

先天性垂直距骨に対する観血的治療の手術成績

北九州市立総合療育センター整形外科

松尾 篤・河野 洋一・松尾 圭介・佐伯 満

要旨 当院における先天性垂直距骨の手術成績を検討する目的で、1984～2006年までに観血的手術を行った4例8足(男性3例, 女性1例)の臨床成績を調査した。手術時平均年齢は18か月(12～30か月), 術後平均経過観察期間は101か月(36～246か月)である。2例4足は基礎疾患, 合併奇形を認めない特発性であり, 2例4足は先天性多発関節拘縮症の合併があった。全例に距舟・距骨下・距脛・踵立方関節解離(peritalar release), アキレス腱延長, 前脛骨筋・腓骨筋腱延長, 長母趾伸筋, 長趾伸筋腱延長を基本とした一期的距舟関節整復術を行った。最終経過観察時, Adelaar scoreによる臨床・単純X線評価では, good 5足, fair 2足, poor 1足であり, 車いすの使用が1例, 補装具なしでの独歩が3例であった。手術創の合併症, 足部の胼胝, 褥瘡, 疼痛, 距骨の無腐性壊死は認めなかった。先天性多発関節拘縮症に伴う4足中3足は術後の矯正位の獲得およびその保持が困難であったが, 特発性の症例の矯正位の獲得およびその保持は良好であった。平均8.5年の経過観察で臨床成績は比較的良好で, 術後合併症や足部の愁訴はなく経過している。

序文

先天性垂直距骨は, 舟状骨の背側脱臼を主病態とした距踵舟関節の異常であり, 後足部の外反, 尖足, 前足部の外転, 背屈変形を有する疾患である。これらの足部変形は徒手矯正, ギプス治療に抵抗性であり, ほぼ全例が手術療法へ移行する。手術療法では脱臼している関節を整復し, いかにかこの整復位を保持するか, 足部の不安定性や疼痛なく歩行できる足を維持するかが問題となる。今回当院において観血的治療を行った先天性垂直距骨の手術成績を検討したので報告する。

対象

1984～2006年の間に観血的治療を行った先天性垂直距骨患者4例8足を対象とした。男性3例6足, 女性1例2足, 手術時平均年齢は18か月

(12～30か月), 術後平均経過観察期間は101か月(36～246か月)である。罹患側は全例両側であり, Hamanishiらの分類¹⁾を用いた分類別では, 伸筋疾患のgroup 2が2例4足, 特発性のgroup 5が2例4足であった。Group 2の2例はともに先天性多発性関節拘縮症(arthrogryposis multiplex congenita; 以下, AMC)であった。明らかな家族歴を有するものはなかった。

方法

1)術後の足部の胼胝, 褥瘡, 疼痛の有無, 2)歩行能力, 3)Adelaar evaluation system⁶⁾に基づいた臨床成績(表1), 4)単純X線での術前後の距骨-第一中足骨基底角(talar axis-first metatarsal base angle; 以下, TAMBA), 踵骨-第一中足骨基底角(calcaneal axis-first metatarsal base angle; 以下, CAMBA)¹⁾, 5)矯正損失の有無, 6)再手術

Key words : congenital vertical talus(先天性垂直距骨), deformities in the foot(足部変形), surgical management(手術療法)

連絡先 : 〒802-0803 北九州市小倉南区春ヶ丘10-2 北九州市立総合療育センター整形外科 松尾 篤
電話(093)922-5596

受付日 : 平成20年1月21日

表 1. Adelaar scoring system for congenital vertical talus (10 points)

| |
|---|
| Clinical appearance |
| Poor cosmetic appearance |
| Ankle plus subtalar motion loss |
| Prominent talar head |
| Loss of medial longitudinal arch |
| Hindfoot valgus |
| Abnormal shoe wear |
| Radiographic appearance (weight-bearing) |
| Abnormal talonavicular angle |
| Hindfoot equinus |
| Talar-metatarsal axis |
| Talonavicular subluxation |

表 2. 一期的距舟関節視血整復術 (後内外側解離術)

| |
|--------------------|
| Peritalar release |
| 距舟・距骨下・距腿・踵立方関節解離 |
| Tendon lengthening |
| アキレス腱延長 |
| 前脛骨筋腱・腓骨筋腱延長 |
| 長母趾伸筋, 長趾伸筋腱延長 |

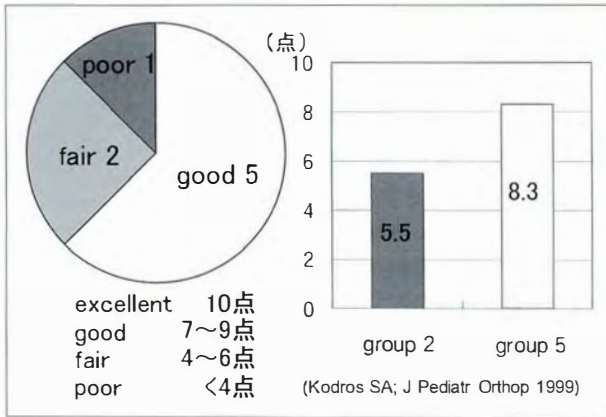


図 1. 臨床成績(Adelaar scoring system)

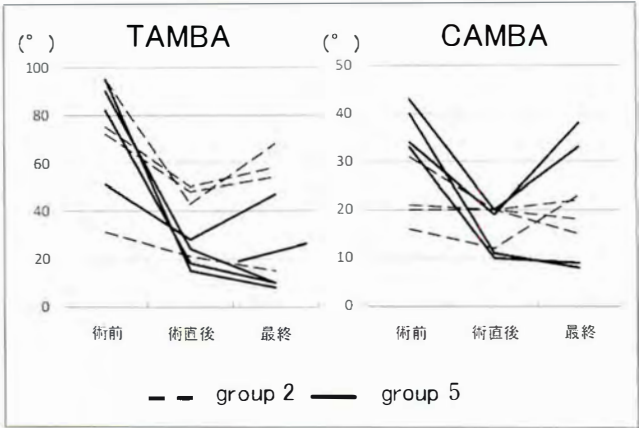


図 2. X線評価(TAMBA, CAMBA)

の有無, 7) 距骨の無腐性壊死の発生の頻度について検討を行った。

術式

距舟・距骨下・距腿・踵立方関節解離(peritalar release), アキレス腱延長, 前脛骨筋・腓骨筋腱延長, 長母趾伸筋, 長趾伸筋腱延長を基本とした一期的距舟関節整復術を行った。術後6週間のK-wire固定後, 夜間短下肢装具を用い矯正位の保持を行った(表2)。

結果

術後の足部腫脹, 褥瘡形成はなく, 歩行時の疼痛も認めなかった。最終調査時, 車いすの使用が1例, 補装具なしでの独歩が3例であった。臨床, 単純X線指標10項目を10点満点で表したAdelaar scoreでは, 7~9点のgoodが5足, 4~6点のfairが2足, 4点以下のpoorが1足であり, 分

類別では, 神経筋疾患のgroup2が平均5.5点, 特発性のgroup5が平均8.3点であった(図1)。単純X線において, 術前後のTAMBAは術前平均71°が術後31°に, CAMBAは術前平均30°が術後21°に改善していた。矯正損失はgroup2の4足中3足に, group5の4足中1足に認め, 初期矯正が不十分であったgroup2に多い傾向を認めた(図2)。距骨の無腐性壊死の発生は認めなかった。

症例提示

症例1: 4歳, 男児. Group 2(AMC)

生下時より両足部変形を指摘され, 近医にて垂直距骨の診断を受けた。ストレッチを中心とした保存的加療を行った後, 1歳時に当科紹介受診となった。家族歴に特記事項なし。1歳3か月時, 一期的距舟関節整復術を行った。術前X線を図3に示す。距舟・距骨下・距腿・踵立方関節解離(peritalar release), アキレス腱延長15mm, 前脛骨筋は切離し舟状骨背側へ後退, 長・短腓骨筋腱延長30mm, 後脛骨筋はZ切離後に再縫合した。K-wireにて6週間固定した後, 室内用靴型装具, 夜間短下肢装具を使用して矯正位の保持を行った。



図 3. 症例 1：術前 X 線. TAMBA Rt 72°, Lt 75°



図 4. 症例 1：術後 3 年 7 か月 X 線. 両側の矯正損失あり. TAMBA Rt 54°, Lt 58°



図 5. 症例 2：術前 X 線. TAMBA Rt 82°, Lt 90°



図 6. 症例 2：術後 6 年 10 か月 X 線. 矯正位の保持は良好. TAMBA Rt 10°, Lt 10°

術後 3 年 7 か月の最終経過観察時 Adelaar score は Rt 7 点 Lt 7 点であった。単純 X 線上両側ともに距骨の矯正損失を認めるが、外観はほぼ正常、疼痛は無く、日常生活動作には制限はない(図 4)。

症例 2：7 歳， 女児. Group 5(特発性)

生下時より両足変形を指摘され、近医にて垂直距骨の診断を受ける。17 生日に当院初診し、ギプスによる矯正を 4 か月間、装具での矯正位保持を行った。家族歴に特記事項なし。1 歳 6 か月時、一期的距舟関節整復術を行った。術前 X 線を図 5 に示す。距舟・距骨下・距腿・踵立方関節解離(peritalar release)、アキレス腱延長 12 mm、長短腓骨筋腱延長 12 mm、後脛骨筋は切離したのち舟状骨下面末梢部へ再縫合した。K-wire にて 6 週間固定した後、室内用靴型装具、夜間短下肢装具を使用して矯正位の保持を行った。

術後 6 年 10 か月の最終経過観察時 Adelaar score は Rt 9 点 Lt 8 点である。軽度の足関節底屈制限は認めるが、日常生活に支障はない。単純 X 線上両側ともに距骨の矯正位は良好に保持さ

れている(図 6)。

考 察

先天性垂直距骨に伴う足部変形に対して、一期的距舟関節整復術で変形矯正を行った 4 例 8 足を検討した。臨床成績は比較的良好であり、現在のところ足部の愁訴はなく経過している。AMC に伴う 4 足中 3 足は術後の矯正位の獲得およびその保持が困難であったが、特発性の症例の矯正位の獲得およびその保持は良好であった。

先天性垂直距骨に関連する過去の報告を見ると、1880 年の Kuster の報告に遡り、以降は congenital convex pes valgus, congenital vertical talus, teratologic dislocation of the talonavicular joint などと呼称されてきた。病態としては、生下時よりの距舟関節の脱臼、舟状骨が距骨の背側面と関節を形成、踵骨、距骨の尖足位、軟部組織の拘縮であり、舟底足変形を呈する稀な疾患である。AMC、脳性麻痺、二分脊椎、染色体異常、ミ

オパチーなどの神経・筋疾患に合併することが多く、約50%に何らかの合併症を有するといわれているが²⁾、その成因については明らかになっていない。

足部変形としては前足部外転、外反、後足部は尖足位をとり、外観上は特徴的な舟底足変形を呈している。本症は特有の変形、拘縮を呈しており、視診、触診にて診断は容易であり、もし疑わしければ底屈時側面単純X線で舟状骨が距骨の背側面に脱臼していることを確認できれば診断確定となる。また、よく類似した外反踵足との鑑別については、足部の拘縮の有無、底屈時側面単純X線で舟状骨が距骨の背側面に脱臼していないことなどより容易に鑑別可能である。

治療に関しては、個々の年齢、軟部組織の拘縮、骨変形などの程度が異なるため、症例ごとに詳細に検討されるべきである。治療の最終目標としては足部の変形矯正、支持性の獲得維持、疼痛の除去、再発の予防となる。まずはマニピュレーション、矯正ギプスなどを中心とした保存的治療が選択されるが、主に足部背側の皮膚を含めた軟部組織の拘縮の軽減、矯正を目的とする。文献的にはその限界はおおむね6か月とされているが、足部の矯正およびその保持は困難であり、観血的治療へ移行することがほとんどである。一方で、2006年にDobbs¹⁾らは特発性先天性垂直距骨に対して、clubfootに対するPonseti法理論を応用した矯正、ピンニング、アキレス腱延長を行い、短期ながら良好な成績を報告している。観血的治療については、距舟関節、踵立方関節の整復、底屈位にある距骨、踵骨の矯正とその保持を基本とするが、手術侵襲、合併症の発生の有無、手術時年齢、再発変形などによりさまざまな手術方法が報告されている^{3)5)8)~10)}。Herndonらは手術侵襲、距骨壊死の危険より前方解離、後方解離を二度の手術に分けた二期的矯正手術を報告⁵⁾、Ellis³⁾らは二期的矯正手術を追試するも27か月までに手術を行った16例中6例(38%)に無腐性壊死の発生を認めたと報告した。Ogata⁸⁾らはそれらの反省から後

内外側解離術を基本とした一期的矯正手術を報告し、57足中に無腐性壊死の発生なく、術後成績は良好であったと報告した。またZorer¹⁰⁾らも同様にCincinnati incisionを用いた一期的矯正手術を報告し、壊死、再発なく良好な成績を報告している。年長児、再発変形などに対しては二次的な骨変形に伴う矯正困難、およびその保持が困難となるため舟状骨摘出術、距骨摘出術、距骨下関節制動術、固定術、三関節固定術などの報告が散見される。現状では、よりよい矯正位の獲得ができ、無腐性壊死の発生率の低い、後内外側解離術の一期的矯正手術が主流であり、我々もこの方法を採用している。観血的治療の時期に関しては、この疾患が比較的早期に診断されるため、足底接地可能な足部を作るという観点からみると歩行開始以前のつかまり立ち前後の時期が適当と考える。長期成績の報告においては、1歳以前に一期的矯正手術を行った症例が成績良好であったとする報告もある。一方で無腐性壊死の発生率は手術時年齢が高いほど低いようであるが³⁾、手術成績は手術時年齢の増加とともに減少していくという報告もある。

治療方針をまとめると、診断後すぐにマニピュレーション、矯正ギプスを含めた早期の保存的治療を行い前足部の拘縮の軽減を行う。歩行が見込めるような時期に後内外側解離を基本とした一期的距舟関節整復術を考え、3歳前後までの症例に関しては軟骨の成長、距舟関節の適合性が改善する可能性があるために上記手術を選択する。高年齢の子供に対する再建術に関しては症例も少なく明らかでない。4~12歳頃の子供に関しては、後内外側解離を基本とした一期的距舟関節整復術、内外側columnの不均衡が生じ整復が困難なものに対しては必要に応じて舟状骨、距骨頸部の骨切り、距骨の整復後の不安定性が残存するものに対しては、距骨下関節制動術、固定術の併用も考慮に入れる。年長児で変形が固定化し、二次性骨変形が生じている症例(12歳頃~)は骨切り術、関節固定術(三関節固定術)に、軟部組織解離術などを

併用した手術を選択することとなる。しかしながら、これらの手術は最終的な salvage 手術であり、長期的には変形性足関節症を惹起する可能性が高くなるために、手術時期をなるべく遅らせる工夫、また生活様式などにも十分配慮して慎重に選択する必要がある。いずれにしても早期診断、早期治療によりこれらの手術を回避する必要がある。

今回我々は AMC を伴う症例の成績不良例を報告した。症例の数が限られているため難しいと思われるが、AMC、脳性麻痺、二分脊椎、染色体異常、ミオパシーなどの一症状としての足部変形といわゆる特発性といわれるもの間の治療難易度およびその予後についても今後十分な検討がなされるべきと思われる、今後の課題といえる。

矯正損失について篠原⁹⁾らは約半数に戻りを認めるとし、Kodros⁶⁾らは基礎疾患に神経学的異常を伴ったものに多いと報告している。またその対策としては内側距舟関節包、踵舟靭帯の縫縮、前脛骨筋の距骨下への移行⁷⁾、距骨下関節制動術、固定術などの報告も散見されるが、現在のところ決定的な解決策はないのが現状と思われる。我々は TAMBA-5° 程度を目標に内側距舟関節包、踵舟靭帯の縫縮、前脛骨筋の距骨頭への移行を併用して矯正を行い比較的満足できる結果を得ている。

治療の最終目標は、長期間にわたって疼痛なく、足底接地が可能な機能的な足にすることである。手術の時期に関しては診断時期、骨の二次変形の有無、その程度にもよるが、できるだけ変形が固定化しない早期に行い変形を矯正し、より侵襲性の高い再建術の時期を遅らせることが大切である。また皮膚の問題、足部の胼胝、褥瘡、疼痛の有無、ADL などを十分に評価して適応を考えなくてはならない。

結 語

- 1) 先天性垂直距骨に対して、一次的軟部組織解離を用い変形矯正を行った 4 例 8 足を検討した。
- 2) 2 例 4 足は基礎疾患、合併奇形を認めない

特発性であり、2 例 4 足は AMC に伴うものであった。

3) AMC に伴う 4 足中 3 足は術後の矯正位の獲得およびその保持が困難であったが、特発性の症例の矯正位の獲得およびその保持は良好であった。

4) 平均 8.5 年の経過観察で臨床成績は比較的良好で、足部の愁訴はなく経過している。

文 献

- 1) Dobbs MB, Purcell DB, Nunley R et al : Early results of a new method of treatment for idiopathic congenital vertical talus. *J Bone Joint Surg* **88-A** : 1192-2000, 2006.
- 2) Dodge LD, Ashley RK, Gilbert RJ : Treatment of the congenital vertical talus : a retrospective review of 36 feet with long-term follow-up. *Foot Ankle* **7** : 326-332, 1987.
- 3) Ellis JN, Scheer GE : Congenital convex pes valgus. *Clin Orthop Relat Res* **99** : 168-174, 1974.
- 4) Hamanishi C : Congenital vertical talus : classification with 69 cases and new measurement system. *J Pediatr Orthop* **4** : 318-326, 1984.
- 5) Herndon CH, Heyman CH : Problems in the recognition and treatment of congenital convex pes valgus. *J Bone Joint Surg* **45-A** : 413-429, 1963.
- 6) Kodros SA, Dias LS : Single-stage surgical correction of congenital vertical talus. *J Pediatr Orthop* **19** : 42-48, 1999.
- 7) Lloyd-Roberts GC, Spence AJ : Congenital vertical talus. *J Bone Joint Surg* **40-B** : 33-41, 1958.
- 8) Ogata K, Schoenecker PL, Sheridan J : Congenital vertical talus and its familial occurrence : an analysis of 36 patients. *Clin Orthop Relat Res* **139** : 128-132, 1979.
- 9) 篠原裕治 : 先天性垂直距骨に対する手術. *OS NOW* **26** : 128-133, 2005.
- 10) Zorer G, Bagatur AE, Dogan A : Single stage surgical correction of congenital vertical talus by complete subtalar release and peritalar reduction by using the Cincinnati incision. *J Pediatr Orthop* **11-B** : 60-67, 2002.

Abstract

Surgical Management for Foot Deformities in Congenital Vertical Talus

Atsushi Matsuo, M. D., et al.

Department of Orthopaedic Surgery, Kitakyushu Rehabilitation Center for Children with Disability

From 1984 to 2006, surgery was used to treat 8 deformities due to congenital vertical talus in the bilateral feet of four children, with an average age of 18 months (range from 12 to 30 months). The average duration of follow-up was 101 months (range from 36 to 246 months). Four feet were associated with neuromuscular disorder such as arthrogryposis, and the other four were idiopathic. All were treated with single-stage talo-navicular correction. The clinical results at the final follow-up were assessed using the Adelaar scoring system. Five feet were assessed as good, two as fair, and one as poor. There was no wound complication, no ulcer, no foot pain, and no avascular necrosis in the talus. The corrective position at the most recent follow-up showed the talus had radiologically deteriorated in three feet in the arthrogryposis group, and in one foot in the idiopathic group. There was a tendency for a deterioration in the corrective position radiologically in the idiopathic group to be lower than that in the arthrogryposis group. In treating congenital vertical talus, single-stage surgical correction can achieve good clinical and radiographic results with a low incidence of complications.