

筑波大学附属病院での先天性股関節脱臼
症例の背景と治療方針の確立

2013

筑波大学大学院博士課程人間総合科学研究科

竹内亮子

筑波大学

博士（医学）学位論文

筑波大学附属病院での先天性股関節脱臼
症例の背景と治療方針の確立

2013

筑波大学大学院博士課程人間総合科学研究科

竹内亮子

目次

第1章 序論	6
1.1 先天性股関節脱臼	6
1.2 発症要因	7
1.3 臨床所見	7
1.3.1 新生児期	7
1.3.2 乳児期	8
1.3.3 幼児期以降	9
1.4 画像所見	9
1.5 治療方法	11
1.6 整復不良に関連する因子	13
1.7 臼蓋形成	14
1.8 遺残性亜脱臼	15
第2章 研究の課題と目的	17
2.1 筑波大学附属病院での先天性股関節脱臼治療について	17
2.2 先天性股関節脱臼発症の背景	18
2.3 単純X線における経時的変化	18
2.4 MRIによる骨性臼蓋形成の予測	18

2.5 良好群の予後調査	19
第3章 倫理的配慮	20
3.1 研究の対象となる個人の人権擁護（研究 1-4）	20
3.2 対象者への説明と研究参加への同意（研究 4）	20
3.3 倫理委員会の承認	20
第4章 筑波大学附属病院における先天性股関節脱臼症例の背景（研究 1）	21
4.1 対象・方法	21
4.1.1 対象	21
4.1.2 調査項目	21
4.1.2.1 診断による分類	21
4.1.2.2 先天性股関節脱臼症例の背景	22
4.1.2.3 治療方法	23
4.1.2.4 経過	23
4.1.2.5 統計学的手法	23
4.2 結果	23
4.2.1 全症例の内訳	23
4.2.2 治療方法の内訳	26
4.2.3 現在の状態	26

4.3 考察	28
4.4 小括	30
第5章 先天性股関節脱臼におけるX線の経時的変化 (研究2)	32
5.1 対象・方法	32
5.1.1 対象	32
5.1.2 方法	32
5.1.3 良好不良群の分類	33
5.1.4 統計学的手法	34
5.2 結果	34
5.2.1 最終診察時の評価	34
5.2.2 臼蓋角の経時的変化	34
5.2.3 CE角の経時的変化	35
5.2.4 臼蓋角・CE角のカットオフ値	36
5.3 考察	38
5.4 小括	39
第6章 MRIによる骨性臼蓋発育の予測 (研究3)	40
6.1 対象・方法	40
6.1.1 対象	40

6.1.2 MRI撮像方法	40
6.1.3 MRI計測方法	41
6.1.4 単純X線計測	42
6.1.5 良好不良群の分類	42
6.1.6 統計学的手法	42
6.2 結果	42
6.2.1 最終調査時の評価	42
6.2.2 軟骨性臼蓋角、軟骨性CE角	43
6.3 考察	46
6.4 小括	48
第7章 2歳時に良好と判断された患者の予後調査 (研究4)	49
7.1 対象・方法	49
7.1.1 対象	49
7.1.2 アンケート調査	49
7.1.3 X線評価	52
7.1.4 統計学的手法	52
7.2 結果	52
7.3 考察	56

7.4 小括	58
第8章 総括	59
8.1 当院の治療方針	59
8.2 小児股関節検診に際して	59
8.3 超音波診断	61
8.4 リーメンビューゲルの適応と装着期間	62
8.5 2歳時の単純X線判断基準	64
8.6 臼蓋形成能の予測について	64
第9章 結論	67
参考文献	68

第1章 序論

1.1 先天性股関節脱臼

先天性股関節脱臼は関節包の過度の弛緩性により大腿骨頭を臼蓋に維持できない状態であり、寛骨臼、大腿骨頭、股関節周囲軟部組織の状態から 1969 年 Dunn により正常、大腿骨頭の軽度外方化、軽度の臼蓋形成不全を有する grade I (positionally unstable hip)、大腿骨頭は外方化するが、臼蓋縁に接する grade II (subluxation)、骨頭は後外方へ変位し臼蓋の外に位置する grade III (dislocation) に分類された[1] (図 1)。

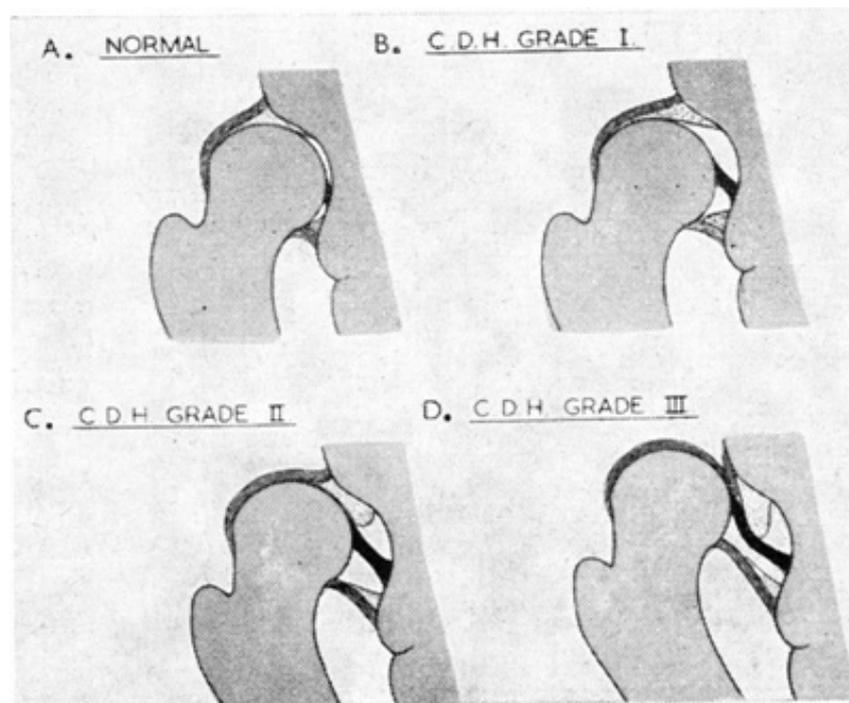


図 1 Dunn の分類 文献[1]より引用

- A. 正常
- B. 骨頭は球形でごく軽度外方化する。関節唇の変形はほとんどない。軽度の臼蓋形成不全を有する。
- C. 骨頭は外方化し、臼蓋縁に接する。関節唇は変形、萎縮、関節包は外上方へ引き伸ばされる。
- D. 骨頭が後外方へ変位し臼蓋の外に位置する。関節唇の内反著明となる。

かつて、欧米では congenital dislocation of the hip (CDH) という病名が使用されていたが、関節弛緩と臼蓋形成不全に加えて、出生後に適切でない環境や肢位（腸腰筋やハムストリングスが緊張する股関節、膝関節伸展位）におかれると後天的に脱臼をおこす、という説が支配的となり、現在では亜脱臼や脱臼をきたす可能性を有する臼蓋形成不全も含めて developmental dysplasia of the hip (DDH) という病名が一般化している。日本では慣習的に先天性股関節脱臼という病名を現在も使用することが多い[2]。

1.2 発症要因

発症の要因として、妊娠時の骨盤の拡張に必要な relaxin hormones の影響を受けやすい女児、骨盤位は特に膝伸展位となる単殿位で、過期産、巨大児は羊水過小となり脱臼のリスクとなると報告されている[3][4]。遺伝的要素としては家族歴の他に、地理的分布や民族による素因などがあげられている[5]。また、冬生まれ、おむつ、着衣、育児法（抱き方、ベビースリングなど）、向き癖などが後天的要因として脱臼発症に影響を与えられている[2]。

1.3 臨床所見

1.3.1 新生児期

股関節、膝関節をそれぞれ 90 度屈曲し、外転を強めていき、診察台に垂直なラインから

の角度を開排角と称する[6]。脱臼股は開排制限があり、左右非対称である（図 2）。また、股関節を開排しながら、検者の指で新生児の大転子を軽く押したとき、あるいは股関節を90～100 度屈曲して、大腿骨軸方向や外方へ軽く押し込んだときに指に音を感じる。これをクリックという。クリックは脱臼した大腿骨頭が寛骨臼に整復される、または脱臼させられる際の後方臼蓋を乗り越えるときに生じる所見である。

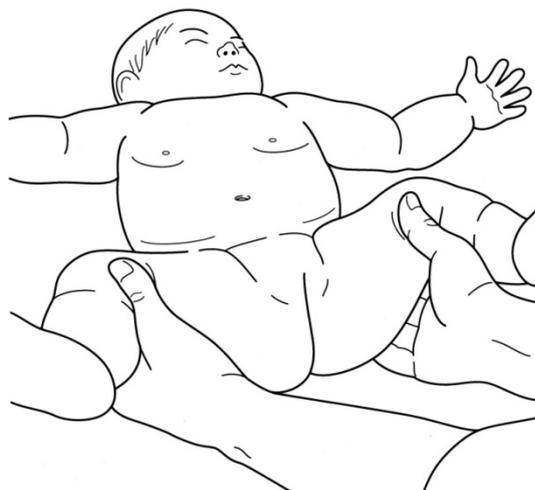


図 2 開排角度の計測 文献[6]より引用

1.3.2 乳児期

開排制限の他に、大腿内側の皮膚溝の左右差が見られる（図 3）。大腿内側の皮膚溝は、通常はあっても 1 本か 2 本であるが、大腿骨頭が頭側に移動することによって皮膚溝は増加する。また、仰臥位で、両膝を最大屈曲しながら股関節を屈曲して両膝をそろえ、左右の膝の高さが異なる Allis 徴候がみられる（図 4）。

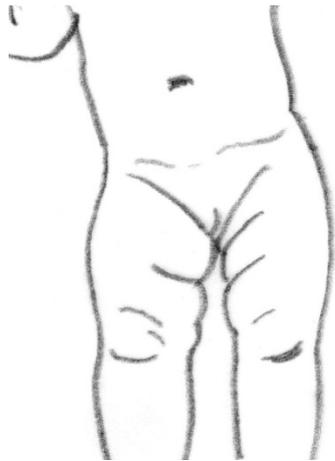


図3 大腿皮膚溝の左右差
文献[7]より引用



図4 Allis 徴候陽性
文献[6]より引用

1.3.3 幼児期以降

歩行を始めた幼児期では、前述した臨床症状のほかに、歩行遅延、跛行がある。片側脱臼では、大転子が中枢に上がるため中・小殿筋の機能不全が起こり、患肢で片足立ちすると健側の骨盤が落ちる Trendelenburg 徴候と、下肢の短縮によって墜下性跛行をしめす。両側脱臼では、臀部が後方に張り出し、腰椎の前弯が強くなる。歩容はよちよち歩きでアヒル様歩行 (ducklike waddle) とよばれる[7]。

1.4 画像所見

Y 軟骨が存在する小児期では単純 X 線写真における両側股関節正面像で、両股関節の Y 軟骨部を結ぶ線を Hilgenreiner 線 (図 5-①) とよぶ。Hilgenreiner 線に対して、臼蓋嚢を通る垂線を Ombredanne 線 (図 5-②) という。正常の大腿骨頭の大部分は Ombredanne

線より内側にあり、脱臼骨頭は外側に位置する。正常股関節においては、閉鎖孔の上縁（恥骨の内下縁）をなす曲線を上外側に延長すると、大腿骨頸部の内縁に一致する。この線を Shenton 線（図 5-③）と称し、脱臼股ではこの 2 つの線の連続性がなく乱れる。また、正常股関節においては、腸骨外縁をなす曲線と大腿骨頸部外縁をなす曲線はほぼ一致する。この線を Calve 線（図 5-④）と称し、脱臼股関節ではこの線が乱れる。

また、Hilgenreiner 線と、腸骨下端と臼蓋嘴を結んだ直線のなす角が臼蓋角（ α 角）である（図 5-⑤）。この角度が急峻になり 30 度以上の場合一般的に臼蓋形成不全と称される。また、骨頭中心と臼蓋嘴を結ぶ線と、Hilgenreiner 線との垂線とのなす角が CE 角（図 6-①）であり、臼蓋形成不全や求心性が不良であるとその角度が小さくなる。骨端核出現前の症例では骨端部近位中央を骨頭中心の代わりとして OE 角[8]とする（図 5-⑥）。

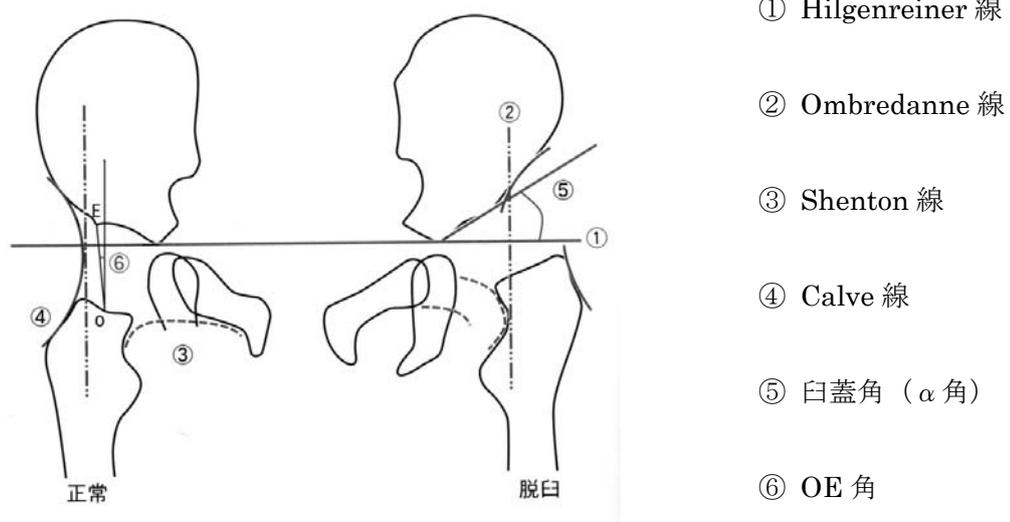


図 5 股関節正面 X 線像（骨端核出現前） 文献[7]より引用

Y軟骨は11～15歳ころ閉鎖するため、Y軟骨が閉鎖した後の単純X線では涙痕下端と臼蓋外側縁とを結ぶ線と、両側涙痕下端を結ぶ線とのなす角を測定し、これをSharp角と称する(図6・②)。

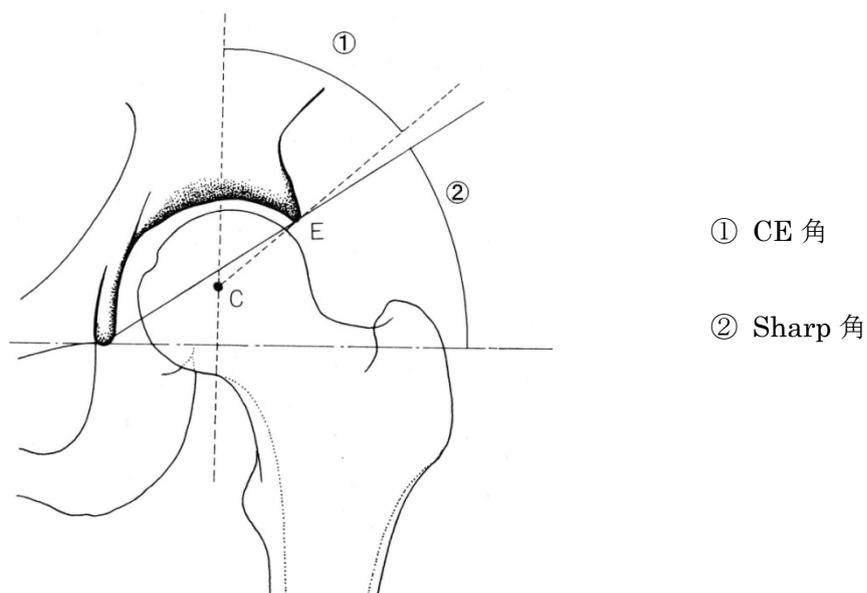


図6 左股関節正面単純X線像(骨成熟後) 文献[9]より引用

1.5 治療方法

わが国では乳児期の保存療法としてまずリーメンビューゲル(図7、8)が選択されることが多い。リーメンビューゲルはチェコスロバキアのPavlik[10]により開発され、1958年鈴木[11][12]により本邦に導入された。リーメンビューゲルの整復のメカニズムについてはさまざまな説がある。Pavlikは股関節の外転運動による股関節内転筋群の緊張の低下が整復の前提であるとし、Mittelmeier[13]はリーメンビューゲルを装着して足部のあぶみを蹴ることによって、大腿四頭筋の伸展作用が股関節方向に大腿を押し出す力となり整復に導かれ

るとした。鈴木[14]は下肢の重量によって内転筋が引きのばされて拘縮が消失し整復されると述べている。

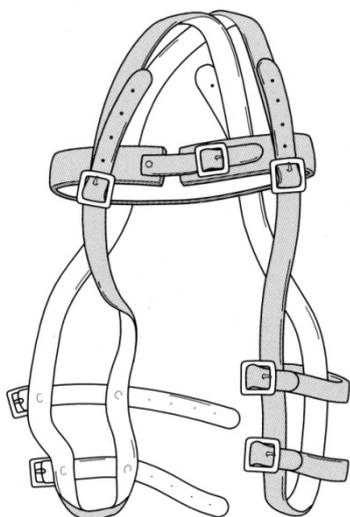


図7 リーメンビューゲル
文献[12]より引用

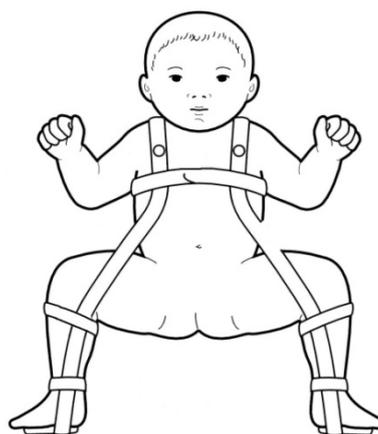


図8 リーメンビューゲル装着図
文献[15]より引用

リーメンビューゲルで整復が得られない症例や、診断が遅れた例に対しては、牽引療法が選択される場合もある。牽引を徒手整復前の前段階として用いる方法と、牽引のみで脱臼を整復に導く方法がある。本邦では石田[16]による股関節、膝関節を屈曲して牽引し、その後膝関節を伸展し、股関節の屈曲を強め、さらに外転を加える方法が発表された。

リーメンビューゲルや牽引で整復が得られない症例、診断が遅延した症例などは、徒手整復術が行われる。徒手整復は全身麻酔下に行われることが一般的であり、整復後は安定が得られれば、ギブスや装具にて固定する。

徒手整復で整復不能または易脱臼性のある症例に対しては、観血的整復術を行う。以前

は内側侵入にて整復障害因子の処置を行う Ludloff 法[17]がよく行われたが、長期成績が不良な報告も多く[18][19][20]、最近ではすべての整復障害因子や関節包を切除・切離して、より良い骨頭の求心位を得る広範囲展開法[21]が行われることが多い。

1.6 整復不良に関連する因子

脱臼が継続すると関節内に二次性的変化が生じる。臼蓋底の厚い脂肪組織（pulvinar）、肥厚した円靭帯は臼蓋内のスペースを占領し、横靭帯も肥厚し整復を障害する。下方の関節包は癒着し、砂時計状に狭小化している。後方から上方の関節唇は整復に際し、臼蓋と大腿骨頭の間挟まりこみ整復を障害する[3]（図9）。

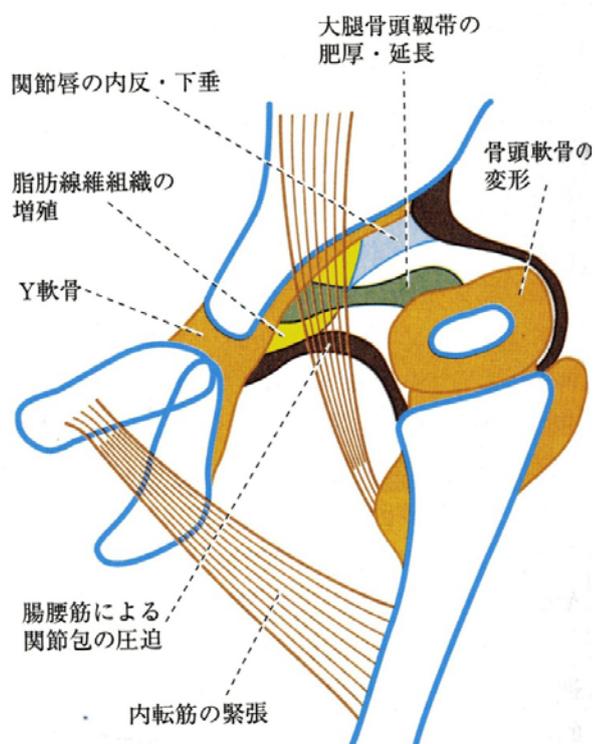


図9 整復障害因子 文献[22]より引用

Mitchel[23]は1963年関節造影にて、内反した関節唇を整復障害因子として描出し、Bosら[24]はMRIにて内反した関節唇、癒着した関節包、肥厚した円靭帯、白蓋底の脂肪組織、横靭帯、緊張した腸腰筋などを報告した。

なお、整復障害因子である関節唇について、われわれは3D MRIを使用し評価を試みている[25]。関節唇を三次元的に描出することで、関節唇の形態や大きさ、整復を障害する可能性を確認している。関節唇の大腿骨入口部の直径を計測したところ、観血的整復術が必要であった症例では、麻酔下徒手整復により整復が可能であった症例に比較して骨頭入口部の直径患側：健側比が小さい傾向であった（図10）。

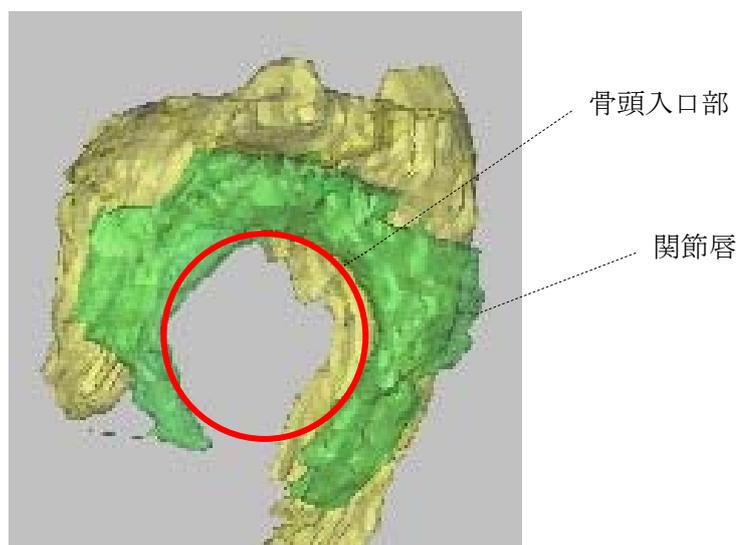


図10 整復障害因子 関節唇の三次元画像

1.7 白蓋形成

先天性股関節脱臼の治療の目的は、脱臼した大腿骨頭を整復することのほかに、大腿骨頭の求心性を良好に保ち良好な白蓋形成被覆を導くことである。

股関節臼蓋は腸骨、坐骨、恥骨から構成されており、この土台の上に未骨化寛骨臼の軟骨部分（Y軟骨）があり、月状関節面は半月形の関節軟骨に覆われ、骨頭の滑面となっている[26]。臼蓋はY軟骨の間質性増殖により高さ、幅が増加するとともに、骨頭を鋳型として臼蓋縁での硝子軟骨の増殖によって深さが増しながら成長する[27]。臼蓋の骨化は、臼蓋縁での膜性骨化と臼蓋軟骨、Y軟骨と骨性臼蓋の境界に存在する成長帯での内軟骨性骨化の組み合わせたものである。脱臼股では、脱臼骨頭の圧迫、剪断、および牽引力により硝子軟骨臼蓋に変性がおこり、骨膜と内軟骨に成長障害が起こる[26]。

骨性臼蓋形成能については、Salter[28]は、生後最大でその後減少すると述べているが、Harris[29]は股関節の良好な適合性が獲得、維持されているならば4歳半までは年齢に関係なく臼蓋発育はあると述べている。一方、東[30]は正常股関節では関節軟骨、Y軟骨の成長帯増殖層は2歳で鎮静化し、骨梁もほぼ成熟すると述べている。

また、将来の臼蓋形成を予測する方法として、多くのX線学的パラメータの報告がある[31][32][33]が、一定の見解は得られていない。

1.8 遺残性亜脱臼

大腿骨頭がいったん整復されても、股関節の解剖学的な不適合や股関節周囲筋群のアンバランスなどの残存で、大腿骨頭の求心性が良好ではない症例もある。大腿骨頭の求心性は徐々に自然改善される症例もある一方、整復後1年以上経過しても大腿骨頭が骨性臼蓋

の外側に偏位したままの症例もありこの状態を遺残性亜脱臼という。遺残性亜脱臼の原因には、関節包の弛緩や股関節周囲筋のアンバランス、腸腰筋の短縮、関節内介在物、臼蓋形成不全、大腿骨頸部の過大前捻、大腿骨頭の扁平化、巨大化がおこる Perthes 様変形などがある。定期的に経過観察を行っても遺残性亜脱臼の改善傾向がない場合には、観血的整復術や骨盤骨きり術などの補正手術を検討する。

このように先天性股関節脱臼の治療においては、脱臼した骨頭の整復だけではなく、その後の発育に対して十分な経過観察と必要に応じた治療が必要である。

当院では、Salter や東らの報告を基に、2 歳の時点で良好な臼蓋形成が認められれば、その後も臼蓋形成は良好に発育すると考え、2 歳時の判断基準を単純 X 線で臼蓋角 30 度以下、OE 角 10 度以上とし、良好と判断した症例は経過観察終了としてきた。また、2 歳時の単純 X 線が不良で臼蓋形成不全や遺残性亜脱臼が疑われた症例に対しては、軟骨性臼蓋に着目し MRI 撮像を行い、良好な骨性臼蓋の形成には良好な軟骨性臼蓋がその前提になるという考え[34]から、軟骨性臼蓋の形成が良好であれば補正手術は行わずに経過観察を行ってきた。

第2章 研究の課題と目的

2.1 筑波大学附属病院での先天性股関節脱臼治療について

1986年12月から先天性股関節脱臼の記録を取り始めて以来、2008年12月までに受診し加療を行った患者は845名に至った。本院での先天性股関節脱臼症例に対する治療方針の特徴は、成長期におけるリモデリング能力を生かし、できる限り手術を行わない保存療法を行っている点である(図10)。これまで治療を行ってきた症例の疾病発生の背景と治療方針の妥当性を検討し、これらの結果に基づいて治療方針を改訂することを目標に研究を行った。

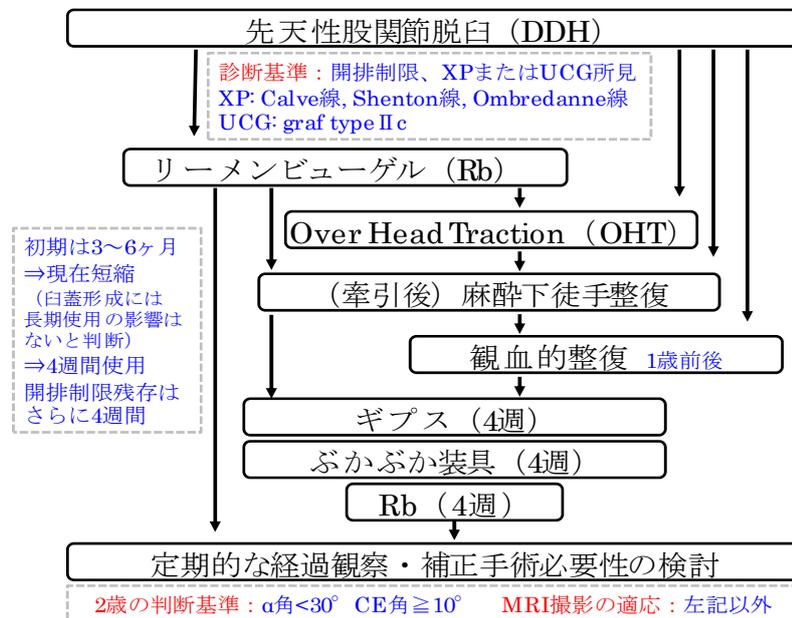


図10 当院の治療方針

2.2 先天性股関節脱臼発症の背景

先天性股関節脱臼発症の要因は様々報告[3][4][5]されている。研究 1 では本院での症例の疾病発生の背景を調査し、これまで行ってきた治療内容を確認する。

2.3 単純 X 線における経時的変化

先天性股関節脱臼の整復後、臼蓋形成が良好に得られる症例がある一方、形成不全が残存し求心性の悪化が見られる症例も認められる。臼蓋形成不全や遺残性亜脱臼が残存した症例では将来変形性股関節症を発症する。大腿骨頭の整復のみでなく良好な股関節の発育を促すことが先天性股関節脱臼治療の目的である。一般的には臼蓋形成が不良な症例には、将来の変形性股関節症発症を防ぐ目的で補正手術が行われるが、その適応基準は一定の見解が得られておらず判断に難渋することもある。研究 2 では、これまでに撮影された単純 X 線を振り返り、臼蓋形成を経時的に追跡し、予後予測が可能となる年齢を検討した。

2.4 MRI による骨性臼蓋形成の予測

第 1 章 1.8 で述べたように、筑波大学附属病院では臼蓋形成不全や遺残性亜脱臼が疑われる症例に対し 2 歳前後に MRI 撮像を行っている。軟骨性臼蓋の形成が良好であれば、将来の臼蓋形成も良好であると考えられていたが、その基準に一定のものはなかった。研究 3 では MRI での軟骨性臼蓋が良好であれば骨性臼蓋も良好、軟骨性臼蓋が不良であれば骨性

白蓋も不良であるのかを評価し、判定基準を決定することを目的とした。

2.5 良好群の予後調査

研究 2、3 では長期経過観察が必要な脱臼例が主な対象であった。しかし、これまで治療を行ってきた症例のなかには、脱臼、亜脱臼の他にも、開排制限が強く治療を行った例、白蓋形成不全に対し治療を行った例などが含まれる。これらの症例の多くは 2 歳時に経過良好と判断されると、経過観察終了となっている。長期経過観察を行った患者の中には、徐々に求心性や白蓋形成が改善する症例ばかりではなく、当初の予測より求心性や白蓋形成が不良となる症例が含まれることが予想される。研究 4 では、2 歳時に経過良好と判断した症例の自覚症状（アンケート）や白蓋形成の画像評価を行い、2 歳時の判断基準の妥当性を検証した。

第3章 倫理的配慮

3.1 研究の対象となる個人の人権擁護（研究1～4）

対象者の個人データは研究者が管理し、公表されるデータにおいては個人の特정이できないように配慮した。

3.2 対象者への説明と研究参加への同意（研究4）

対象者にはヘルシンキ宣言に則って、本研究の方法、意義、危険性について書面及び口頭で説明し、対象者およびその家族の自由意志によって参加を取りやめることができることを確認した上で、研究参加への同意を得た。

3.3 倫理委員会承認

研究1～4は筑波大学附属病院臨床研究倫理委員会の承認 臨床研究題目（H21-362）

を得て行われた。

第4章 筑波大学附属病院における先天性股関節脱臼症例の背景（研究1）

4.1 対象・方法

4.1.1 対象

1986年から2008年の間に、筑波大学附属病院を受診し治療を行った先天性股関節脱臼症例845例を対象とした。他院で治療を行った後当院で経過観察された47例、経過観察のみ行った82例、詳細不明の17例、麻痺性脱臼、症候性脱臼は除外した。

4.1.2 調査項目

4.1.2.1 診断による分類

診療録の記載や超音波所見（図11）、単純X線から、脱臼、亜脱臼、臼蓋形成不全に分類した。超音波の分類であるGraf法は、1980年Grafが腸骨に沿った直線と、腸骨下端と骨性臼蓋嘴を結ぶ直線のなす角（ α 角：骨性臼蓋角）を基準にした先天性股関節脱臼の分類を報告[35][36]して以来、本邦でも同方法が使用されるようになった[37]。脱臼は超音波Graf法[38]にてtypeIII、IV、または単純X線にてDunnの分類[1] gradeIII、亜脱臼は超音波Graf法typeIIc、D、または単純X線にてgradeII、臼蓋形成不全は超音波Graf法にてtypeIIbまたは単純X線にて求心性は保たれているが臼蓋角が30度以上とした。また、超音波、単純X線では明らかな所見が認められなかったが、開排制限が強く治療を行ったものを開排制限とした。

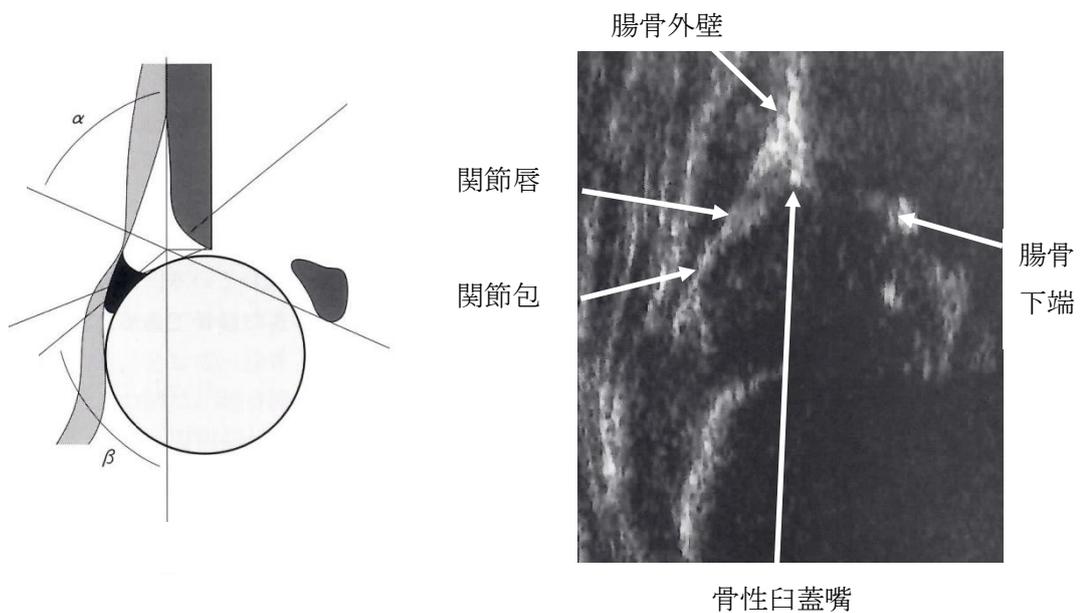


図 11 ①超音波像の模式図

文献[26]より引用

②超音波像

文献[26]より引用

グラフ分類は α 角と β 角によって、type I 正常、II a 未発達、II b 骨化遅延、II c 危険状態、D 非求心、III 脱臼、IV 高位脱臼に分類される

4.1.2.2 先天性股関節脱臼症例の背景

先天性股関節脱臼発症のリスク要因と一般的に挙げられている、性別、出生月、出生週数、分娩方法、出生胎位、出生体重、家族歴を診療録より調査した。出生月については、月毎に調査し、さらに、3月から8月生まれを春夏生まれ、9月から2月生まれを秋冬生まれとした。出生週数については、早産(37週未満)、満期産(37週から41週)、過期産(42週以上)、出生体重については低出生体重児(2500グラム未満)、正常(2500グラムから4000グラム)、巨大児(4000グラム以上)、分娩方法については、自然分娩と帝王切開、分娩胎位については頭位と骨盤位に分類した。

4.1.2.3 治療方法

それぞれの症例における治療内容を調査した。リーメンビューゲルを使用した症例については装着期間を調査した。

4.1.2.4 経過

整復後に臼蓋形成不全や遺残性亜脱臼、骨頭変形などが認められ、現在も経過観察中であるものを経過観察、経過が良好で終了となったものを治癒、患者の何らかの都合にて通院中断されたものを自己中止、転居などによる他院紹介を転居・紹介とした。

4.1.2.5 統計学的手法

各要因について、割合の検定 (χ^2 検定) をおこなった。これらの統計解析は JMP version 7 (SAS Institute, USA) を用いて行った。有意水準は危険率 1% ($p < 0.01$) とした。

4.2 結果

4.2.1 全症例の内訳 (表 1)

診断による分類は、開排制限 85 例 106 関節 (10.5%)、臼蓋形成不全 387 例 510 関節 (50.7%)、亜脱臼 279 例 293 関節 (29.1%)、脱臼 93 例 96 関節 (9.6%) であった (図 13)。

1 例は他院で脱臼と診断され当院で治療を継続したが、当院受診時脱臼は改善されていた。

男児 232 例 (27.5%)、女児 613 例 (62.5%)、左 383 例 (45.4%)、右 301 例 (35.6%)、両側 161 例 (19.0%) の 845 例 1006 関節であった。女児の割合は男児の割合に比べ有意に

多く、左側も右側に比べ有意に多かった ($p<0.01$)。誕生月別症例数は1月 82 例、2月 70 例、3月 67 例、4月 44 例、5月 44 例、6月 43 例、7月 37 例、8月 48 例、9月 87 例、10月 92 例、11月 111 例、12月 120 例であり (図 12)、春夏生まれ (3~8月生まれ) と秋冬生まれ (9~2月生まれ) に分けて比較するとそれぞれ 283 例 (33.4%)、562 例 (66.6%) となり、秋冬生まれが有意に多かった ($p<0.01$)。出生週数は早産 53 例 (6.3%)、満期産 639 例 (75.6%)、過期産 10 例 (1.2%)、不明が 143 例 (16.9%) であった。出生体重は低出生体重児が 86 例 (10.2%)、正常が 604 例 (71.5%)、巨大児が 3 例 (0.4%)、不明が 152 例 (17.9%) であった。分娩方法については自然分娩 487 例 (57.9%)、帝王切開 85 例 (10.1%)、不明 329 例 (32.0%)、分娩胎位は頭位 473 例 (56.0%)、骨盤位 43 例 (5.1%)、不明 329 例 (38.9%) であった。先天性股関節脱臼の家族歴の有無は 144 例 (17.0%) があり、289 例 (34.2%) がなし、412 例 (48.8%) が不明であった。

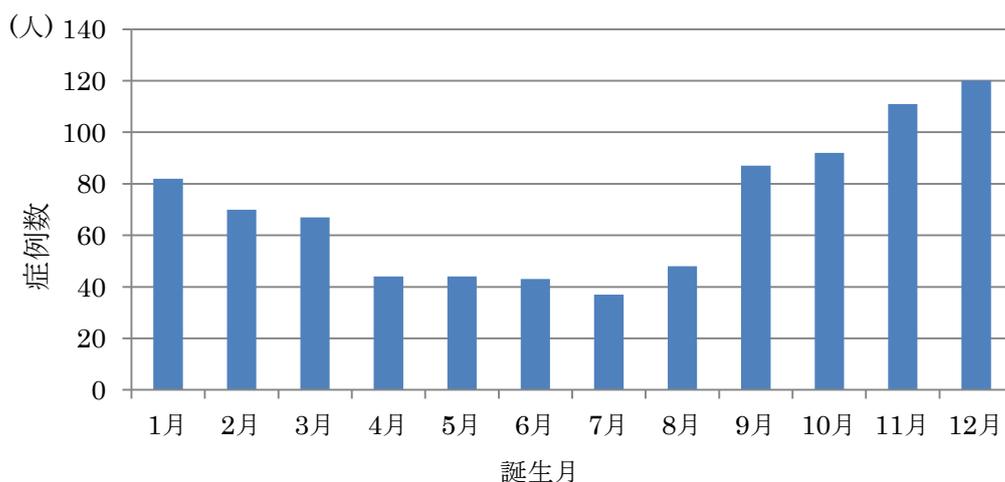


図 12 誕生月別症例数

表 1 先天性股関節脱臼の背景について

(*p<0.01)

性別	男児 232 (27.5%)		*女児 613 (72.5%)	
左右	*左 382 (45.4%)		右 301 (35.6%)	両側 161 (19.0%)
誕生月	春 155 (18.4%)	夏 128 (15.2%)	秋 290 (34.2%)	冬 272 (32.2%)
	春夏 283 (33.4%)		*秋冬 562 (66.6%)	
出生週数	早産 53 (6.3%)	満期産 639 (75.6%)	過期産 10 (1.2%)	記載なし 143 (16.9%)
出生体重	低出生体重時 86 (10.2%)	正常 604 (71.5%)	巨大児 3 (0.4%)	記載なし 152 (17.9%)
分娩方法	自然分娩 487 (57.9%)		帝王切開 85 (10.1%)	記載なし 269 (32.0%)
分娩胎位	頭位 473 (56.0%)		骨盤位 43 (5.1%)	記載なし 329 (38.9%)
家族歴	有り 144 (17.0%)		無し 289 (34.2%)	記載なし 412 (48.8%)

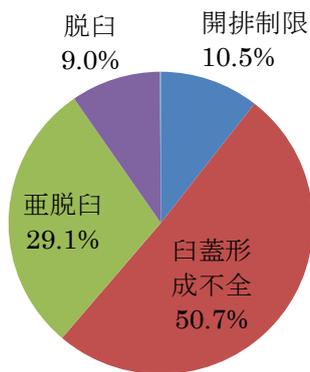


図13 診断別症例数

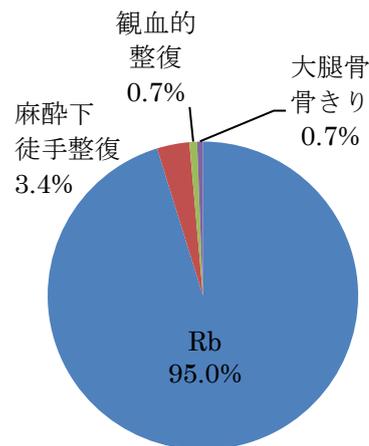


図14 治療方法

4.2.2 治療方法の内訳

リーメンビューゲル装着により治療をおこなった症例が 799 例 957 関節 (95.2%)、麻酔下徒手整復が 32 例 34 関節 (3.4%)、観血的整復術 7 例 7 関節 (0.7%)、大腿骨骨きり術が 6 例 6 関節 (0.6%) であった。1 例 1 関節 (0.1%) は観血的整復術と同時に大腿骨骨きり術を行っていた (図 14)。また、脱臼症例のみで治療方法をみるとリーメンビューゲル 50 関節 (52.1%)、麻酔下徒手整復 32 関節 (33.3%)、観血的整復 7 関節 (7.3%)、大腿骨骨きり 6 関節 (6.3%)、観血的整復と大腿骨骨きり術併用 1 関節 (1.0%) であった。

リーメンビューゲルの装着期間は平均 54.4 日 (7~262 日) であった。診断別にみると装着期間は、開排制限 40.4 日、形成不全 62.2 日、亜脱臼 46.5 日、脱臼 73.2 日であった。

4.2.3 現在の状態

現在経過観察されている症例は 119 例 (14.1%)、経過良好で治癒と判断された症例は 541 例 (64.0%) であった。自己中止 157 例 (18.6%)、紹介・転居 28 例 (3.3%) であった (図 15)。最終受診時年齢は 1 歳未満 56 例、1 歳 150 例、2 歳 364 例、3 歳 79 例、4 歳 42 例、5 歳 25 例、6 歳 45 例、7~12 歳 33 例、12 歳以上 51 例、不明 4 例であり、2 歳時に経過良好で終了となっていた症例が 329 例と全体の 38.9%を占めていた (図 16)。

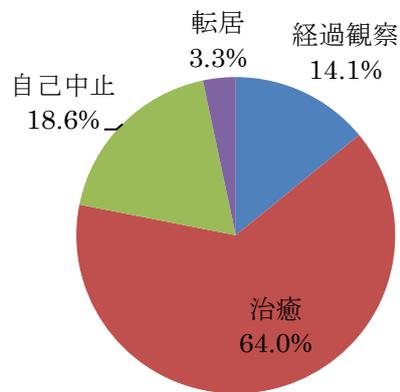


図 15 最終調査時の状態

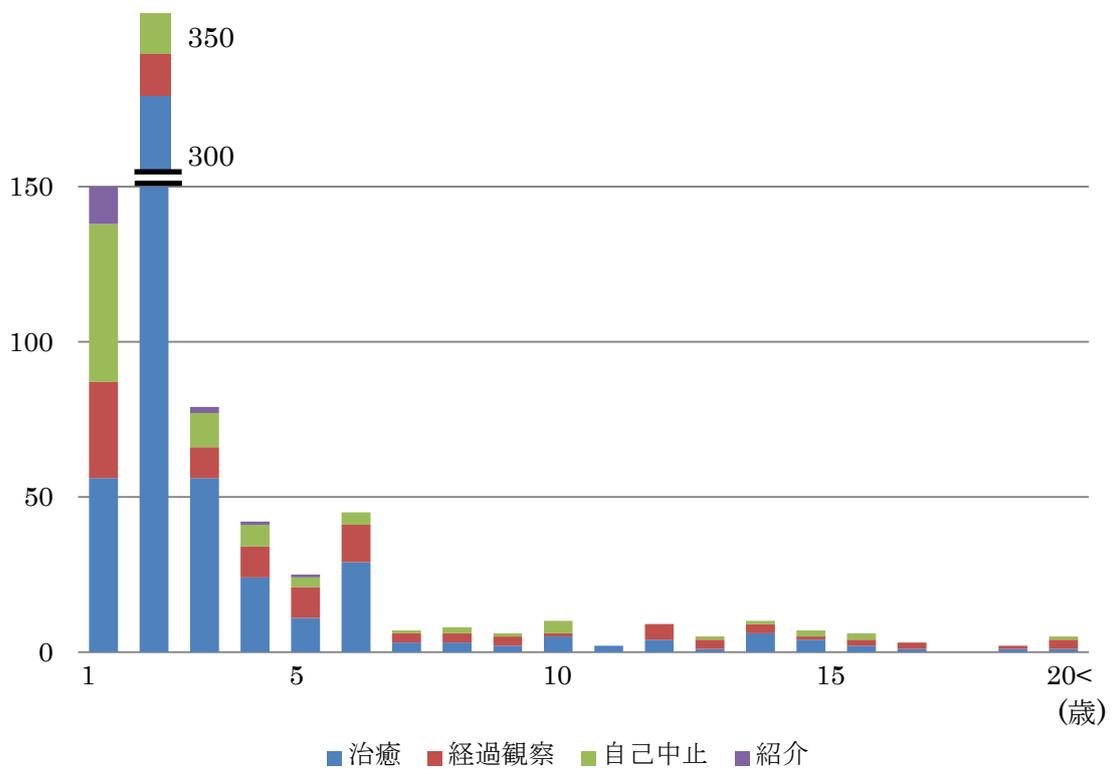


図 16 最終受診年齢別症例数

4.3 考察

一般に先天性股関節脱臼は、relaxin hormoneの影響を受けやすく関節弛緩となりやすい女児に多く、また、子宮内で第1胎向が多く、左下肢が母胎の仙骨により内転させられることより左股関節に多いといわれる[3]。当院では全体の男女比は1:2.6であり、他家の報告、男女比1:6.6[39]、1:8[40]、1:6~8[41]に比べると男児の割合が多かった。左右については、右:左1:1.3、片側:両側が4.2:1であり、薩摩らの[40]右:左1:2、片側:両側8:1と比較すると右側、両側の割合が高くなった。開排制限、臼蓋形成不全を除いた、亜脱臼、脱臼のみでは、男女比1:5、右:左1:1.6、片側:両側20:1であった。これらより、当院で治療を行った患者は開排制限、臼蓋形成不全の症例数が多く、これらには男児、両側例が多く含まれていたものと考えられた。

誕生月については、9月から12月が多く1月から8月にかけては徐々に減少する傾向であった。後天性の生活環境（厚い衣服や布団）による下肢の伸展強制や自動運動の制限の関連性や、胎性4~6ヶ月の高気温が女性ホルモンの分泌を促し関節弛緩から脱臼を誘発される[39]など、秋から冬生まれに脱臼が多い[40][42]との説が一般的である。われわれの症例でも秋から冬生まれに多く他の報告と一致していた。

また、子宮内因子として、胎児圧迫の要因となる骨盤位[43]、過期産、巨大児、帝王切開などが脱臼発生のリスクファクタとしてあげられている[4]。骨盤位は5.1%であったが、一般には全分娩の3~6%にみられる[44][45]といわれており、われわれの症例では多いとはい

えなかった。過期産は 1.2%、巨大児は 0.4%、帝王切開は 10.1%であり、それぞれ、全分娩での発生率は 1%前後[45]、1%以下[46]、15%[44]であり、これらも一般の割合と同等であった。薩摩らの先天性股関節脱臼 942 例 1049 関節を対象とした報告 [40]では、骨盤位 21%、帝王切開 26%を占めており明らかに高かった。17.0%に先天性股関節脱臼の家族歴を認めしたが、他の報告の 22.7%[42]、32%[40]、33%[47]と比較すると、われわれの症例ではやや少ない割合であった。

当院では、リーメンビュウゲルで整復された関節は 95.2%であった。そのうち脱臼、亜脱臼では 88.1%であり、亜脱臼、脱臼を対象としている他家の報告では、81.9%[48]、83.1%[31]、84.8%[49]、95.4%[50]と比較しても遜色ない結果であった。しかし、脱臼症例のみの整復率は 52.0%であり、脱臼のみを対象としている小林の報告 85.9%[51]と比較するとリーメンビュウゲルによる整復率は低い結果であった。これは、脱臼症例 93 例 96 関節中、25 例 26 関節 (27.1%) は他院でリーメンビュウゲル治療を行ったが整復不能のため当院に紹介となった症例であり、重症例が多く含まれていたことが関連していると思われる。

リーメンビュウゲルの装着期間については、平均 54.3 日 (7~262 日) であり、他家の報告では、脱臼 4 ヶ月[52]、脱臼平均 4.9 ヶ月 (2~11 ヶ月) [51]、3.7 ヶ月[53]、亜脱臼 3 ヶ月、脱臼 4 ヶ月[54]から比較すると短い傾向であった。リーメンビュウゲル装着の期間を比較した報告はわずかであるが、1988 年 Morino らは、長期群 (脱臼 4 ヶ月、亜脱臼 3 ヶ月) と短期群 (脱臼 3 ヶ月、亜脱臼 2 ヶ月) とで比較し 6 歳の X 線で評価したが、明らか

な差は認めなかったと報告している[55]。また、熊沢[56]は5ヶ月未満と5ヶ月以上で比較し差がなかったと報告した。一方で、市村[57]は1、2、3、4、5ヶ月で比較し4ヶ月が最も良好であったが、その他は差がなかったと結論した。リーメンビューゲルの装着は臼蓋形成には影響を及ぼさないという説[58]がこれまでの研究から一般的となっている。当院でのリーメンビューゲル装着の期間については、治療を開始した当初は、3から6ヶ月を目安に、つかまり立ちを行う生後9ヶ月くらいまで装着していたが、3ヶ月以上装着しても臼蓋の形成に影響しないという考えから徐々に短縮され、現在では整復確認後4週間を目安とし、開排制限が残存する症例にはさらに4週間追加装着となっている。これらの症例においては、装着期間が短期であることにより大きな問題が生じたものは認められなかったが、装具除去後も定期的に超音波検査を行い、悪化傾向が認められる症例には再度装着を行うなど注意深く経過観察を行っている。

4.4 小括

当院で治療を行った先天性股関節脱臼845例を診療録で後ろ向き調査した。症例数は、先天性股関節脱臼発症に関連するといわれる、秋から冬生まれに多かった。骨盤位、過期産、巨大児、帝王切開などの要因の割合は一般の分娩と同等であり、差を認めなかった。17.0%に先天性股関節脱臼の家族歴を認めた。リーメンビューゲルによる亜脱臼、脱臼の整復率は88.1%であった。リーメンビューゲル装着期間に関しては平均53.4日と他院より短

期間であった。脱臼での整復率は 52.0%と他家より低い割合であったが、難治例が多く含まれていた可能性が考えられた。

第5章 先天性股関節脱臼におけるX線の経時的変化（研究2）

5.1 対象・方法

5.1.1 対象

筑波大学附属病院で治療を行った845例のうち最終診察時の年齢が12歳以上であった症例は51例であった。そのうち、35例、患側42関節、健側28関節において経時的X線測定が可能であった。患者の内訳は、男児5例、女児30例、右側11例、左側17例、両側7例、最終撮影時年齢は12～21歳であった。患側42関節のうち、30関節（23例）はリメンビューゲルにより整復、9関節（9例）は麻酔下徒手整復、3関節（3例）は観血的整復術を行い整復した。臼蓋の補正手術を行った患者はいなかった。また、健側については、男児4例、女児24例、右側17例、左側11例、最終撮影時年齢は12～21歳であった。

5.1.2 方法

単純X線写真股関節正面像において、1～12歳のそれぞれの臼蓋角と center-edge (CE) 角を計測した。臼蓋角は、1925年に Hilgenreiner により報告され、両側のY軟骨を結んだ Hilgenreiner 線と、臼蓋の傾きとのなす角である[59]。Hilgenreiner 線はY軟骨が閉鎖する以降の年代になるとこれを基準線とすることができず計測不能であるため、全例でY軟骨が閉鎖していない10歳までを計測した。12歳では臼蓋角の代わりに両側涙痕を通る直線と涙痕と臼蓋外側を通る直線のなす角である Sharp 角を計測した[60]。CE角は1939年

Wiberg[61]により報告され、Hilgenreiner 線の垂線と、大腿骨頭中心と臼蓋外側縁を通る直線のなす角である。骨端核が未発達な時は OE 角を測定した。X 線計測の再現性を評価するため、全症例において臼蓋角、CE 角ともに 1 ヶ月以上あけ 2 回計測を行った。

5.1.3 良好不良群の分類

先天性股関節脱臼の最終成績の評価は一般に Severin 分類[62] (表 2) が用いられることが多い。Severin は 1941 年、6 歳から 35 歳までの正常股関節 400 関節の CE 角計測結果を基に group I から V までの分類を行い、機能的評価 (跛行、歩行距離など) は group III 以上で不良であると報告した。本研究では、最終調査時において Severin 分類に基づき group I・II を良好群、group III・IV・V を不良群とし、健側群とも比較を行った。

表 2 Severin 分類

		6~13 歳	14 歳以上
良好群	Group I	正常股関節	
		a) CE 角 19°以上 b) CE 角 15~19°	a) CE 角 25°以上 b) CE 角 20~25°
	Group II	骨頭、頸部、臼蓋の中等度変形	
		a) Group I a と同じ角度 b) Group I b と同じ角度	
不良群	Group III	亜脱臼を伴わない臼蓋形成不全	
		CE 角 15°以下	CE 角 20°以下
	Group IV	亜脱臼	
		a) 中等度: CE 角が正または 0° b) 高度: CE 角が負	
		Group V	
	Group V	原股臼の上方で二次性股臼形成	

5.1.4 統計学的手法

臼蓋角、CE 角の良好群、不良群、健側の各年齢の平均を Tukey Honestly Significantly Different で比較した。また、臼蓋角、CE 角について受動者動作特性曲線 (Receiver operating characteristic: ROC curve) を年齢ごとに作成し、不良を陽性とし、感度、特異度、陽性的中率から良好不良が判断可能となる年齢を検討した。

また、計測の信頼性については、計測 1 回目と 2 回目の差を計測誤差とし、誤差の平均と標準偏差を算出した。尚、経時的变化については、1 回目の計測値にて評価を行った。

これらの統計解析は JMP version 7 (SAS Institute, USA) を用いて行った。有意水準は危険率 5% ($p < 0.05$) とした。

5.2 結果

5.2.1 最終診察時の評価

最終診察時の Severin 分類による評価は group I a 17 関節、I b 10 関節、II a 0 関節、II b 1 関節、III 13 関節、IVa 1 関節、IVb 0 関節であり、良好 28 関節、不良 14 関節であった。

5.2.2 臼蓋角の経時的变化

図 17 に 1 から 10 歳までの臼蓋角の経時的变化を示す。10 歳時の臼蓋角の平均は良好群 15.6 ± 3.3 度、不良群 20.3 ± 6.7 度、健側 14.4 ± 4.1 度であった。また 12 歳時の Sharp 角

の平均は良好群 46.3 ± 3.6 度、不良群 50.6 ± 2.5 度、健側 45.3 ± 4.7 度であり不良群と健側に有意差を認めた ($p < 0.05$)。良好群は徐々に改善し、7歳以降は健側と同程度となるが、不良群の改善は乏しかった。1から5歳までは良好群と健側間、不良群と健側間に有意な差を認めた。

5.2.3 CE角の経時的变化

図18に1から12歳までのCE角の経時的变化を示す。12歳時のCE角の平均は良好群 22.7 ± 4.4 度、不良群 10.3 ± 6.1 度、健側 23.3 ± 7.5 度であり、健側と不良群、良好群と不良群間で有意差を認めた ($p < 0.05$)。良好群は1歳から2歳に大きく改善した。不良群のCE角は良好群と比較すると改善が少なく、特に6歳以降は値に大きな変化がなく8歳以降は不良群と良好群間に有意差を認めた。

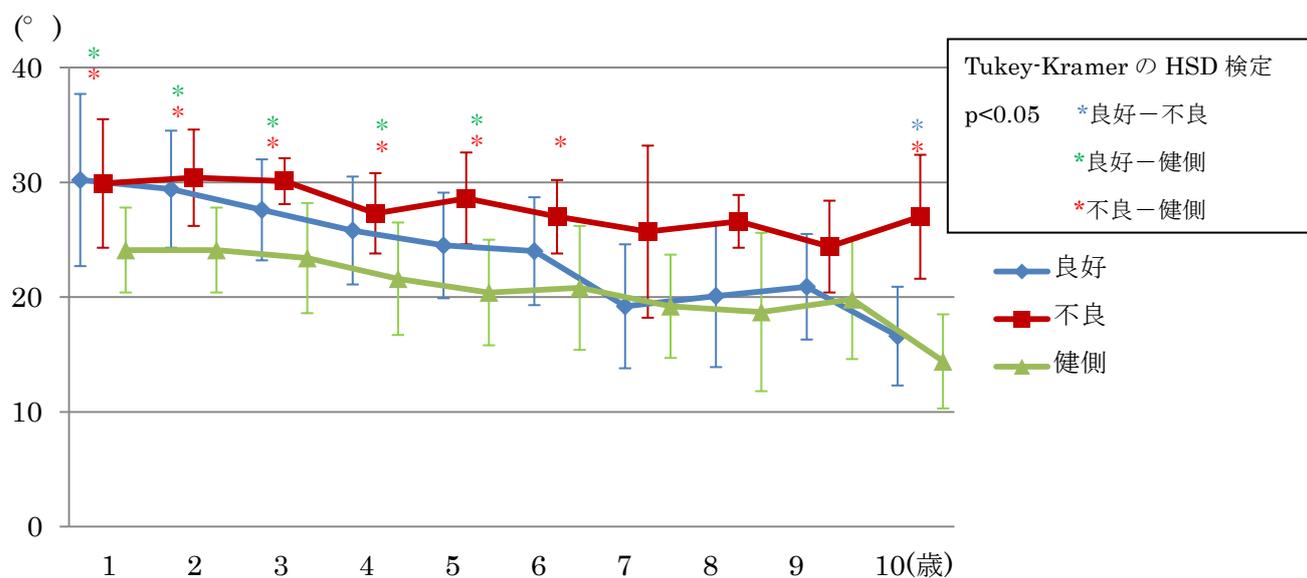


図17 白蓋角経時的变化

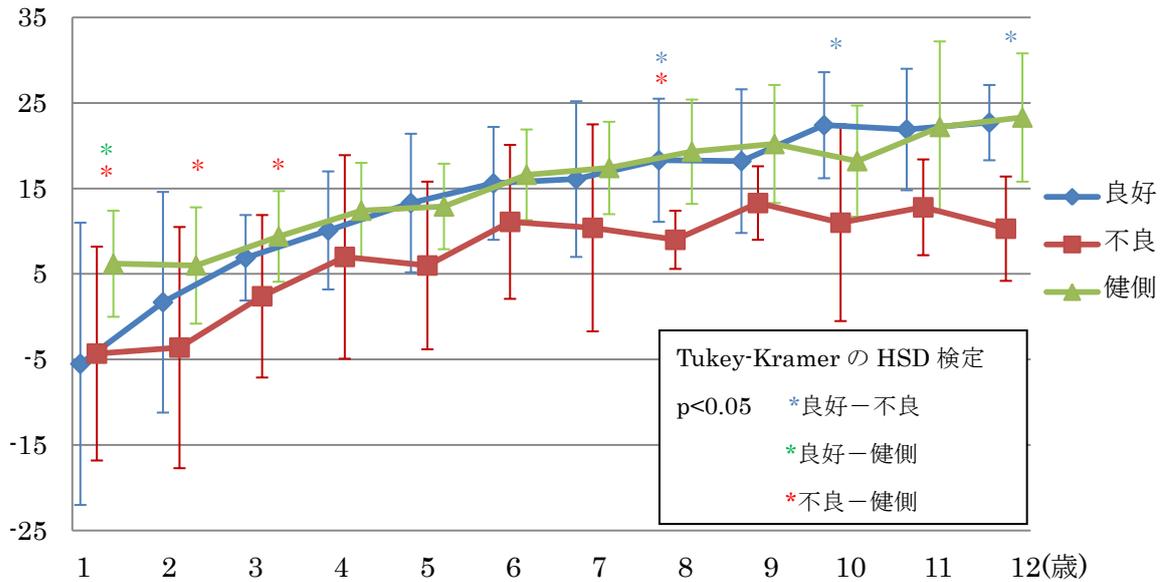


図 18 CE 角経時的変化

5.2.4 白蓋角・CE 角のカットオフ値

表 3 に 4 歳から 8 歳までの白蓋角カットオフ値ごとの感度、特異度、陽性的中率を示した。年齢が大きくなるにつれ、感度は高くなるが、陽性的中率は高いとはいえなかった。

表 4 に 4 歳から 8 歳までの CE 角カットオフ値ごとの感度、特異度、陽性的中率を示した。CE 角の 6 歳時の最適カットオフ値は 10 度で、感度 62.5%、特異度 82.4%、陽性的中率 62.5%、7 歳でもカットオフ値 10 度で、感度 80.0%、特異度 77.8%、陽性的中率 66.6% であり、6 歳以降に感度、特異度、陽性的中率が高くなる傾向であった。

白蓋角の計測誤差は平均 2.6 ± 2.5 度、CE 角の計測誤差は平均 3.4 ± 3.4 度であった。

表 3 白蓋角 各年齢の最適カットオフ値

年齢	カットオフ値 (°)	感度 (%)	特異度 (%)	陽性的中率 (%)
4 歳	33	10.0	96.3	50.0
5 歳	32	20.6	94.5	66.6
6 歳	28	50.0	72.3	37.5
7 歳	26	60.0	88.9	75.0
8 歳	26	80.0	75.0	44.4

表 4 CE 角 各年齢の最適カットオフ値

年齢	カットオフ値 (°)	感度 (%)	特異度 (%)	陽性的中率 (%)
4 歳	6	63.6	73.1	50.0
5 歳	8	60.0	82.4	50.0
6 歳	10	62.5	82.4	62.5
7 歳	10	80.0	77.8	66.6
8 歳	13	83.3	83.4	93.7

5.3 考察

先天性股関節脱臼の単純 X 線の経時的変化について、杉本ら[63]は、保存的に治療した 43 例に対し X 線測定を行い、CE 角は Severin 分類良好群と不良群で 6 歳時に有意差がみられ、特に良好群では 9~12 歳の変化が顕著であったと述べている。また、大石ら[64]は、保存治療を行った 88 例 102 関節の成績不良群の臼蓋角と OE 角は 5~7 才を境に良好群と異なる推移を示したと述べている。

成長後の臼蓋形成の予測因子としては、X 線による様々なパラメータが報告されている。Ohmori[32]らは 3 歳時 OE 角が 2 度未満、Albinana[33]らは徒手整復、観血的整復後 2 年の臼蓋角が 35 度以上、また、Nakamura ら[31]はリーメンビューゲルで治療した症例に対して 5 歳の時点で臼蓋角が 30 度以上を補正手術の適応と報告している。多くの報告では、臼蓋形成不全に対しては少なくとも 5~6 歳時までには補正手術を行う必要があるとされている。

本研究の結果では、臼蓋角は良好群、不良群とも 1 歳時に平均 30 度と差がないものの、不良群は以降変化が乏しく、7 歳時には 25 度程度となるがそれ以降は大きな変化はみられなかった。良好群は徐々に減少し 7 歳には 20 度以下となっていた。

CE 角については、良好群は 1~2 歳の改善が大きく、8 歳以降で不良群との有意差を認められた。10 歳時には良好群は 20 度以上となるが、不良群は 6 歳以降の改善が乏しく、15 度未満であった。また、良好群は 2 歳以降では健側との有意差を認めなかった。

臼蓋角のカットオフ値については、年齢が大きくなるにつれ感度は高くなるが、陽性的中率は十分な値とはいえなかった。CE角については、6歳以降で感度、特異度、陽性的中率が高くなる傾向であった。本研究はCE角を基準にしたSeverin分類に基づいているため、臼蓋角よりもCE角の信頼性が高いと考えられた。

以上の結果から、不良群では6歳以降は臼蓋形成能が乏しく、自己矯正不良であることが考えられた。よって、経過が不良な症例に対しては、6歳までには骨きり術を行う必要があり、それ以前に予後不良を判断する必要があると考えられた。臼蓋形成の予後を早期に判断する方法を検討すべきだと思われた。

また、計測誤差は臼蓋角平均 2.6 ± 2.5 度、CE角平均 3.4 ± 3.4 度であった。Spatz[65]は6ヶ月から2歳児の臼蓋角の検者内誤差 3.6 度、検者間誤差 3.0 度と報告した。また、Broughton[66]は4ヶ月から15歳児の股関節X線での検者内、検者間誤差の95%信頼区間はそれぞれ臼蓋角で ± 6.1 度、 ± 5.5 度、CE角で ± 9.3 度、 ± 9.1 度であり、臼蓋角は8歳以下、CE角は5歳以上で信頼性が高いと述べている。しかし、評価の指標としては臼蓋角、CE角が多く使用されているのが現状であり、今回の結果でも臼蓋角、CE角の誤差は他の報告と比較して遜色ないと考えられた。

5.4 小括

不良群における臼蓋形成発育は6歳以降では自己矯正不良であることが示された。

第6章 MRIによる骨性臼蓋発育の予測（研究3）

6.1 対象・方法

6.1.1 対象

1986年から2008年において、2歳時に臼蓋形成不全または、遺残性亜脱臼を疑われた症例は119例であった。これらの症例のうち、2歳前後にMRI撮像を行い、6歳以上まで経過観察できた症例は45例51関節であった。患者の内訳は、男児2例、女児43例、右側11例、左側27例、両側7例であり、両側例のうち1関節は大腿骨きり術を行った症例であり、自然経過を調査する目的のため除外した。平均経過観察期間は11.7歳（6～22歳）であった。MRIの撮像年齢は平均2.3歳（1.1～4.1歳）であった。

また、初診時診断は、45例51関節のうち、26関節（26例）は脱臼、13関節（12例）は亜脱臼、12関節（7例）は臼蓋形成不全であった。28関節（22例）はリーメンビューゲルにより整復、19関節（19例）は麻酔下徒手整復、4関節（4例）は観血的整復術を行い整復した。臼蓋の補正手術を行った患者はいなかった。

6.1.2 MRI撮像方法

MRI装置は1.5または3.0 Tesla Phillips社 Achievaを使用した。撮像条件はspin-echo T1強調画像（TE16 ms/TR600 ms）、T2強調画像（TE15 ms/TR1500 ms）、スライス厚4 mm、スライス間隔0.4 mmであった。患者は仰臥位で股関節伸展位、内外旋中

間位、 chloral hydrate (80 mg /体重 kg) を経口させ沈静して撮像した。

6.1.3 MRI 計測方法

T1 または T2 強調像、冠状断において大腿骨頭が最大に見えるスライスを用いて計測を行った。軟骨性臼蓋角は、両側の Y 軟骨を結んだ Hilgenreiner 線と、Y 軟骨と軟骨性臼蓋の外側縁を結んだ直線とのなす角とした。また軟骨性 CE 角は Hilgenreiner 線の垂線と、骨頭中心から軟骨性臼蓋の外側縁を結んだ直線とのなす角とした (図 19)。

MRI 計測の再現性を評価するため、無作為に抽出した 10 症例の軟骨性臼蓋角、軟骨性 CE 角を 1 ヶ月以上期間を開けて 2 回計測した。



図 19 軟骨性臼蓋の計測

A: 軟骨性臼蓋角 B: 軟骨性 CE 角

6.1.4 単純 X 線計測

最終調査時の単純 X 線にて臼蓋角と CE 角を測定した。成長し、Y 軟骨が閉鎖すると、臼蓋角が計測できないため、Y 軟骨が閉鎖する直前の年齢の X 線で臼蓋角を測定した。

6.1.5 良好不良群の分類

最終調査時の X 線にて Severin 分類をもとに、group I・II を良好群、group III・IV を不良群とした。

6.1.6 統計学的手法

軟骨性臼蓋角、軟骨性 CE 角ともに平均を Student t-test にて比較した。また、軟骨性臼蓋角、軟骨性 CE 角の ROC 曲線を作成し、最終調査時の不良を陽性として、感度、特異度、陽性的中率から、将来の臼蓋形成予測に適するカットオフ値を算出した。これらの統計解析は JMP version 7 (SAS Institute, USA) を用いて行った。有意水準は危険率 5% ($p<0.05$) とした。

また、計測の信頼性については、計測 1 回目と 2 回目の差を計測誤差とし、誤差の平均と標準偏差を算出した。

6.2 結果

6.2.1 最終診察時の評価

最終診察時の Severin 分類は group I a 17 関節、I b 9 関節、II a 0 関節、II b 2 関節、III 22 関節、IV a 1 関節、IV b 0 関節であり、良好 28 関節、不良 23 関節であった。

6.2.2 軟骨性臼蓋角、軟骨性 CE 角

軟骨性臼蓋角の平均は、良好群 15.2 ± 4.1 度、不良群 17.6 ± 5.6 度であり、良好群と不良群では有意差を認めなかった。軟骨性 CE 角は、良好群 16.2 ± 4.1 度、不良群 7.5 ± 7.1 度で良好群が有意に大きかった (図 20、21)。

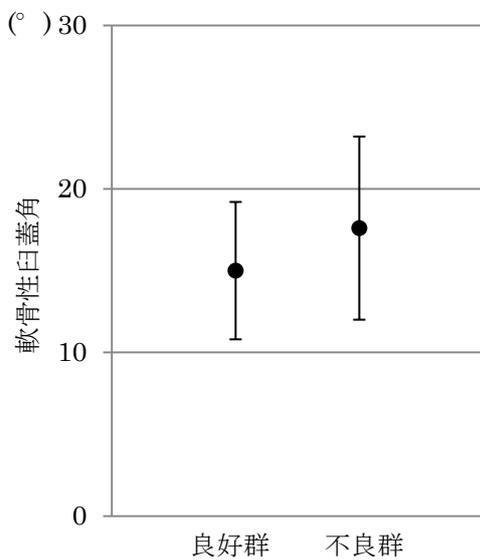


図 20 軟骨性臼蓋角の平均

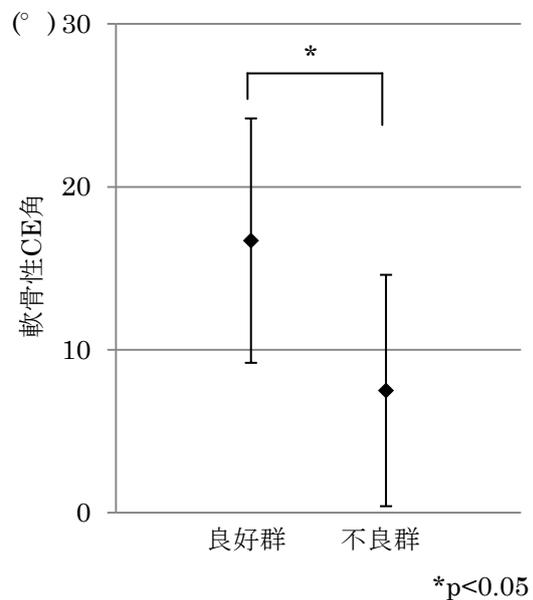


図 21 軟骨性 CE 角の平均

軟骨性臼蓋角のカットオフ値を算出すると 18 度で感度 79.3%、特異度 45%、陽性的中率は 65.7%であった。また軟骨性 CE 角のカットオフ値は 13 度で、感度 72.4%、特異度 63.6%、陽性的中率 72.4%であった (表 5)。

表 5 軟骨性臼蓋のカットオフ値

	軟骨性臼蓋角	軟骨性 CE 角
カットオフ値 (°)	18	13
感度 (%)	79.3	72.4
特異度 (%)	45.0	63.6
陽性的中率 (%)	65.7	72.4

図 22、23 は MRI の軟骨性臼蓋角と成長後の単純 X 線骨性臼蓋角、軟骨性 CE 角と骨性 CE 角をプロットしたものである。軟骨性臼蓋は十分でも骨性臼蓋が不十分である症例、あるいは軟骨性臼蓋は不十分であるものの、骨性臼蓋は予想に反して良好に発育した症例なども含まれているが、2 歳時の MRI での軟骨性臼蓋は、おおよそ、6 歳時の骨性臼蓋を反映しているものと考えられた。

また、軟骨性 CE 角のカットオフ値を 13 度としたとき、臼蓋形成不全では 12 関節中 6 関節は軟骨性臼蓋と将来の骨性臼蓋の良不良が一致したが、残り 6 関節は一致しなかった。亜脱臼では 13 関節中 11 関節は一致、脱臼では 26 関節中 18 関節が一致した (表 6)。

計測誤差の平均は軟骨性臼蓋角 2.9 ± 3.5 度、軟骨性 CE 角 4.9 ± 4.8 度であった。

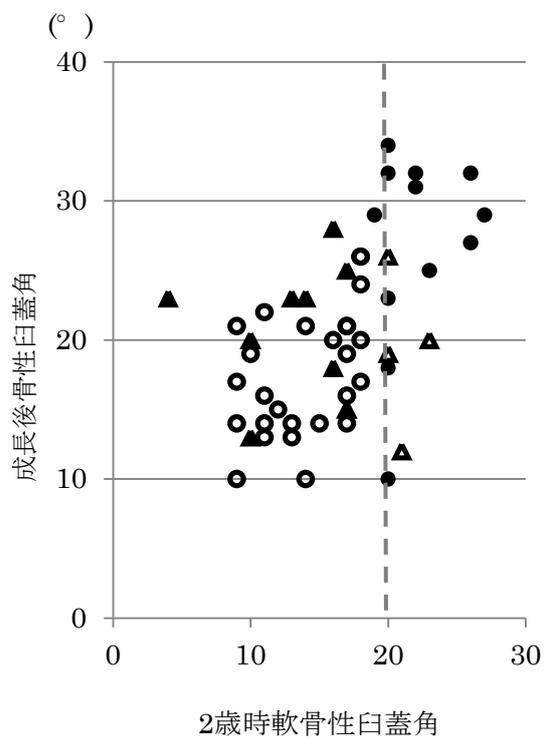


図 22 軟骨性臼蓋角

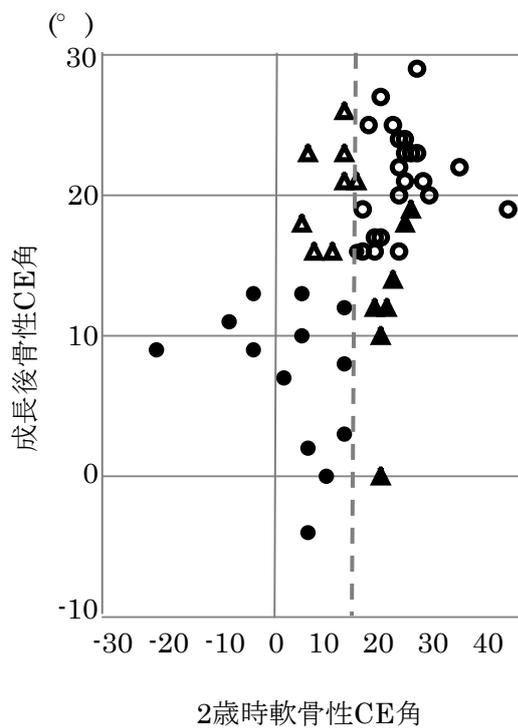


図 23 軟骨性 CE 角

○軟骨良好⇒骨良好 ●軟骨不良⇒骨不良 △軟骨不良⇒骨良好 ▲軟骨良好⇒骨不良

表 6 初診時診断別一致不一致

診断名	計 関節数	一致 関節数 (%)	不一致		
			軟骨:不良⇒ 将来骨性:良好	軟骨:良好⇒ 将来骨性:不良	
臼蓋形成不全	12	6 (50.0)	1 (8.3)	5 (41.7)	
診断	亜脱臼	13	11 (84.6)	1 (7.7)	1 (7.7)
	脱臼	26	18 (69.2)	6 (23.0)	2 (7.8)

6.3 考察

先天性股関節脱臼の中には整復は得られても、遺残性亜脱臼や臼蓋形成不全が生じる症例がある。これらの症例では補正手術が検討され、その適応は X 線所見により決定されることがほとんどである[31] [32] [33]。我々は、骨性臼蓋の評価とともに、軟骨性臼蓋の評価が重要であると考えている。軟骨性臼蓋の評価についてはこれまでに、Mohammed ら[67]が股関節造影にて cartilaginous acetabular index (CAI) 24 度以上では 100%に臼蓋形成術が必要であると報告した。また、Wiem ら[68]は MRI にて cartilaginous acetabular angle (CAA)、cartilaginous coronal head index (CCAHI)、cartilaginous sagittal head index (CSAHI) を測定し、31 例中 27 例の軟骨性臼蓋の厚みが厚い(平均 CCAHI 85%、CSAHI 95%) 症例では骨性臼蓋が良好に発育したと報告している。

本研究では、良好群と不良群で、軟骨性 CE 角は有意差を認めたが、軟骨性臼蓋角では有

意差を認めなかった。本研究では CE 角を主な指標とした Severin 分類で評価判断しているため、臼蓋角よりも CE 角において強く相関したものと思われる。

本研究でのカットオフ値は、特に、感度、陽性的中率がより大きくなるように設定した。2 歳の時点で、不良になる可能性が高い症例をもれのないように選別するためである。それによって算出した軟骨性 CE 角 13 度以下の 72.4%は骨形成が不良であった。しかし中には、軟骨性 CE 角が不良でも、骨性 CE 角の発育が良好となる例も存在した。これら 8 関節のうち 6 関節は脱臼症例であり、1 関節は亜脱臼、1 関節は臼蓋形成不全であった。脱臼の症例をみると整備後徐々に大腿骨頭の求心性が改善し、骨性臼蓋の形成も発達した。

反対に、軟骨性臼蓋の角度が良好であっても、骨性臼蓋の発育が不良の症例があった。これら 8 関節のうち、5 関節は臼蓋形成不全であり、このうち 4 関節 2 症例は両側例であった。臼蓋形成不全の原因として、大石[69]は大腿骨頭の求心性不良のための異常荷重ストレスによる内軟骨性骨化障害や大腿骨頭の球状ストレス欠落による骨化障害などを挙げている。また、藤井[70]や岡野[71]らは遺伝的要因を挙げている。遺伝的要因により、軟骨の発育は良好であっても骨化のポテンシャルが低く、臼蓋形成が不十分となることが考えられる。Fisher ら[72]は、軟骨の質的評価が可能となれば、軟骨の remodeling を最大限に引き出せる、より早期に手術が可能になると述べている。Wakabayashi[73]らは、遺残性亜脱臼の MRI 像にて、軟骨性臼蓋の荷重部に高輝度域 (high signal intensity areas : HSIA) が認められるとき、骨性臼蓋の発育は不良であると報告している。このように、今後は形

状の評価のみでなく、軟骨の質の評価も必要であると考えられる。

今回の研究のように、2歳時のMRIから、将来の骨性臼蓋の発育を予測した報告はない。

MRIで軟骨性臼蓋の発育が良好であれば、将来の骨性臼蓋も良好に、軟骨性臼蓋が不良であれば、将来の骨性臼蓋も不良である可能性が考えられる。しかし、2歳以降でも求心性が徐々に改善する症例は、2歳時の軟骨性臼蓋が不良であっても、将来の骨性臼蓋が良好に発育する可能性があることに留意すべきである。一方、臼蓋形成不全については、2歳時の軟骨性臼蓋が良好であっても、将来の骨性臼蓋が不良となる可能性もあり、注意が必要である。

計測誤差の平均は軟骨性臼蓋角 2.9 ± 3.5 度、軟骨性CE角 4.9 ± 4.8 度であった。特に軟骨性CE角の計測では骨頭の中心点と軟骨性臼蓋外側縁の2点を判断することが必要であり、軟骨性臼蓋角よりも誤差が大きくなったことが考えられた。今回算出したカットオフ値の境界領域に関しては、今後も症例数を重ねることによる検討が必要であると考えられた。

6.4 小括

MRIによる軟骨性臼蓋に着目すると、将来の臼蓋形成を予測する2歳時の軟骨性臼蓋のカットオフ値は軟骨性臼蓋角18度、軟骨性CE角13度であった。MRIによる軟骨性臼蓋の評価は将来の骨性臼蓋の発育を予測するのに有用である。しかし、大腿骨頭の求心性の変化や骨性臼蓋の発育の変化を長期的に経過観察する必要がある。

第7章 2歳時に良好と判断された患者の予後調査（研究4）

7.1 対象・方法

7.1.1 対象

1986年から2008年までに当院にて先天性股関節脱臼の治療が行われた845例中、2歳時に経過良好と判断され経過観察終了となった患者は329例であった。そのうち、現在14歳以上となっているものは291例であった。この291例に対して予後調査を行った。

7.1.2 アンケート調査

調査項目は表の通りである。日本整形外科学会股関節スコアに基づき、過去に生じた疼痛、現在の疼痛、歩行能力、日常生活動作について項目を作成した。対象となった患者に対してアンケートを郵送し、患者本人またはその家族に記載を依頼した。

先天性股関節脱臼に関するアンケート

治療を受けた方のお名前 _____

ご住所 〒 _____

ご連絡先(電話番号、メールアドレスなど) _____

Q1. 治療終了後（通院を終えて）から現在までについてお聞きします

股関節に痛みなどの症状がでたことはありますか はい・いいえ

「はい」の方⇒ いつごろですか _____ 才頃

どんなときですか（例えばスポーツ時、歩行時など） _____

その痛みはどうなりましたか

- a. 自然に良くなった
- b. 病院に通院してよくなった

どんな治療をしましたか？ _____

- c. 痛みは今もある
- d. その他 _____

Q2. 現在の股関節の状態についてお聞きいたします

1. 現在痛みや違和感を感じることはありますか はい・いいえ

「はい」の方⇒ どのような時に痛みを感じますか？

a～e を選んでください。いくつでも結構です

- a. 違和感、疲労感があるが痛みはない
- b. 歩行開始時、あるいは長距離歩行後痛みがあることがある
- c. 歩行時痛みがあるが、短時間休むと消失する
- d. 安静時も痛みがたまにある。
- e. 持続的に痛みがある。または就寝時も痛みがある。

f. その他 _____

2. 歩行能力について a～e を選んでください。いくつでも結構です

- a. 長距離歩行・速歩が可能
- b. 長距離歩行・速歩が可能だが、たまに足をひきずることがある
- c. 30分程度歩行は可能
- d. 10-15分程度の歩行が可能
- e. その他 つえを使用する など _____

3. 日常生活動作についてお聞かせください

股関節の症状が原因で困難な動作はありますか？ はい・いいえ

「はい」の方⇒ どのような動作ですか あてはまるものに○をつけてください
いくつでも結構です

- a. いすにすわる
- b. 立ち仕事
- c. 和式トイレなどしゃがみこみ
- d. 階段上り下り（手すりを使う など）
- e. 車やバスの乗り降り
- f. 靴下をはく
- f. その他_____

Q3. その他についてお聞きいたします

* ご兄弟はいますか はい・いいえ 上から順に性別をお教えてください _____

* ご家族（血のつながった方）の中で股関節の治療を受けた方はいますか はい・いいえ

「はい」の方⇒ どういったご関係の方ですか（）

いつごろ（）

どこで（）

治療内容（経過観察・装具・手術） _____

Q4. 股関節に関して医療機関を受診していますか。または、過去に受診したことがありますか。

a. 現在受診中

b. 過去に受診した

いつごろですか _____

c. 受診したかった（したい）が時間がなかった

*受診中の方 治療内容、状態についてわかる範囲でお教えてください

差支えなければ医療機関名をお教えてください _____

アンケートへのご協力ありがとうございました。

さらに現在の股関節の状態をより知るために、簡単な診察と、レントゲン検査を行いたいのと思いますが、来院していただくことは可能でしょうか 可能・不可能

来院可能の方には記載していただいたご連絡先に後日連絡いたしますのでよろしく願いいたします。

7.1.3 X線評価

アンケートに回答のあったうち、了承の得られた患者に対し X 線撮影を行った。2 歳時と再受診時の単純股関節 X 線正面像から、臼蓋角、CE 角を計測した。臼蓋角は 2 歳時では α 角、再受診時では Sharp 角を計測した。2 歳時の CE 角は OE 角で代用した。再受診時の単純 X 線を Severin 分類で評価し、group I・II を良好、group III 以上を不良とした。

7.1.4 統計学的手法

2 歳時の臼蓋角と骨成熟時の Sharp 角、2 歳時の CE 角と骨成熟時の CE 角の関連性をピアソンの積率相関係数で示した。これらの統計解析は JMP version 7 (SAS Institute, USA) を用いて行った。有意水準は危険率 5% ($p < 0.05$) とした。

7.2 結果

アンケート回収は 291 例中 71 例(24.3%)に得られた。そのうち来院し X 線撮影を行った症例が 37 例 50 関節(12.7%)、2 歳時と再受診時の X 線が評価可能であったのは 31 例 42 関節(10.6%)であり、アンケートにのみ回答した症例が 32 例 44 関節であった。6 例 8 関節は 2 歳時の X 線評価が不能であった。内訳は男性 28 例、女性 43 例、右 22 例、左 24 例、両側 25 例であった。初診時診断名は開排制限 24 関節、臼蓋形成不全 53 関節、亜脱臼 15 関節、詳細不明 4 関節であった。全例リーメンビュウゲルで治療が行われていた。再調査

時年齢は平均 19.8 ± 2.8 歳(14.2~24.4 歳)であった。

再受診時の Severin 分類は group I a 28 関節、I b 20 関節、III 2 関節であり、良好 48 関節 (96.0%)、不良 2 関節 (4.0%) であった。2 歳時の臼蓋角の平均は患側 22.2 ± 3.9 度、健側 22.4 ± 3.8 度、CE 角の平均は患側 16.5 ± 6.5 度、健側 17.9 ± 3.9 度であった。臼蓋角、CE 角ともに患側と健側間に有意差はなかった。2 歳時と骨成熟時の臼蓋形成の関連性を図に示す。臼蓋角の相関係数は 0.2174 ($p=0.1665$)、CE 角の相関係数は 0.2816 ($p=0.0707$) であり、臼蓋角、CE 角ともに 2 歳時の角度と骨成熟時の角度に有意な相関はみられなかった。Severin 分類 group III となった 2 症例は 2 歳時の CE 角が 10 度未満であった (図 24、25)。

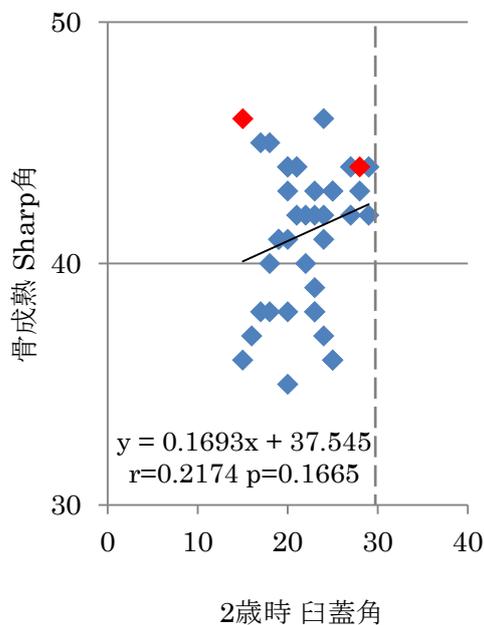


図 24 Sharp 角

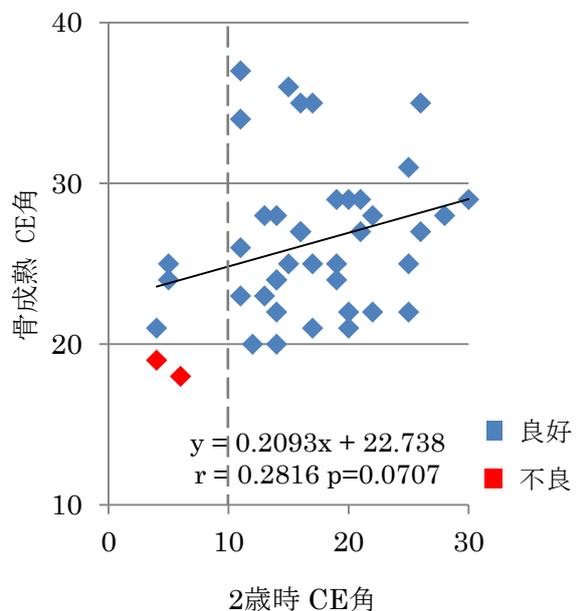


図 25 CE 角

疼痛に関しては 71 例中、これまでに股関節痛を経験したことがある症例が 14 例、現在痛みを感じることもある症例は 12 例であった。過去に疼痛を感じた年齢は 10～11 歳 1 例、15 歳 2 例、16 歳 1 例、17 歳 1 例、15～17 歳 1 例、17～18 歳 1 例、20 歳 1 例、不明 5 例であり、運動時 3 例の他、歩行時 4 例、蹲踞の姿勢、外転時、横座り時などであった (表 7)。

5 例で疼痛は消失し、9 例は現在も疼痛が認められた。現在の痛みは違和感、疲労感のみが 6 例、歩行開始時、長距離歩行後が 3 例、歩行時痛みが出現するが短時間で消失するが 1 例、安静時も痛みありが 1 例、持続的に痛みありが 1 例、その他が 2 例であった (表 8)。なお、疼痛がある症例の 12 例中 10 例が初診時臼蓋形成不全と診断されており、そのうち来院した 9 例の現在の X 線ではすべて Severin 分類 group I であった。また、アンケートにのみ回答のあった症例 32 例のうち、現在疼痛を認めるのは 3 例で、2 例は違和感、疲労感のみ、1 例は長距離歩行後であった。

表 7 痛みの既往

年齢	これまで経験した疼痛
10～11 歳	バレエ
15 歳	運動時
15 歳	横座り
16 歳	運動時
17 歳	歩行時
15～17 歳	チアリーディング、柔軟体操
17～18 歳	歩行時
18 歳	しゃがみこみ
20 歳	運動時
不明	外転時
不明	長距離歩行
不明	あぐら
不明	歩行時
不明	その他

表 8 現在の痛み（複数回答）

現在の疼痛	例
違和感、疲労感	6
歩行開始時、長距離歩行後	3
歩行時痛むが短時間の休憩で消失	1
安静時も痛みあり	1
持続的に痛みあり	1
その他	2

7.3 考察

先天性股関節脱臼や亜脱臼の長期経過は数多く報告されている[31][32][33][74][75]。しかし、実際の診療では、軽度の臼蓋形成不全があり開排制限がみられる症例や、X線や超音波では異常所見は認められないが、開排制限の左右差が改善しない例などに多く遭遇する。当院ではこのような症例にも、リーメンビューゲルによる治療を行い、多くの症例では2歳で良好と判断し終了としてきた。当院での、良好との判断基準はCE角10度以上、臼蓋角30度以下であったが、2例は2歳時のCE角が10度未満であり、判定に問題があったと考えられる。これまで様々な医師が判断しているため、計測方法や判定には個人差があり、統一した判断基準になっていなかった可能性も考えられる。しかし、2歳時のCE角が10度以上の症例の全例が、骨成熟時にSeverin分類 group I となっており、当院の判断基準は妥当であったと考えられる。現在は、求心性の良好な臼蓋形成不全や軽度の開排制限の症例に対しては、リーメンビューゲル装着は行わずに、超音波とX線にて経過観察を行い2歳まで経過観察している。

また、アンケートの結果からは、71例のうち14例はこれまでに股関節の痛みを感じたことがあり、12例は現在疼痛を感じることもあるとのことであった。しかし、Severin分類 group III となった2例は疼痛を認めず、疼痛の有無はX線のみでは判断できないことがわかる。これまでに股関節痛を生じたことのある症例の過半数は、学校生活などでスポーツを

積極的にを行っている時期に疼痛を感じており、恥骨結合炎・内転筋腱起始部炎などの単徑部痛症候群、疲労骨折[76]など先天性股関節脱臼による骨形態以外の原因も考えられ、現時点での判断は困難であると思われた。これらの症例は現在の X 線では正常像を示したが、ほとんどの症例が初診時臼蓋形成不全と診断されており、疼痛が継続する場合はスポーツや臼蓋形成不全などが原因で生じる関節唇損傷[77]の可能性も考え精査が必要である。

また、32 例はアンケートのみの調査であったが、現在疼痛を認める症例が 3 例であり、残る 29 例は疼痛の経験がなく、経過は良好であるために来院しなかった可能性が考えられた。よって、2 歳時に治癒と判断された症例の大部分は良好な経過をたどっているものと考えられた。

今回追跡できた症例は 291 例中、71 例(24.1%)であり、十分であるとはいえなかった。アンケートの回答が得られなかった症例には、症状を認めないため経過良好と自己判断している例や、転居により住所が不詳となっている例が含まれると考えられる。今後、追跡率を上げるためには、先天性股関節脱臼症例の中には臼蓋形成不全が残存し、変形性股関節症を発症するまで症状が出現しない症例もあることを保護者に理解させることが必要であると思われる。また、住所が変更になった症例に対しては、**follow up** の新しいシステムを考慮する必要があると思われる。

7.4 小括

2歳で経過良好と判断された症例のうち、96.0%は良好、4.0%は不良であった。2歳時の診断基準臼蓋角 30 度以下、CE 角 10 度以上は妥当であった。不良となった症例では、2歳時の CE 角が 10 度未満であった。形態的に不良となった症例のみに疼痛が発生するのではないため、疼痛のある症例に対しては骨形態の変化のみならず関節唇損傷や他疾患の鑑別、治療が必要である。

第 8 章 総括

8.1 当院の治療方針

今まで行われてきた我々の治療方針に加えて、当院の先天性股関節脱臼症例の背景と、軽症例と重症例の治療経過を確認することができ、新たな治療方針を設定した（図 28）。特に 2 歳時においては、単純 X 線にて臼蓋角 30 度以上、CE 角 10 度未満の症例は臼蓋形成不全となる可能性があり、MRI で軟骨性臼蓋を評価すべきとした。

8.2 小児股関節検診に際して

当院で出生した新生児に関しては、1 ヶ月時検診において股関節検診を行っている。当院での先天性股関節脱臼の背景は研究 1 で示したように、他の報告と同様に、女兒、秋から冬出生に多く、リスクファクタとして認識すべきものであると思われた。厚い衣服や布団による下肢の伸展強制や自動運動の制限の関連性による後天的な要因は防止可能であるため、検診時に身体所見を有した症例のみでなく、所見がない症例の保護者にも注意喚起を行うことが必要である。

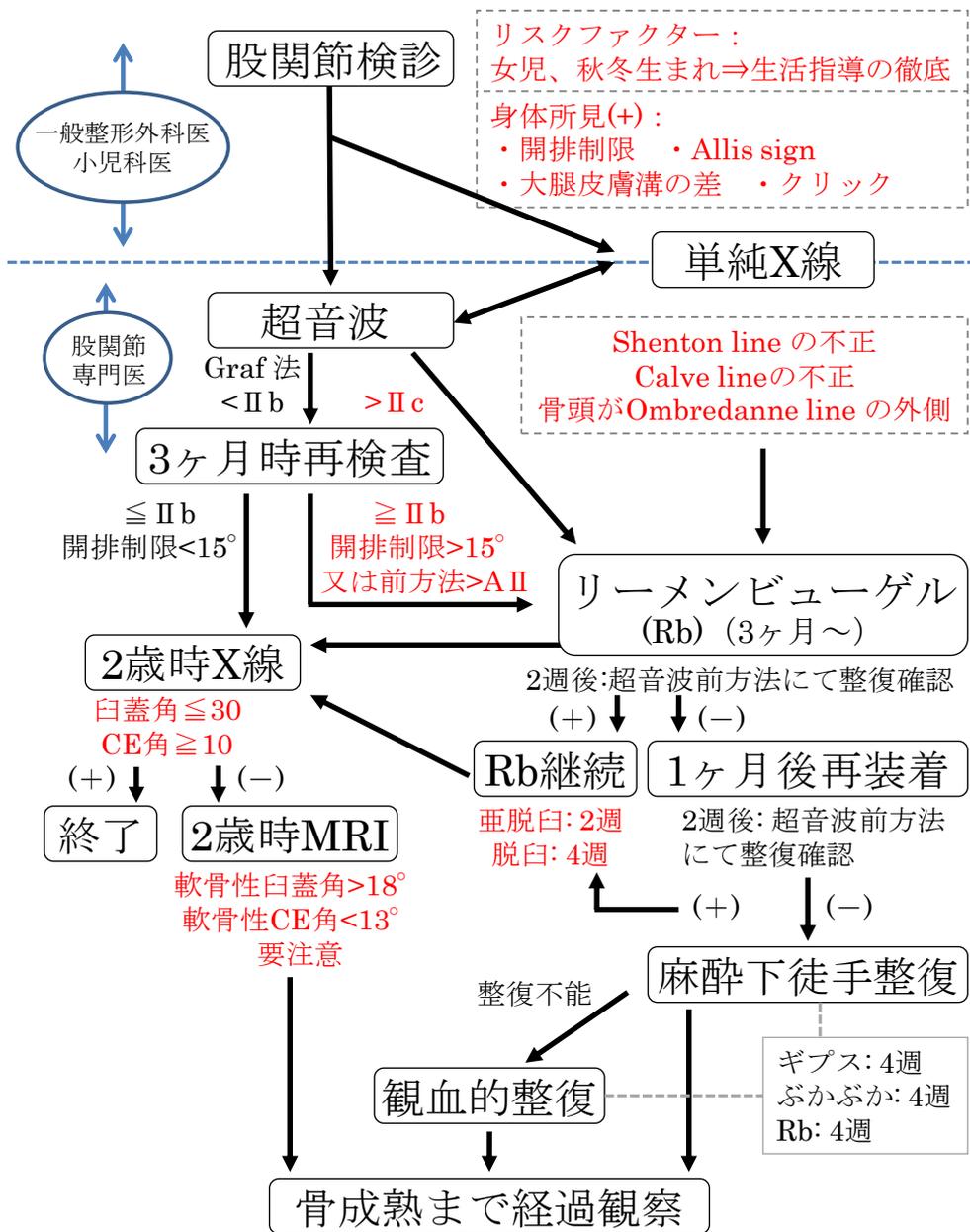


図 28 当院の治療方針

8.3 超音波診断

超音波は放射線の被曝がないだけでなく、単純X線より早く骨端核（二次骨化中心）の検出や、骨化する臼蓋嘴を捉えることができるため、先天性股関節脱臼の早期発見や臼蓋形成不全の判断に有用である[78]。Graf法だけでなく、1991年 Suzuki[79]は前方法での、恥骨と大腿骨頭の位置関係から先天性股関節脱臼を判断する方法を報告した。当院では、骨端核が成熟して腸骨下端が描出されなくなる1歳前後までは、Graf法と前方法で診断や経過観察を行い、リーメンビューゲルやギプス装着中は前方法で求心位の確認を行っている。

当院で治療を行った先天性股関節脱臼をみると、脱臼 9.6%、亜脱臼 29.1%、臼蓋形成不全 50.7%、開排制限 10.5%であった。これを年度別診断で図 26 に示すと、1993年頃を境に大きく内容が変化したことがわかる。1年あたりの治療症例が少なくなり、診断別割合も1993年までは臼蓋形成不全の割合が多かったことに比べ、1994年以降は脱臼、亜脱臼の割合が過半数を占めるようになった。この背景には超音波診断の導入があげられる。当院では1993年からそれまで行っていた身体所見と単純X線に加え、超音波を取り入れるようになり、リーメンビューゲルの適応基準にはそれまでのX線所見と、超音波 Graf法が加えられた。X線では、姿位の傾きなどにより、正確な判断が困難な場合もあり、超音波導入以降は診断の精度が向上し、主に脱臼、亜脱臼を対象に治療を行うようになったことが考えられる。

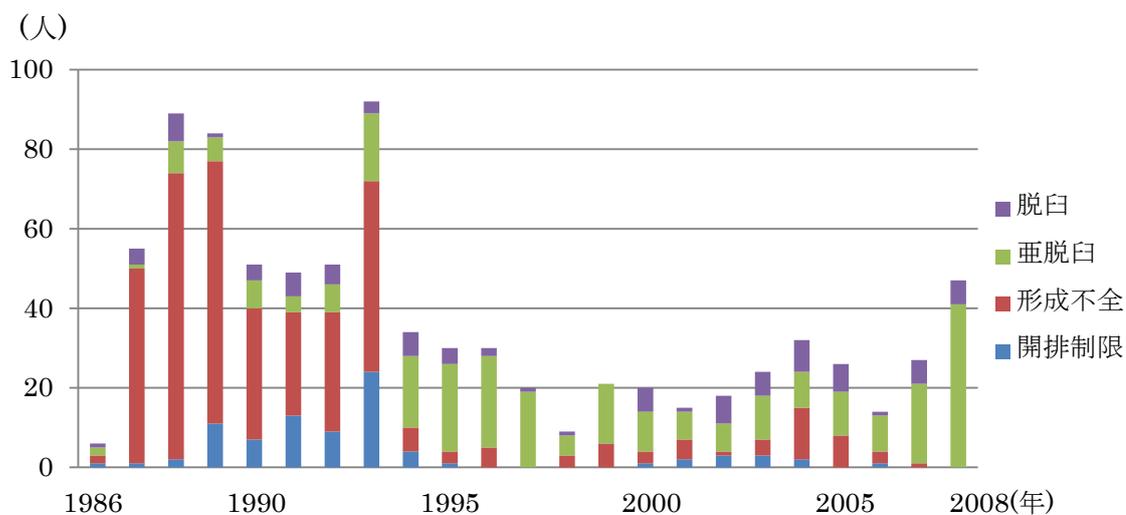


図 26 年別症例数と診断

8.4 リーメンビューゲルの適応と装着期間

当院での治療内容に関して、95.2%はリーメンビューゲルによる治療であった。リーメンビューゲルの適応に関しては、Graf 法 II c 以上である亜脱臼、脱臼については異論のないところである。しかし、不安定性のない臼蓋形成不全や大腿骨頭の求心性は良好であるにもかかわらず、開排制限が認められる症例に対しても治療の第一選択となっていた。

開排制限について、1988 年島田ら[80]は click sign などの脱臼の徴候のない非対称開排制限を、生下時から認められる先天性開排制限、乳児期に発症する後天性開排制限にわけ、生下時の亜脱臼や臼蓋形成不全 (dislocatable hip: hip dysplasia)、後天性脱臼との関連を検討した。それによると、先天性開排制限は亜脱臼、dislocatable hip の一臨床像であり、その予後は、6.7%が後天性脱臼を発症したが、90%以上は股関節異常を呈することなく自

然に消失したと述べている。また、後天性開排制限については、生後の向き癖など後天的な要素の関与が大きく 95%以上は股関節異常を呈することなく自然消失し、脱臼の徴候を伴わない開排制限については治療を要しないが経過観察が重要であると述べている。また、臼蓋形成不全に対する治療については、リーメンビューゲル装着例と非装着例との間で成績に差がなかったことから適応がないと考えられている[81]。小児股関節研究会幹事を対象にしたアンケート結果では、リーメンビューゲルの適応は脱臼、亜脱臼とする回答がほとんどで、臼蓋形成不全に対して使用するという回答はわずかであった[82]と報告された。

このことから、当院でも、現在は不安定性のない臼蓋形成不全や開排制限については、開排制限の強いものや悪化傾向のある症例に限ってリーメンビューゲルを装着している。今後の方針として、超音波で Graf II b 以下の症例に対しては、生活習慣の指導などを十分に行い、1ヶ月後の超音波検査で Graf II b 以下であるが開排制限が 15度以上の強いものや、前方法 A II（大腿骨頭が軽度後方へ落ち込んでいるもの）以上に対して、リーメンビューゲル装着の適応とした。

また、リーメンビューゲルの装着期間については、当院では平均 53.4 日と他院より短期間であった。現在ではさらに短縮し、脱臼については 2 週で整復が確認できれば、その後 4 週装着後除去する短期の装着を行っている。短期間の装着により、Perthes 様変形発生、筋力の低下などが原因でおこる大腿骨頭の外方化、運動発達の遅延などの防止に関連するとの考えからであるが、脱臼症例のリーメンビューゲルでの整復率は 52.0%と他報告と比

べて低い結果であり、装着方法や装着期間についてはリーメンビューゲルの適応を絞った新しい基準で前向き研究による検証が必要である。

8.5 2歳時の単純X線判断基準

2歳時に終了となった軽症例の予後調査からは、2歳で臼蓋角 30 度未満、CE 角 10 度以上の判断基準において、96.0%が良好な結果となった。不良であった 2 例において 2 歳時の CE 角が 10 度未満であり、判断が不適切だったことを考えると 2 歳での判断基準としては妥当であったと考えられた。よって、今後も 2 歳時において臼蓋角 30 度未満、CE 角 10 度以上で骨頭の変形などがなければ診察終了とし、この基準を満たさない症例に関するのみ MRI 撮影による軟骨性臼蓋の評価を行い経過観察することとした。

8.6 臼蓋形成能の予測について

研究 2 では長期経過観察が必要であった症例について経時的 X 線評価を行った。6 歳以降では不良群の改善が認められないことより、6 歳以降は臼蓋形成能が小さいことが考えられた。よって、臼蓋形成が不良な症例や遺残性亜脱臼に対して骨切り術を検討する年齢は従来の報告どおり 6 歳までに行う必要があると考えられた。さらに、研究 3 では 2 歳時の MRI 軟骨性臼蓋から、将来の骨性臼蓋を予測するカットオフ値として軟骨性臼蓋角 18 度、軟骨性 CE 角 13 度を設定した。

これまで、MRI での軟骨性臼蓋の評価の報告では、将来の骨性臼蓋の予測を定量的に評価したものはなく、今後、長期経過観察を行い骨成熟時の評価を行うとともに、今回算出したカットオフ値が有用な骨形成の予測値となるかについての前向き調査を行っていく予定である。

臼蓋角では 65.7%が、CE 角で 72.4%が軟骨性臼蓋の形成が不良であり、将来の臼蓋形成も不良であった。2 歳時の MRI ではおおよその予想は可能であるが、その後の大腿骨頭の求心性や、その症例のもつ内因性の臼蓋形成能などによっても結果が異なり、MRI での質的評価も含めた経過観察が必要であると思われた。

また、今回の MRI の評価では、冠状断で臼蓋角と CE 角のみを測定した。この方法では前方の臼蓋被覆の評価は不十分である。臼蓋形成不全は側方被覆だけでなく、前方の被覆も乏しく[83]、関節前方の適合性も不良な症例もある[84]ため、今後は矢状断、水平断の評価を加え 3 次元的な形態評価を行う必要があると考える。

研究 2 では 12 歳以上まで経過観察行った 51 例中 39 例(76.4%)、研究 3 では 6 歳位以上まで経過観察行い 2 歳時 MRI 撮影を行った 119 例中 45 例(37.8%)、研究 4 では 2 歳時治癒と判断され現在 14 歳以上である 291 例中 71 例(23.4%)が対象となった (図 27)。症例数としては十分とはいえ、今後、上記の治療方針に従った前向き調査による検証が必要であると考えている。

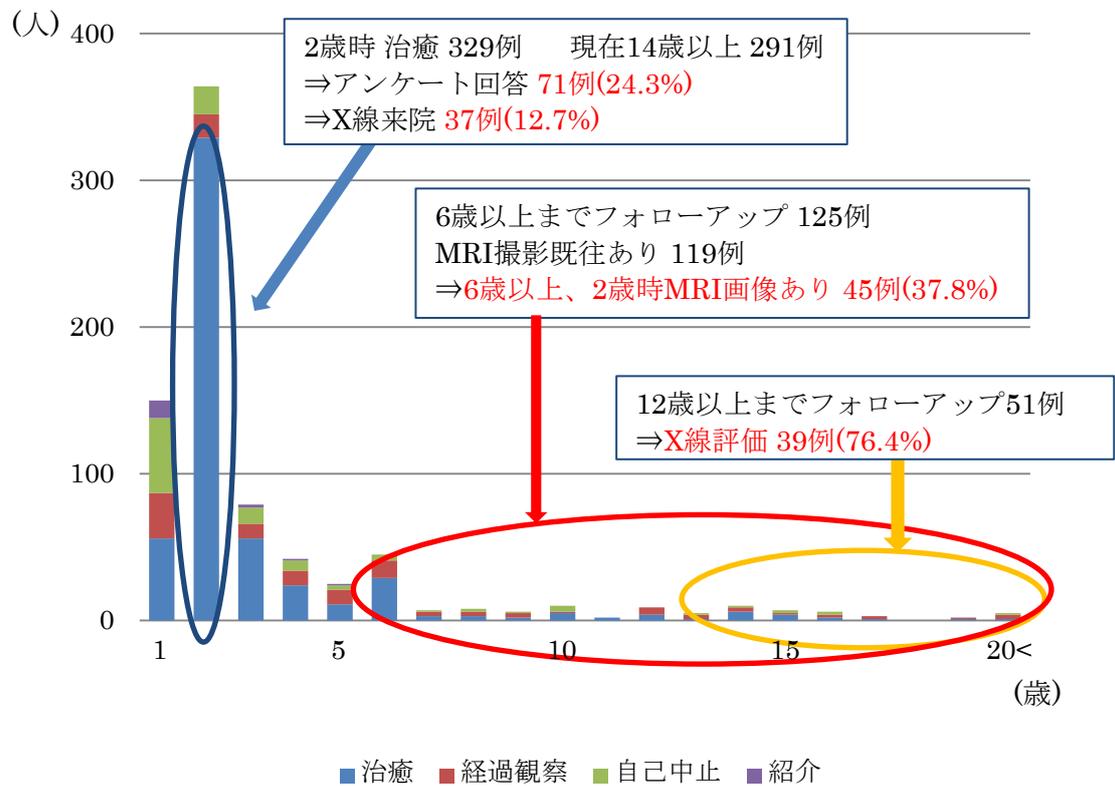


図 27 最終受診年齢と症例数

第9章 結論

当院での先天性股関節脱臼治療の特徴は、リーメンビューゲルを主としたものであり、亜脱臼、脱臼の整復率は88.1%であった。2歳時のX線で臼蓋角30度未満、CE角10度以上の判断基準で、その後の長期経過は良好であった。整復後の骨性臼蓋の発育については、6歳以降は臼蓋形成能が小さくなると考えられるため、早期の予後判定が有効である。今回の研究により、将来の骨性臼蓋予測がある程度可能となり、2歳時のMRIによる軟骨性臼蓋のカットオフ値は、軟骨性臼蓋角18度、軟骨性CE角13度と設定した。

1986年より筑波大学附属病院にて治療を行った先天性股関節脱臼の症例の評価を行い、新しい治療方針を決定した。この妥当性については今後各種の前向き調査が必要である。

参考文献

- [1] Dunn PM. Congenital dislocation of the hip (CDH): necropsy studies at birth. Proc R Soc Med 1969; 62:1035-1037.
- [2] 小児整形外科の要点と盲点. 先天性股関節脱臼 ①診断と治療方針. 文光堂. 2009: 122-125
- [3] Tachdjian's Pediatric Orthopaedics. developmental dysplasia of the hip. Saunders.2007: 637-770
- [4] Chan A, McCaul KA, Cundy PJ, Haan EA, Byron Scott R. Perinatal risk factors for developmental dysplasia of the hip. Archives of disease in childhood.Fetal and neonatal edition 1997; 76:F94-100.
- [5] Koureas G, Wicart P, Seringe R. Etiology of developmental hip dysplasia or dislocation: review article. Hip International 2007; 17 Suppl 5:S1-S7.
- [6] 北野 利夫. 【関節疾患の視診・触診のコツ】 小児股関節の診療 視診・触診のコツ. Orthopaedics 2007; 20:42-52.
- [7] 小児整形外科テキスト. 先天性股関節脱臼. メジカルビュー社. 2005: 37-67.
- [8] 野口 康男. 先天性股関節脱臼に対する徒手整復後の股関節の発育 幼児期におけるレ線予後推定の試み. 整形外科と災害外科 1990; 39:197-200.
- [9] 骨・関節 X線写真の撮り方と見かた. 股関節. 医学書院. 2000: 116.
- [10] Pavlik A. Die funktionelle behandlungsmethode mittels Riemenbugel als prinzip der konservativen therapie bei angeborenen Huftgelenksverrenkungen der sauglinge. Z Orthop. 1957; 89: 341-352.
- [11] 鈴木良平. 先天性股関節脱臼とその機能的治療. 南江堂. 1970
- [12] 鈴木良平. 先天股脱の軌跡—診断・治療・予防の物語—. 医歯薬出版. 1988
- [13] Mittelmeier H. Beitrag zur funktionellen therapie und spontanreposition der angeborenen Luxationshutte mit spreizhoschen und Pavlik bandage. Arch Orthop

Unfallchir. 1961; 52: 465-552

[14] 鈴木良平. 先天股脱, あすへの整形外科展望 保存療法の適応と限界. 金原出版. 1979: 109-115.

[15] 山田順亮. 先天性股関節脱臼診療のポイント. 金原出版. 2002: 40-41.

[16] 石田 勝. 先天股脱の保存的治療 Over-Head Traction の改良法. 整形外科 MOOK 1983:57-66.

[17] Ludloff K: The open reduction of the congenital hip dislocation by an anterior incision. Journal of bone and joint surgery. 1913; s2-10:438-454

[18] 岡野 邦彦. 先天性股関節脱臼に対する手術時年齢と調査時骨頭変形の関連 Ludloff 法による観血的整復術. 日本整形外科学会雑誌 2007; 81:S452.

[19] Matsushita T, Miyake Y, Akazawa H, Eguchi S, Takahashi Y. Open reduction for congenital dislocation of the hip: comparison of the long-term results of the wide exposure method and Ludloff's method. Journal of Orthopaedic Science 1999; 4:333-341.

[20] 池田 威. 先天股脱に対する観血整復術の限界. 日本小児整形外科学会雑誌 1994; 3:392-394.

[21] 田辺 剛造. 先天股脱観血的整復術. 臨床整形外科 1987; 22:738-750.

[22] 松野 丈夫. 標準整形外科学. 第5編 疾患各論 股関節. 医学書院 2000 :478

[23] Mitchell GP: Arthorography in congenital displacement of the hip. Journal of bone and joint surgery. British volume 1963; 45: 88-95.

[24] Bos CF, Bloem JL, Obermann WR, Rozing PM. Magnetic resonance imaging in congenital dislocation of the hip. Journal of bone and joint surgery. British volume 1988; 70:174-178.

[25] 阿部 亮子. 先天性股関節脱臼における関節唇の3DMRIによる評価. 日本小児整形外科学会雑誌 2011; 20:49-53.

[26] ラインハルト グラフ. 乳児股関節エコーと先天股脱の治療. メディカ出版. 1997

- [27] Ponseti IV. Growth and development of the acetabulum in the normal child. Anatomical, histological, and roentgenographic studies. *Journal of Bone and Joint Surgery American* volume 1978; 60:575-585.
- [28] Salter RB. Innominate osteotomy in the treatment of congenital dislocation and subluxation of the hip. *Journal of bone and joint surgery. British* volume 1961; 43: 518-539.
- [29] Harris NH, Lloyd Roberts GC, Gallien R. Acetabular development in congenital dislocation of the hip. With special reference to the indications for acetabuloplasty and pelvic or femoral realignment osteotomy. *Journal of bone and joint surgery. British* volume 1975; 57:46-52.
- [30] 東 博彦. ヒト寛骨臼の発育 関節軟骨と Y 軟骨の成長帯軟骨増殖を対比して. *日本整形外科学会雑誌* 1984;58(6):583-90.
- [31] Nakamura J, Kamegaya M, Saisu T, Someya M, Koizumi W, Moriya H. Treatment for developmental dysplasia of the hip using the Pavlik harness: long-term results. *Journal of bone and joint surgery. British* volume 2007; 89:230-235.
- [32] Ohmori T, Endo H, Mitani S, Minagawa H, Tetsunaga T, Ozaki T. Radiographic prediction of the results of long-term treatment with the Pavlik harness for developmental dislocation of the hip. *Acta Med Okayama* 2009; 63:123-128.
- [33] Albinana J, Dolan LA, Spratt KF, Morcuende J, Meyer MD, Weinstein SL. Acetabular dysplasia after treatment for developmental dysplasia of the hip. Implications for secondary procedures. *Journal of bone and joint surgery. British* volume 2004; 86:876-886.
- [34] 向井 直樹. 幼児股関節臼蓋形成不全に対する MRI の検討. *日本小児整形外科学会雑誌* 1993; 3:73.
- [35] Graf R. Classification of hip joint dysplasia by means of sonography. *Archives of orthopaedic and traumatic surgery* 1984; 102:248-255.
- [36] Graf R. The diagnosis of congenital hip-joint dislocation by the ultrasonic Combound treatment. *Archives of orthopaedic and traumatic surgery* 1980; 97:117-133.

- [37] 山崎 謙. 先天股脱の超音波診断に関する研究. 日本整形外科学会雑誌 1995; 69:399-410.
- [38] Graf R. Fundamentals of sonographic diagnosis of infant hip dysplasia. J Pediatr Orthop 1984; 4:735-740.
- [39] 片岡 浩之. 先天性股関節脱臼の季節変動. 日本小児整形外科学会雑誌 2008; 17:87.
- [40] 薩摩 真一. 先天性股関節脱臼の疫学調査 兵庫県立こども病院における症例の検討. 日本小児整形外科学会雑誌 2008; 17:298.
- [41] 中塚 洋一. 【香川県におけるスクリーニングの現状】 先天性股関節脱臼の診断と超音波スクリーニング. 香川県小児科医会会誌 2007:11.
- [42] 片岡 浩之. 滋賀県における先天性股関節脱臼発生の推移. 日本小児整形外科学会雑誌 2008; 17:303-307.
- [43] Wilkinson JA. A post-natal survey for congenital displacement of the hip. Journal of bone and joint surgery. British volume 1972; 54:40.
- [44] 産婦人科診療. 周産期. 永井出版. 2006
- [45] 最新産科学 異常編. 文光堂. 2012.
- [46] 産婦人科学テキスト. 中外医学社. 2008.
- [47] 菅野 大己. 乳児先天性股関節脱臼の疫学調査. 北海道整形災害外科雑誌 1988; 32:107-112.
- [48] Kitoh H, Kawasumi M, Ishiguro N. Predictive factors for unsuccessful treatment of developmental dysplasia of the hip by the Pavlik harness. J Pediatr Orthop 2009; 29:552-557.
- [49] Cashman JP, Round J, Taylor G, Clarke NMP. The natural history of developmental dysplasia of the hip after early supervised treatment in the Pavlik harness. A prospective, longitudinal follow-up. Journal of bone and joint surgery. British volume 2002; 84:418-425.

- [50] Ucar DH, Isiklar ZU, Kandemir U, Tumer Y. Treatment of developmental dysplasia of the hip with Pavlik harness. *J Pediatr Orthop, British volume* 2004; 13: 70-74.
- [51] 小林 大介. 当院におけるリーメンビューゲル法の治療成績. *日本小児整形外科学会雑誌* 2006; 15:181.
- [52] 中村 順一. 先天性股関節脱臼に対するリーメンビューゲル法の長期成績. *日本小児整形外科学会雑誌* 2006; 15:185.
- [53] 和田 晃房. 先天性股関節脱臼の治療. *日本小児整形外科学会雑誌* 2008; 17:308.
- [54] 赤澤 啓史. 先天股脱に対する治療体系と成績 岡山大学関連施設において. *日本小児整形外科学会雑誌* 2008; 17:319.
- [55] Morino T, Miyake Y, Matsushita T, Itadera E. Pavlik harness applications for congenital dislocation of the hip. How short can they be made? *Arch Orthop Trauma Surg* 1998; 117:89-91.
- [56] 熊沢 宏. リーメンビューゲル法による先天性股関節脱臼整復例の長期成績. *日本整形外科学会雑誌* 1991; 65:851-861.
- [57] 市村文男. リーメンビューゲル法の乳児先天股脱の治療経験. *中部整災誌*. 1979;22:757-778.
- [58] 藤井 玄二. 臼蓋形成不全股の推移 Rb 装着群と自然経過観察群の比較検討. *臨床整形外科* 1989; 24:621-628.
- [59] Classic. Translation: Hilgenreiner on congenital hip dislocation. *J Pediatr Orthop* 1986; 6:202-214.
- [60] Sharp IK. Acetabular dysplasia. *Journal of bone and joint surgery. British volume* 1961; 43:268-272.
- [61] Wiberg G. Studies on dysplastic acetabular and congenital subluxation of the hip joint. *Acta Chir Scand*. 1939; 83: Supple58.
- [62] Severin E. Congenital dislocation of the hip joint. *Acta Chir Scand*. 1941; 84: Suppl63.

- [63] 杉本 信幸. 保存的に加療した片側先天股脱の長期経過例の X 線学的検討. 整形外科 1993; 44:863.
- [64] 大石 年秀. 性股関節脱臼における徒手整復法の適応と限界. 整形・災害外科 1993; 36:549.
- [65] Spatz DK, Reiger M, Klaumann M, Miller F, Stanton RP, Lipton GE. Measurement of acetabular index intraobserver and interobserver variation. J Pediatr Orthop 1997; 17(2):174-5.
- [66] Broughton NS, Brougham DI, Cole WG, Menelaus MB. Reliability of radiological measurements in the assessment of the child's hip. Journal of bone and joint surgery. British volume 1989; 71(1):6-8.
- [67] Zamzam MM. Acetabular cartilaginous angle: a new method for predicting acetabular development in developmental dysplasia of the hip in children between 2 and 18 months of age. J Pediatr Orthop 2008; 28:518-523.
- [68] Wiem DK, Smida M, Louati H, Hassine LB, Bouchoucha S, Saied W, Ladeb MF, Ghachem MB, Bellagha I. Magnetic resonance evaluation of acetabular residual dysplasia in developmental dysplasia of the hip. J Pediatr Orthop 2010; 30:37-43.
- [69] 大石 年秀. 先天性股関節脱臼の寛骨臼発育を障害する因子に関する実験的研究. 日本整形外科学会雑誌 1990;64(10):958-75.
- [70] 藤井 玄二. 臼蓋形成不全股の推移 Rb 装着群と自然経過観察群の比較検討. 臨床整形外科 1989;24(5):621-8.
- [71] Okano K. Bilateral incidence and severity of acetabular dysplasia of the hip. Journal of Orthopaedic Science 2008; 13:401.
- [72] Fisher R. Magnetic resonance imaging in congenital dysplasia of the hip. J Pediatr Orthop 1991; 11:617.
- [73] Wakabayashi K. MRI findings in residual hip dysplasia. J Pediatr Orthop 2011; 31:381.

- [74] Mubarak S. Pitfalls in the use of the Pavlik harness for treatment of congenital dysplasia, subluxation, and dislocation of the hip. *Journal of bone and joint surgery*. 1981; 63: 1239
- [75] 日下部 浩. 先天性股関節脱臼に対するリーメンビューゲル法の長期成績. *日小整会誌* 2006;15:190.
- [76] 川添浩史. 成長期のスポーツ外傷・障害と落とし穴. 2012; 47:881-884.
- [77] 田島 卓也. 成長期のスポーツ外傷・障害と落とし穴 股関節. *臨床整形外科* 2011; 46:943-945.
- [78] 森 知里. 先天性股関節脱臼に対する超音波検査の利用. *昭和医学会雑誌* 2009; 69:131-142.
- [79] Suzuki S, Kasahara Y, Futami T, Ushikubo S, Tsuchiya T. Ultrasonography in congenital dislocation of the hip. Simultaneous imaging of both hips from in front. *Journal of bone and joint surgery*. British volume 1991; 73:879-883.
- [80] 島田 幸造. 新生児・乳児期の股関節の非対称性開排制限の病態について 後天性脱臼との関連について. *中部日本整形外科学会雑誌* 1988; 31:1188-1189.
- [81] 中村 茂. 卒後研修講座 形成不全股の治療 乳児から高齢者まで. *整形外科* 2011; 62:75-79.
- [82] 和田 郁雄. RB 治療の標準化に向けて 我が国での先天股脱に対するリーメンビューゲル治療の現状. *日本小児整形外科学会雑誌* 2009; 18:272-275.
- [83] 坂井 孝司. 日本人女性の股関節臼蓋に対する 3次元形態評価. *Hip Joint* 2009; 35:657-659.
- [84] 田中 祥継. CT による臼蓋形態評価 関節前方の適合性について. *Hip Joint* 2010; 36:695-697.

学会発表

第 82 回日本整形外科学会学術総会

2009 年 5 月 福岡

両側先天性股関節脱臼の治療成績

阿部亮子, 鎌田浩史, 三島 初, 宮川俊平, 向井直樹, 西野衆文, 中村木綿子, 落合直之

第 20 回日本小児整形外科学会

2009 年 12 月 松山

先天性股関節脱臼における関節唇の 3DMRI による評価

阿部亮子, 鎌田浩史, 三島 初, 中村木綿子, 岡本嘉一, 落合直之

5th Triennial Congress of the International Federation of Paediatric Orthopaedic Societies

2010 年 9 月 Seoul

Identification of background risk factors and effect on the severity of developmental dysplasia of the hip

R Abe, H Kamada, H Mishima, S Miyakawa, T Nishino, Y Nakamura, N Ochiai,

第 21 回日本小児整形外科学会

2010 年 11 月 徳島

先天性股関節脱臼整復前後の関節唇の変化～3DMRI を用いて～

阿部亮子, 鎌田浩史, 三島 初, 西野衆文, 中村木綿子, 岡本嘉一, 落合直之

第 38 回日本股関節学会

2011 年 10 月

先天性股関節脱臼における関節唇の形態-3DMRI を使用して-

竹内亮子, 鎌田浩史, 三島初, 菅谷久, 西野衆文, 落合直之

97th Scientific assembly and annual meeting of Radiological Society of North America

2011 年 11 月 Chicago

Three-dimensional magnetic resonance imaging evaluation of the labrum in patients with developmental dysplasia of the hip.

R Abe, H Kamada, H Mishima, Y Okamoto, S Miyakawa, N Ochiai

Annual meeting of American Academy of Orthopaedics Surgeons

2012 年 2 月 Sanfrancisco

MRI scans can predict acetabular coverage after bone maturation in patients with developmental dysplasia of the hip.

R Abe, H Kamada, S Miyakawa, N Ochiai

参 考 论 文

Air embolism during arthrography for developmental dysplasia of the hip

Ryoko Takeuchi,¹ Hiroshi Kamada,²
Yuki Sato,² Masataka Sakane²

¹Department of Orthopaedic Surgery, Graduate School of Comprehensive Human Science; ²Department of Orthopaedic Surgery, Faculty of Medicine, University of Tsukuba, Ibaraki, Japan

Abstract

Arthrography is useful method to evaluate obstruct factors and the congruity of the femoral head for developmental dysplasia of the hip. We usually use an air injection to ascertain whether the needle is accurately insert intraarticularly, because leakage of the contrast medium may make it difficult to identify intraarticular structure in the hip joint. We report the experience the case that suspected air embolism by air injection in the arthrogram. An air injection for arthrography must be avoided the case of infants. To confirm that a needle is correctly inserted intraarticularly, it is preferable to inject saline. Alternatively, it may be suitable to use sonography for confirming the position of the needle for arthrography.

Introduction

During the treatment of developmental dysplasia of the hip (DDH) by closed reduction under general anesthesia, arthrography is used to evaluate obstructions such as the labrum, ligamentum teres, and pulvinar, and the congruity of the femoral head. The utility of arthrography has been previously reported.^{1,2} However, an air embolism may occur as a complication of arthrography. Air embolisms are usually caused by various diagnostic and therapeutic air injections, certain surgical procedures, obstetrical procedures, and accidental entrance of air into intravenous catheters.^{3,4}

We report the case of an 8-month-old patient with DDH, in whom an air embolism was suspected during arthrography.

Case Report

The patient was an 8-month-old female

infant with left DDH. She had been diagnosed with dislocation of the left hip at another hospital at the age of 3 months, and she was treated with a Pavlik harness for 4 weeks. However, her left hip was not reduced, and she was admitted to our institution at the age of 8 months. The anteroposterior radiograph showed that the left femoral head was completely dislocated and had shifted to the lateral and proximal side (Figure 1). She did not have the abnormality at the time of birth; in addition, no past illness, allergy, or family history of DDH were noted. At our institution, she underwent closed reduction under general anesthesia. Her hip joint was reduced; however, it was unstable, and the femoral head was easily dislocated when we decreased the hip abduction angle down to 60°.

Subsequently, arthrography was performed to verify the reduction and to analyze the obstructive factors and afferent nature of the femoral head. First, the legs were maintained in the *frog-leg* position, and then, a 23-gauge Cathelin needle was inserted in the central part of the femoral proximal epiphyseal line using the anterior approach. After confirming that blood was not aspirated, 1 mL of air was injected to confirm that the Cathelin needle was accurately sited in the joint; subsequently, we injected 1 mL of the contrast medium.

Two minutes after air injection, the end-tidal carbon dioxide (ETCO₂) concentration decreased suddenly from 37 mmHg to 19 mmHg, and the blood oxygen concentration decreased from 99% to 97% (Figure 2). The anesthesiologist noticed the change, and he increased oxygenation from 33% oxygen to 100% under observation. The blood oxygen concentration and ETCO₂ concentration gradually improved and returned to normal values after 2 min and 12 min, respectively. Other vital signs such as blood pressure and pulse rate remained unchanged. An arthrogram showed good reduction of the femoral head. Plaster cast fixation was performed at an abduction angle of approximately 70°. After the operation, she was placed in a plaster cast, abduction brace, and Pavlik harness, for 4 weeks each. At the latest examination performed at the age of 4 years, the patient had not experienced any recurrence of dislocation.

Discussion and Conclusions

When performing arthrography to evaluate DDH, before injection of the contrast medium, an air injection is occasionally used to ascertain whether the needle is accurately inserted intraarticularly. Leakage of the contrast medium may make it difficult to identify intraarticular structures in the hip joint (Figure 3A and B).

Air embolism during arthrography is rare,

Correspondence: Ryoko Takeuchi, Department of Orthopaedic Surgery, Graduate School of Comprehensive Human Science, University of Tsukuba, 1-1-1 Tennodai, Tsukuba, Ibaraki 305-8575, Japan.

Tel. +81.29.853.3219 - Fax: +81.29.853.3214.

E-mail: a_boor88@yahoo.co.jp

Key words: air embolism, arthrography, end-tidal carbon dioxide (ETCO₂), child.

Conflict of interests: the authors declare no potential conflict of interests.

Received for publication: 16 October 2012.

Revision received: not required.

Accepted for publication: 5 February 2013.

This work is licensed under a Creative Commons Attribution NonCommercial 3.0 License (CC BY-NC 3.0).

©Copyright R. Takeuchi et al., 2013

Licensee PAGEPress, Italy

Clinics and Practice 2013; 3:e12

doi:10.4081/cp.2013.e12

but it is recognized as a life-threatening complication that warrants attention. The pathophysiology of air embolism involves obstruction of the pulmonary arterial outflow tract by air bubbles.³ Air may be forced into the vein by positive pressure, or may be drawn in by negative pressure in the joint.⁴ The initial sign of air embolism is a sudden change in respiratory parameters, and various cardiopulmonary symptoms and signs are observed.⁵ In our case, after air injection, a sudden decrease in ETCO₂ concentration (from 37 mmHg to 19 mmHg), and a slight decrease in blood oxygen concentration (from 99 mmHg to 97 mmHg) occurred. No changes in heart rate and blood pressure were observed. The anesthesiologist considered the possibility of an air embolism because these changes occurred soon after air injection and recovered after O₂ administration. Similarly, a few studies have reported that air embolism was diagnosed by decrease in ETCO₂ concentration and decrease in blood oxygen during hip arthrography of children.⁶ Keidan *et al.*⁶ reported a case of air embolism during arthrography in an 18-month-old male infant with DDH. Even in their case, a sudden decrease in ETCO₂ concentration and slight decrease in blood oxygen concentration were observed. They reported that after normal ventilation was achieved, the decrease in ETCO₂ concentration was related closely to the pulmonary blood flow. Furthermore, they reported that when pulmonary blood flow is obstructed by an embolus, smaller quantities of blood enter the pulmonary capillaries, which is reflected by a decrease in ETCO₂ concentra-

tion. Although ETCO_2 concentration is a non-specific monitoring method, it indicates an increase in dead space. During the procedure, ETCO_2 monitoring is critically important, because it can indicate the occurrence of air embolism.

Most cases of arthrography complicated by air embolism have been reported in children.⁷⁻¹⁰ Air embolism led to the onset of transient respiratory disorders in all these cases, except in 1 case, in which a temporary cardiac arrest occurred with approximately 2-3 mL of air.⁷

In a canine study, it was concluded that the severity of the air embolism is associated with the quantity of air injected and speed at the time of injection.³ However, in humans, particularly in infants, most cases of air embolism involve injections of less than 5 mL of air. Therefore, in infants, it is considered that air embolism can occur with a small amount of air that is rapidly injected.⁶⁻¹⁰

In this case, the blood oxygen concentration and ETCO_2 concentration gradually improved and returned to normal after 2 min and 12 min, respectively. However, a patient with suspected air embolism should be placed in the left lateral head down position so that air in the right ventricle moves away from the pulmonary arterial outflow tract to the apex.³ Other therapies for air embolism are oxygen administration, cardiopulmonary resuscitation as needed, and aspiration of air from the heart if feasible.

Several techniques have been used to confirm accurate intraarticular needle insertion. Yun *et al.*¹¹ reported the suction-bubble technique, in which the movement of air bubbles can be visualized in the attached tubing. Straw *et al.*¹² reported a method based on adduction signs. According to their method, saline is injected into the hip with the patient in the frog-leg position: if the needle is correctly placed, then, when the joint is distended, the knee will rise (adduct) from the operating table. The alternative use of carbon dioxide (CO_2) and oxygen (O_2), instead of air, has also been suggested, because these gases are absorbed faster by the blood and are therefore considered safer than air.⁷ However, there are a few reports of embolism caused by CO_2 ¹³ and O_2 .¹⁴ Therefore, the safety of CO_2 and O_2 injections is not certain.

After our experience with this case, we began to inject saline for confirmation of the needle position before injection of the contrast media. If the needle is positioned correctly in the joint, the water flows freely in the joint.² As an alternative method, ultrasonography has recently been proposed for guiding aspiration of the hip in children.¹⁵ Ultrasonography has the added advantage of avoiding radiation exposure. It appears as an accurate method to determine whether a needle is correctly inserted intraarticularly before injection of the con-

trast media.

Arthrography is advantageous since it permits a functional study and can confirm congruity of the femoral head immediately after reduction. We believe that arthrography is necessary for the evaluation of closed reduction of DDH. However, our case and other reports suggest that in the case of infants, an air injection for arthrography must be avoided. To confirm that a needle is correctly inserted intraarticularly, it is preferable to inject saline. Alternatively, it may be suitable to use sonography for confirming the position of the needle for arthrography.



Figure 1. Anteroposterior hip radiograph of an 8-month-old female patient with left developmental dysplasia of the hip. The left hip was not reduced by the Pavlik harness.

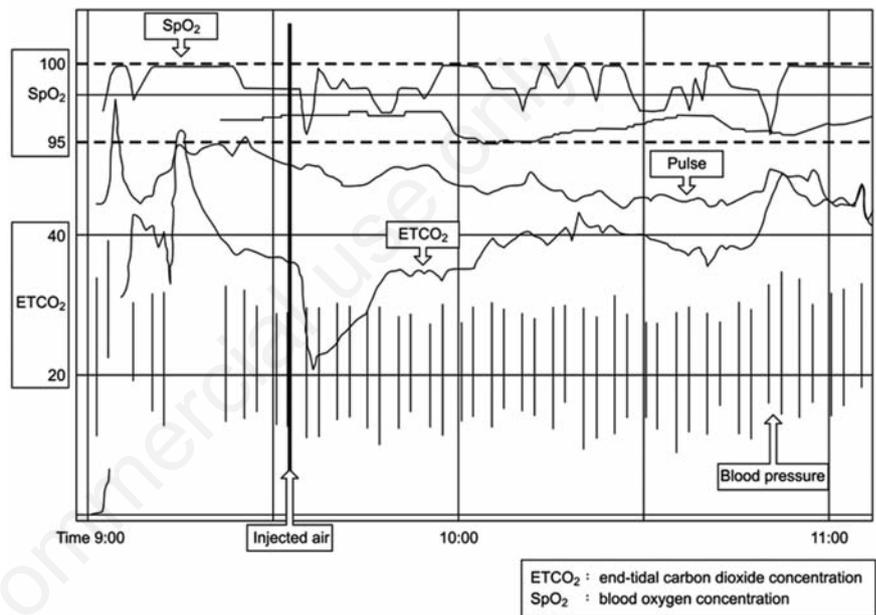


Figure 2. Automated data recording shows that after air injection, the end-tidal carbon dioxide concentration suddenly decreased from 37 mmHg to 19 mmHg, and blood oxygen concentration decreased from 99% to 97%.

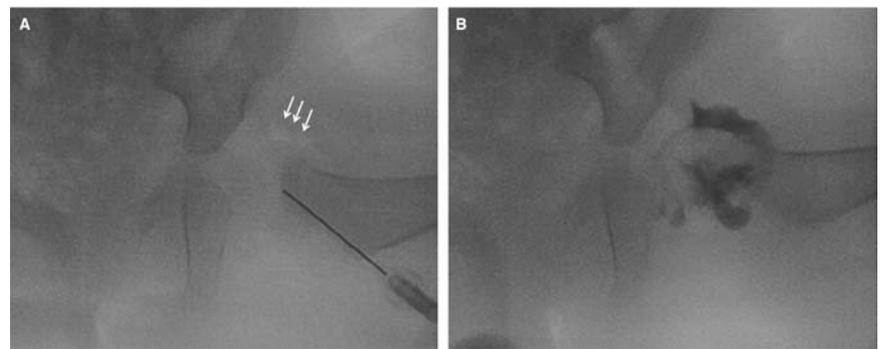


Figure 3. A) Air injection during arthrography. One mL of air is injected to confirm accurate intraarticular needle placement. The arthrogram shows that the needle has been inserted intraarticularly in the upper part of the femoral head. B) Arthrography with contrast media. Good reduction of the femoral head is seen, and pooling of the contrast media is not seen between the acetabulum and femoral head.

References

1. Erik Severin. Arthrography in congenital dislocation of the hip. *J Bone Joint Surg* 1939;21:304-13.
2. Mitchell GP. Arthrography in congenital dislocation of the hip. *J Bone Joint Surg* 1963;45-B:88-9.
3. Durant TM, Long J, Oppenheimer MJ. Pulmonary (venous) air embolism. *Am Heart J* 1947;33:269-81.
4. Kobayashi S, Takei T. Venous air embolism during knee arthrography. A case report. *Arch Orthop Trauma Surg* 1991;110:311-3.
5. Kizer KW, Goodman PC. Radiographic manifestations of venous air embolism. *Radiology* 1982;144:35-9.
6. Keidan I, Givon U, Berkenstadt H, Perel A. Venous air embolus during arthrography in a child: vital signs changes illustrated by the automated data recording system. *Paediatr Anaesth* 2002;12:362-4.
7. McCauley RG, Wunderlich BK, Zimble S. Air embolism as a complication of hip arthrography. *Skeletal Radiol* 1981;6:11-3.
8. Hetherington RG, McQuillan PM. Venous air embolism during hip arthrography. *Anesth Analg* 1989;69:264.
9. Sarantopoulos S, Lew J. Suspected case of venous air embolism in an infant undergoing hip arthrogram. *Anaesth Intensive Care* 2004;32:423-5.
10. Lamdan R, Sadun A, Shamir MY. Near-fatal air embolus during arthrography of the hip in a baby aged four months. *J Bone Joint Surg* 2007;89:240-1.
11. Yun AG, Reinker K. Accurate needle placement by the suction-bubble technique for hip arthrography. *J Pediatr Orthop* 1999;19:632-4.
12. Straw R, Chell J, Dhar S. Adduction sign in pediatric hip arthrography. *J Pediatr Orthop* 2002;22:350-1.
13. Nishanian EV, Goudsouzian NG. Carbon dioxide embolism during hip arthrography in an infant. *Anesth Analg* 1998;86:299-300.
14. Kleinberg, S. Pulmonary embolism following oxygen injection of a knee. *JAMA* 1927;89:172.
15. Cavalier R, Herman M, Pizzutillo P, Geller E. Ultrasound-guided aspiration of the hip in children: a new technique. *Clin Orthop* 2003;415:244-7.

謝辞

本論文の作成にあたり、御校閲を賜りました筑波大学医学医療系整形外科 山崎正志教授、筑波大学大学院人間総合科学研究科疾患医学専攻長 住田孝之教授に厚く御礼申し上げます。また、御指導、御校閲いただきました筑波大学臨床医学系 落合直之名誉教授、筑波大学次世代医療研究開発・教育統合センター長、医学医療系整形外科 坂根正孝准教授に深謝いたします。更に、医学医療系整形外科鎌田浩史講師のご指導に心から感謝致します。また、人間総合科学研究科スポーツ医学専攻 宮川俊平教授、向井直樹准教授、医学医療系整形外科 三島初講師の御助言に対しましてここに改めて感謝申し上げます。本研究の統計学的手法を御指導いただきました筑波大学次世代医療研究開発・教育統合センター生物統計室、医学医療系 高橋秀人准教授に厚く御礼申し上げます。