

症例報告



両側先天性膝関節脱臼に対して外固定と膝関節可動域運動による保存的治療を行い良好な経過を得た1症例*

中島宏樹・伊藤大輔

【要 旨】

【はじめに】先天性膝関節脱臼 (Congenital Dislocation of the Knee ; 以下, CDK) は発生頻度が10万人に1人といわれる稀な疾患である。また, CDK に対する理学療法 (Physical therapy ; 以下, PT) 介入の報告は極めて少ない。今回, 我々は外固定による保存的治療とともに膝関節可動域運動を行い良好な経過が得られた両側 CDK の1例を経験し, PT の有用性を示唆する稀少な症例と考えられたため報告する。【症例紹介】症例は, 緊急帝王切開にて出生した女児で, 出生時に両側下肢肢位の異常を認めた。出生時, 膝関節は60°/60°の過伸展, 脱臼を認め Drehmann 分類2度で, 明らかな基礎疾患はみられなかった。整形外科医により徒手的に整復され屈曲30°にてシーネ固定, PT 開始となった。【治療および経過】生後0日のPT開始時は膝関節屈曲30°/45°, 伸展50°/50°であった。PT では, 持続伸張による膝関節屈曲の関節可動域運動を行った。シーネ固定は2-4日間隔で屈曲角度を漸増させて連続的に行われた。PT は生後9日まで継続した。生後18日には両膝関節ともに正常可動域を獲得できた。【考察】CDK に対する保存的治療として外固定に加え, 早期からの可動域運動の併用が膝関節可動域の改善を促進する可能性が示唆された。

キーワード: 先天性膝関節脱臼, 保存的治療, 膝関節可動域運動

はじめに

先天性膝関節脱臼 (Congenital Dislocation of the Knee ; 以下, CDK) は, その発生頻度が10万人に1人といわれる稀な疾患である¹⁾。CDK は出生時に膝関節が典型的な病的過伸展を示し, 関節脱臼の有無に関わらず, 超音波検査やX線検査が診断の確定や変形の程度の評価に有用とされる²⁾。CDK の重症度分類においてコンセンサスの得られた分類はないが, 本邦からの報告で比較的引用されることの多い分類として Drehmann 分類がある³⁾⁴⁾。Drehmann は脱臼を伴わない反張膝を1度, 亜脱臼

を伴うものを2度, 脱臼を伴うものを3度と分類した⁵⁾。CDK の病因には, 羊水過少症や骨盤位による子宮内胎児期の異常な姿勢での成型, 前十字靱帯の異常, 大腿四頭筋の拘縮などの外因性因子があり, まれに Larsen 症候群, 関節拘縮症, Ehlers-Danlos 症候群, 軟骨無形成症などの内因性因子が関与することもある⁶⁾。

治療は, 保存的治療を基本とし整復後に膝関節屈曲位でのギプス固定により屈曲角度を増加させながら連続的に行うが, 改善が得られない場合は, 外科的治療を行う⁷⁾。また, 無理な屈曲は異所性骨折や骨端損傷, 血管障害につながる可能性があるため, 禁忌とされる⁷⁾。一般的に予後は良好であるが, 予後不良因子としては, 不可逆的脱臼, 全身症候群の併発, および前方皮膚溝の欠如などが報告されている⁸⁾。

CDK に対する保存的治療として外固定以外に理学療法 (Physical therapy ; 以下, PT) の適応が考えられる。出生直後に外固定を開始されたが固定した下肢の末梢循環不全のため外固定が除去さ

* A case of bilateral congenital knee dislocation: Favorable outcome through conservative treatment with splint and knee range of motion exercises

一宮市立市民病院 リハビリテーション室
(〒491-8558 愛知県一宮市文京2丁目2-22)
Hiroki Nakashima, PT, MS, Daisuke Ito, PT:
Department of Rehabilitation, Ichinomiya Municipal Hospital

E-mail: nakashima.hiroki.1007@gmail.com

(受付日 2025年5月2日/受理日 2025年6月20日)

れ、PTのみ行われた報告⁷⁾や5週間のギプス固定後にPTを開始した報告⁹⁾はあるが、CDKに対する保存的治療として外固定とPTを併用した報告は極めて少ない。今回、我々は外固定による保存的治療とともに生後0日からPT介入を行い早期に正常膝関節可動域の獲得を得られた両側CDKの1例を経験し、PT併用の有用性が示唆される稀少な症例と考えられるため報告する。

症例紹介

症例は、妊娠38週2日、緊急帝王切開にて出生した女児である。出生時身長51.0cm、体重2732g、Apgar score10点(5分値)であった。母は20代で妊娠27週時に右小脳出血を発症したが、手術およびリハビリテーションを行い日常生活動作は自立していた。在胎中のエコー等による明らかな異常の指摘はなかったが、出生時に両側下肢位位の異常を認め、即日整形外科に紹介となった。出生時、膝関節は60°/60°(右/左)の過伸展位で膝関節亜脱臼を認め、X線撮影にて両側CDKと診断され、両側ともにDrehmann分類2度であった(図1)。両側股関節や足関節に異常は指摘されず、他に明らかな全身性の基礎疾患は認めなかった。生後0日に整形外科医(以下、医師)により両側ともに徒手的に整復され両側膝関節屈曲30°にてシーネ固定、医師の指示にてPT開始となった。

治療

出生のおよそ4時間後、医師により膝関節亜脱臼に対して愛護的に徒手整復が行われた。その後、医師が両側足部から大腿近位1/3付近まで後方からシーネを当て弾性包帯を用いて両側膝関節屈曲30°での固定が開始された。シーネ固定は、医師によりあらかじめ膝関節屈曲90°を目標に数日間隔で角度を漸増させていくよう計画され、生後0-1日まで両側膝関節屈曲30°、2日から屈曲45°、4日から屈曲60°へと変更された。固定は、理学療法や清拭、沐浴以外の時間は常に行われ、児の下肢の運動等によりずれた際は、医師の許可の下、理学療法士や看護師が弾性包帯のまき直しを行い、1日を通して適切な固定となるよう対応した。生後9日からはシーネのずれを予防し膝関節伸展運動を制限するために医師により前方スプリント固定に変更され、両側膝関節屈曲90°固定の状態にて退院した。自宅退院後も、清拭など固定を外す必要がある時間以外は固定してもらうよう医師および理学療法士から両親に対して指導した。外来にて医師の判断により生後39日に前方スプリント固定が解除され、その後は装具なしで経過観察となった。

PTは、医師による徒手整復およびシーネ固定開始後に介入を開始した。PTは1日2単位、1日1回、週6日実施した。医師の許可の下、PTの際は可動域運動を行う側のみシーネ固定を外し、クベース内で一侧ずつ大腿四頭筋の持続伸張による

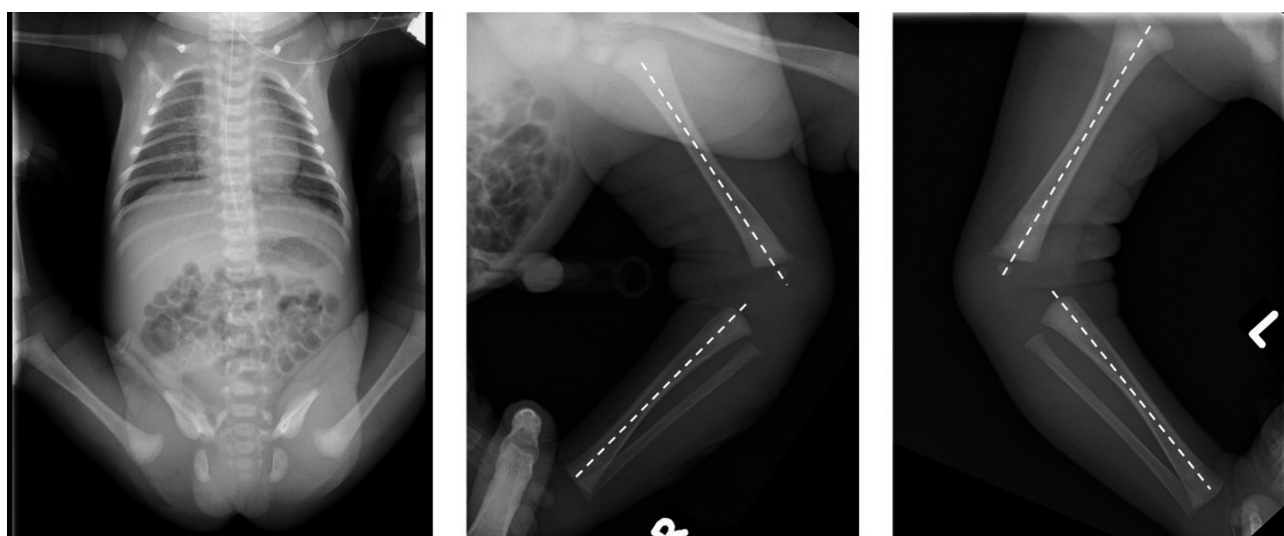


図1. 出生時の両側膝関節X線画像

徒手整復前の正面像(左側)、右膝関節(中央)、左膝関節(右側)のX線画像を示す。両側ともに膝関節前方亜脱臼と過伸展を認める。また、両側膝関節過伸展位において複数の前方皮膚溝が確認できる。

関節可動域運動を行った。関節可動域運動は、一側の患児の下肢に対して理学療法士の一侧の手で大腿中央部付近を、もう一方の手で下腿中央部付近を把持し他動的に膝関節を屈曲させ患児が啼泣することなく、その時点で可能な最大屈曲位にて筋性のエンドフィールを感じた角度で30秒を目安に持続伸張を施行した。持続伸張の際、膝関節を伸展するような抵抗を感じた際は苦痛とならないよう持続伸張を止めて抵抗がなくなることを確認しながら繰り返し持続伸張を行った。ただし、啼泣とともに膝関節が過伸展位とならないように注意し膝関節軽度屈曲位の状態で保持して抵抗が減弱するのを待った。左右それぞれの膝関節に対して同程度の持続伸張を行うよう配分し、1日あたり総持続伸張時間は15～20分程度となった。介入時間について、医師によるシーネ固定角度の変更が予定されている日は、シーネ変更前にPTを行い、ミルク摂取後は避けるように配慮した。理学療法士による膝関節可動域運動は生後9日まで継続し、同日、自宅退院となった。退院時に理学療法士から両親に対して、弾性包帯を用いたスプリント固定の方法、清拭や沐浴等の際にスプリント固定を外して良いことと、それ以外の時間はできる限り固定しておくこと、膝関節屈曲可動域運

動の方法と、少なくとも左右それぞれ3回/日は膝関節最大屈曲位での30秒程度の持続伸張を行うよう指導した。さらに、コンパートメント症候群等の予防のために、固定後、足趾の色調に変化がないか確認し、必要に応じて弾性包帯を巻き直すよう説明した。また、前方スプリント除去後に関しては、特別な指導は行っていない。

経過

理学療法士による評価は、入院中、PT介入時に目視による下肢自動運動の観察や他動的膝関節可動域を測定した。膝関節伸展角度については膝関節過伸展や亜脱臼予防のために測定頻度を減らして対応した。退院後は、医師の外来診察に合わせ、生後18、39、123日目に他動運動での両側膝関節可動域や膝関節運動時の疼痛の有無（膝関節可動域運動時の患児の反応）を評価した。また、生後8ヶ月、11ヶ月、1歳5ヶ月時に運動発達状況および他動的膝関節屈曲可動域、疼痛の有無を評価した。さらに、1歳6ヶ月時に膝関節の安定性を評価した。膝関節の不安定性は、外反または内反ストレステストで関節面が5mm以上開くか、後方引き出しテストまたはLachmanテストで5mm以上ずれることと定義した¹⁰⁾。

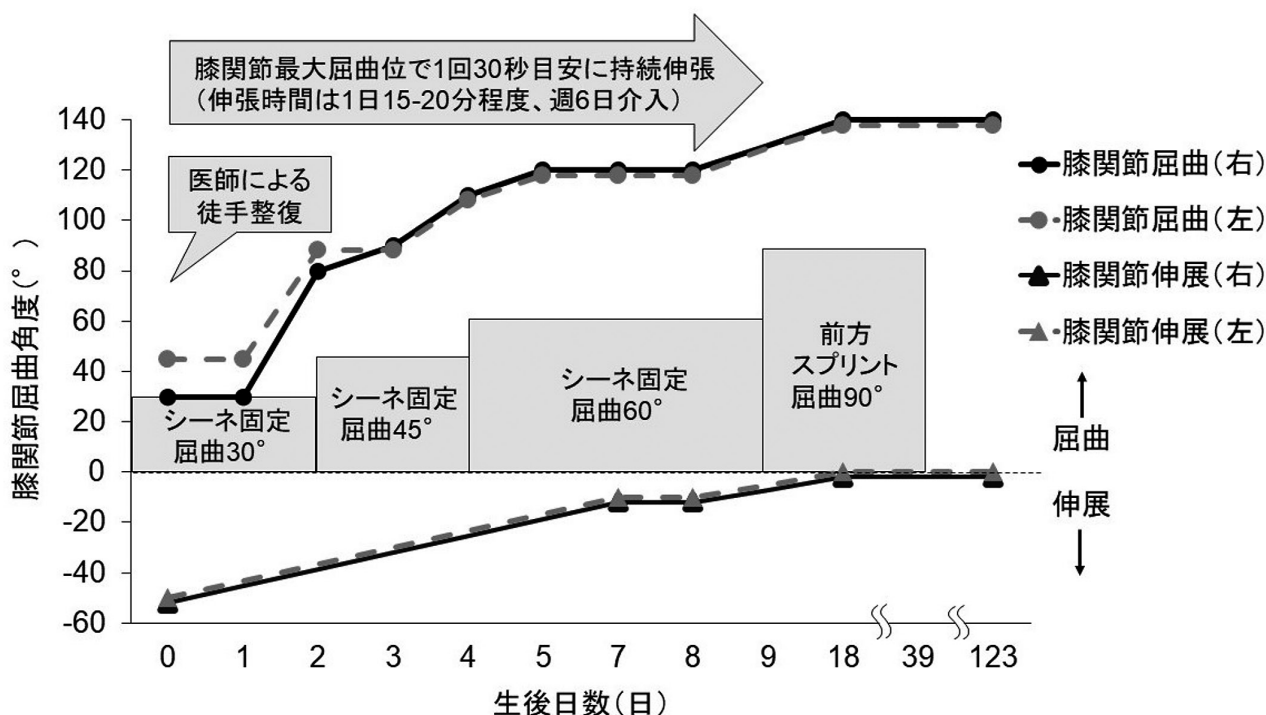


図2. 膝関節可動域および保存的治療の経過

保存的治療は整復後に外固定にて屈曲角度を漸増しながら連続的に実施した。理学療法では、生後0～9日まで膝関節屈曲可動域運動を行い、膝関節可動域は徐々に改善した。



図3. 生後10週時の両膝関節X線画像

両側とも明らかな異常は指摘されず、順調な発育がみられる。

図2に、生後0日から生後4ヶ月までの膝関節可動域および保存的治療の経過を示す。生後0日のPT開始時の膝関節屈曲可動域は $30^{\circ}/45^{\circ}$ と屈曲制限を認め、膝関節伸展可動域は $50^{\circ}/50^{\circ}$ であった。生後2日まではPT開始時にシーネを除去すると両膝関節ともに容易に過伸展位となったが、膝関節屈曲の持続伸張後は固定なしでも両側膝関節屈曲 20° 程度の肢位を保持できるようになり、左下肢のみ膝関節屈曲 50° 程度まで自動屈曲運動を認めた。また、介入前後で他動的膝関節屈曲時の抵抗感の軽減もみられた。生後3日からはPT開始時に固定を外しても膝関節過伸展位となることはなく、両膝関節の自動屈曲運動がみられるようになった。生後3日には、両側膝関節の他動的屈曲可動域が $90^{\circ}/90^{\circ}$ まで拡大し、生後7日には、膝関節可動域が屈曲 $120^{\circ}/120^{\circ}$ 、伸展 $10^{\circ}/10^{\circ}$ と改善を認めた。生後18日の膝関節可動域は屈曲 $140^{\circ}/140^{\circ}$ (full range)、伸展 $0^{\circ}/0^{\circ}$ となり、膝関節最大屈曲位としても啼泣や逃避的な行動はみられなかった。生後10週時点の膝関節X線撮影では明らかな異常は指摘されなかった(図3)。以降、生後4ヶ月時点まで両側膝関節は伸展 0° で過伸展することはなく、他動的膝関節屈曲の可動域制限は認めなかった。

生後8ヶ月から1歳5ヶ月にかけて膝関節可動域は屈曲 $140^{\circ}/140^{\circ}$ 、伸展 $0^{\circ}/0^{\circ}$ と正常可動域を維持できており、膝関節最大屈曲位でも逃避的行動はみられなかった。加えて、膝関節の安定性については、1歳6ヶ月時点で両側とも安定していた。

本症例の運動発達については、生後8ヶ月時点で座位保持やつかまり立ち、ずり這いが可能となっており、生後11ヶ月より数歩の独歩を開始した。1歳5ヶ月現在で歩行可能、片手を支持すると階段昇降も行うことができる。1歳5ヶ月までの経過で新版K式発達検査2020¹¹⁾の姿勢・運動領域の発達年齢は532日、発達指数は99となり、定型的な運動発達をしている。

考察

1. CDKの要因

本症例は、出生時に両側膝関節過伸展を認めたDrehmann分類2度のCDKである。

CDKは、弧発性に生じることあれば、發育性股関節形成不全などの筋骨格系の異常を伴うこと、先天性疾患に合併することもある¹⁾⁶⁾。本症例のように先天性疾患を認めない症例では、これまでに羊水過少症あるいは骨盤位による胎児の成型や前十字靱帯の異常、大腿四頭筋の線維化などの要因が推測されている⁶⁾。本症例は家族歴にCDKの発生はなく、保存的治療により早期に膝関節の生理的可動域を獲得できた経過も踏まえてCDKの原因は子宮内の異常肢位の関与が示唆された。本症例の場合、胎児中のエコーによる異常所見は指摘されなかったが、胎児期の超音波検査による子宮内での肢位異常からCDKが疑われた症例の報告もなされている¹²⁾。なお、本症例のCDK発生に出生前の母の脳出血の既往が関連したかは不明である。

2. CDKの予後

本症例は、保存的治療により生後18日には両側膝関節屈曲140°、伸展0°と生理的可動域を獲得し、その後、定型的発達を遂げていることから良好な経過を辿ったと考える。Abdelazizら⁶⁾は、CDKの治療に対する効果判定として、平均41ヶ月のフォローアップでの成績を膝関節屈曲可動域、膝関節伸展筋力、不安定性、疼痛の状態から4段階で評価している。本症例の場合、フォローアップ期間が短く、膝関節伸展筋力の測定は行っていないが、膝関節屈曲可動域、安定性は良好で、膝関節最大屈曲時に啼泣や逃避を認めなかったことから疼痛もないと考えられ、Abdelazizら⁶⁾の膝機能スコアリングシステムのうち最も成績の良いExcellentに該当すると思われる。なお、治療開始当初から本症例は予後良好となることが予想された。その理由として、CDKの治療成績を検討した報告では、Drehmann分類1-2度で先天性疾患がないことは、予後が良好となる可能性が高いとされる^{1) 8) 9) 12) 13)}。また、膝関節過伸展位における膝関節前方の皮膚溝の有無は重要な予後規定因子であり、前方皮膚溝の数が多いほど子宮内転位の期間が短いと考えられる¹⁾。本症例では、生後0日のX線画像上、両側ともに3-4本程度の前方皮膚溝を認めており、膝関節機能の予後が良好となることが予想された。他に、他動的膝関節屈曲可動域が治療方針の決定に有用であるとされる⁶⁾。治療開始時の膝関節屈曲可動域が90°より大きい場合は、全例が連続ギプス固定による保存的治療で予後良好となることが示されており、膝関節屈曲角度が30°-90°の場合は、最大4週間のギプス固定による治療を実施し、経過で膝関節屈曲角度が90°を超えた場合は、ギプス固定による治療を継続することで概ね良好な経過が得られたとされる⁶⁾。本症例は、治療開始時に他動的膝関節屈曲角度が30°/45°と屈曲制限を認めたが、生後4日には膝関節屈曲角度が両側ともに90°を超え、保存的治療が奏効することが期待された。治療初期の予想通り、両側とも膝関節機能は良好な経過が得られており、1歳5ヶ月現在の運動発達から健全に成長していると考えられる。

3. 早期に正常な膝関節可動域を獲得できた要因

今回、CDKに対する治療として生後0日から9日までシーネ固定と大腿四頭筋の持続伸張による保存的治療を実施した。その後も前方スプリント固定を継続し生後18日には両側膝関節屈曲140°、伸展0°と生理的可動域を獲得し、生後39日

で外固定が除去された。外固定の期間に関してRampalら⁸⁾は、徒手的に整復可能だが膝関節屈曲位で安定しない程度のCDKに対する治療として、屈曲角度を漸増させながら6-8週間の前方スプリント固定を行うことを推奨している。基礎疾患のないCDKに対して保存的治療が奏効した報告では、外固定を2-4ヶ月間行った結果、膝関節可動域の改善が得られたとされる^{14) 15)}。また、本症例と類似した症例報告としては、両側CDKに対して出生後からギプス固定を開始し3-4日毎に交換、生後21日には両膝関節の生理的可動域を獲得し外固定を除去できたことが示されている¹²⁾。以上より、本症例は生後18日で膝関節正常可動域を獲得できており外固定期間は39日間であったことから、諸家の報告と比較して早期に膝関節の正常可動域が獲得でき、短期間の外固定でも治療が奏効したと考えられる。

本症例が、早期に正常な膝関節可動域を獲得できた理由について、2つの要因が考えられる。一つは、生後0日から外固定による保存的治療を開始できたことである。Ferrisらによると、生後3ヶ月までに治療を開始すれば、保存的治療で良好な結果が得られたが、それ以降は手術が必要になる可能性が高いとされる¹⁶⁾。CDKに対する保存的治療の開始時期として、Rampalら⁸⁾は生後1ヶ月以内に、入江ら¹⁷⁾は生後0日-2ヶ月以内に保存的治療を開始しており、必ずしも全例が生後早期から治療が開始されるわけではない。一方で、Chengら¹⁸⁾は、生後24時間以内の早期にCDKを整復し保存的治療を開始することで、予後良好となることを示している。先行研究^{16) 18)}から保存的治療の早期開始の重要性が示唆され、本症例は生後24時間以内に治療を開始されたことが早期に良好な成績を得ることに繋がったと考えられる。もう一つの要因として、PTによる膝関節屈曲可動域運動を併用したことが挙げられる。治療方法については、整復可能なCDKの場合、保存的治療を推奨しており、特に大腿四頭筋のストレッチングを行う理学療法と前方フルレグスプリントの装着を勧めている^{8) 12)}。しかし、先行研究^{8) 12) 14-17)}ではいずれも保存的治療として徒手の整復後に外固定のみ行っており、早期からPTによる膝関節屈曲の可動域運動は行われていない。CDKに対して徒手整復及び外固定による保存的治療を行った報告は多いが、膝関節屈曲可動域運動などの理学療法を併用した報告は極めて少ない。先天性疾患のない左側CDKに対する保存的治療として外固定が断念された報告⁷⁾では、生後1日目のみPT

が行われ、膝関節過伸展および屈曲可動域制限が残存した症例が示されているが、PTはごく限られた介入に留まっている。本症例の場合、外固定に加えてPTとして膝関節屈曲運動による持続伸張を行い、大腿直筋などの膝関節伸筋群の筋緊張軽減を図れたことと、外固定を外した際に膝関節の自動屈曲運動が行われたことや膝関節屈筋群の活動性を高められたこと、退院後も両親の管理下でスプリント固定や関節可動域運動を継続したことで膝関節伸筋群の短縮が徐々に改善し、正常な膝関節可動域獲得に至ったと考えられる。実際に、PTでは外固定の設定角度よりも深い膝関節屈曲角度で大腿四頭筋の持続伸張を行うことができおり、日々の介入前後で他動的膝関節屈曲時の抵抗感の軽減を認めたことから、早期可動域改善に膝関節可動域運動が有用であったと考えられる。

以上より、CDKに対する保存的治療として外固定に加え早期から膝関節屈曲可動域運動を併用した介入は、早期の膝関節可動域改善に対して有用である可能性が示唆された。加えて、予後は治療開始初期より良好となることが予想されたが、早期に膝関節正常可動域を獲得できたことは、その後の定型的な運動発達の促進に寄与した可能性がある。

本症例は、CDKに対する保存的治療として、PT併用の有用性を示唆した稀少な報告であり、今後、CDKに対する保存的治療として外固定と関節可動域運動のPTを併用した場合の実践報告について、症例数を増やして有効性を検証していく必要がある。

結論

本症例は、先天性疾患の合併のないDrehmann分類2度の両側CDKで、生後0日から外固定およびPTとして膝関節屈曲可動域運動による保存的治療を受け、生後18日には両側膝関節の正常可動域を獲得し、1歳5ヶ月まで定型的に運動発達をしている。生後早期に正常な膝関節可動域を獲得できた要因として、生後直後より外固定による保存的治療が開始されたことと膝関節屈曲可動域運動を併用したことが有用であった可能性がある。したがって、CDKに対する保存的治療はシーネやスプリントを用いた外固定に加えて関節可動域運動（大腿四頭筋の持続伸張）を併用することで膝関節可動域の改善を促す可能性が示唆される。

倫理的配慮、説明と同意

本報告に際して、個人情報保護に配慮し、個人が特定されないよう留意するとともに、代諾者に口頭・書面にて十分な説明をし、書面にて同意を得た。

利益相反

開示すべき利益相反はない。

【文 献】

- 1) Mehrafshan M, Wicart P, et al.: Congenital dislocation of the knee at birth – Part I: Clinical signs and classification. *Orthop Traumatol Surg Res*. 2016 Sep; 102 (5) : 631–633.
- 2) Mottershead NJ, Patel UD, et al.: Congenital dislocation of the knee. *Arch Dis Child Fetal Neonatal Ed*. 2012 Sep; 97 (5) : F352.
- 3) 北城梓, 中村英智・他：先天性膝関節脱臼の治療経験. *整形外科と災害外科*. 2010; 59 (2) : 314–318.
- 4) 楊寛隆, 薄井知道・他：保存療法で改善した両側先天性膝関節脱臼の1例. *日本小児整形外科学会雑誌*. 2019; 28 (1) : 66–71.
- 5) Drehmann G: Die kongenitalen Luxationen des Kniegelenkes. *Z Orthop Chir*. 1900; 7: 459–521.
- 6) Abdelaziz TH, Samir S: Congenital dislocation of the knee: a protocol for management based on degree of knee flexion. *J Child Orthop*. 2011 Apr; 5 (2) : 143–149.
- 7) Kumar A, Arumugam M, et al.: Congenital Knee Dislocation at Birth – An Extraordinary Case of Spontaneous Reduction. *Rev Bras Ortop (Sao Paulo)*. 2020 Dec 22; 58 (1) : 164–167.
- 8) Rampal V, Mehrafshan M, et al.: Congenital dislocation of the knee at birth – Part 2: Impact of a new classification on treatment strategies, results and prognostic factors. *Orthop Traumatol Surg Res* 2016 Sep; 102 (5) : 635–638.
- 9) Shah NR, Limpaphayom N, et al.: A minimally invasive treatment protocol for the congenital dislocation of the knee. *J Pediatr Orthop*. 2009 Oct–Nov; 29 (7) : 720–725.
- 10) Oetgen ME, Walick KS, et al.: Functional results after surgical treatment for congenital knee dislocation. *J Pediatr Orthop*. 2010 Apr–May; 30 (3) : 216–223.
- 11) 郷間英世, 清水里美・他：新版K式発達検査 2020実施手引書(第5版). 新版K式発達検査

- 研究会(編), 社会福祉法人 京都国際社会福祉協議会, 2022.
- 12) Palco M, Rizzo P, et al.: Congenital and Bilateral Dislocation of the Knee: Case Report and Review of Literature. *Orthop Rev (Pavia)*. 2022 Apr 25; 14 (3) : 33926.
- 13) Haga N, Nakamura S, et al.: Congenital dislocation of the knee reduced spontaneously or with minimal treatment. *J Pediatr Orthop*. 1997 Jan-Feb; 17 (1) : 59-62.
- 14) Youssef AO: Limited open quadriceps release for treatment of congenital dislocation of the knee. *J Pediatr Orthop*. 2017 Apr/May; 37 (3) : 192-198.
- 15) 松田蓉子, 町田治郎・他: 当院における先天性膝関節脱臼の治療経験. *日本小児整形外科学会雑誌*. 2017; 26 (2) : 244-247.
- 16) Ferris B, Aichroth P: The treatment of congenital knee dislocation. A review of nineteen knees. *Clin Orthop Relat Res*. 1987 Mar; 216: 135-140.
- 17) 入江徹, 眞島任史・他: 先天性膝関節脱臼の治療経験. *日本小児整形外科学会雑誌*. 2013; 22 (1) : 94-99.
- 18) Cheng CC, Ko JY, et al.: Early reduction for congenital dislocation of the knee within twenty-four hours of birth. *Chang Gung Med J*. 2010 May-Jun; 33 (3) : 266-273.