Congenital Pseudoarthrosis of the Tibia. J. Bone and Joint Surg., 67-B, 454-462, 1951.
- 8) 玉井進：先天性四肢長管骨偽関節に対する血管柄付腓骨移植術の経験。整・災外, 32 : 27-35, 1989.
- 9) Taylor, G.I. et al.: The Free Vascularized Bone Graft. A Clinical Extension of Microvascular Techniques. Plast. and Reconstr. Surg., 55 : 533-544, 1975.
- 10) Weiland, J.W. et al.: Vascularized Fibular Graft in the Treatment of Congenital Pseudoarthrosis of the Tibia. J. Bone and Joint Surg., 72-A : 654-662, 1990.

質 問 福岡市立こども病院 高嶋 明彦

①術後の脚長差

② Ilizavov 法としての仮骨の状態についてお教え下さい.

解 答

琉球大学 金谷 文則

① 脚長差は平均 3.5 cm であり脛骨囊腫部 (Boyd

type 4 合併例) で骨折し 6.2 cm の短縮を遺したもの以外は全例 5 cm 以下です.

② 下肢延長は発表例 1 例のほかに 1 例に行いましたが, 年小例では骨延長部で偽関節となり, 脚延長術は成長終了後がよいという印象を持っています.