

片側例先天性肩甲骨高位症 (Sprengel 変形) に対する Woodward 手術の治療成績

神奈川県立こども医療センター整形外科

中村 直行・奥住 成晴・町田 治郎
宮川 祐介・大河内 誠・草山 善洋

要 旨 Sprengel 変形に伴う肩関節機能障害に対して保存治療は一般に無効であり、手術治療によって改善が期待できる場合が多い。当科では Sprengel 変形に対して Woodward 法を行っており、今回は片側例についての治療成績を報告する。対象は 1986~2004 年にかけて当科で手術を行った先天性肩甲骨高位症 14 例(男児 8 例, 女児 6 例), 手術時平均年齢は 4.9 歳(3.8~7.5 歳), 最終診察時平均年齢 9.8 歳(5.8~19.5 歳), 平均経過観察期間は 5.0 年(0.7~13.8 年)であった。Klippel-Feil 症候群の合併が 7 例に、肩甲骨椎骨は 7 例にみられた。手術は全例 Woodward 法 + 鎖骨粉碎骨切り術を施行した。術後は体幹固定 2 週後、三角巾固定 1 週、その後、肩関節可動域訓練に移行した。手術前後の肩関節屈曲・外転可動域はそれぞれ平均 $108^{\circ} \rightarrow 163^{\circ}$, $104^{\circ} \rightarrow 162^{\circ}$ と改善し、体軸に対する glenoid の平均開角は $-18.2^{\circ} \rightarrow 0.4^{\circ}$ に改善した。本手術は、適正な年齢に施行されれば Sprengel 変形に伴う肩甲骨高位と肩甲帯機能障害を良好に改善することができる。

はじめに

先天性肩甲骨高位症(Sprengel 変形)⁹⁾に伴う肩関節機能障害に対して保存治療は一般に無効であり、手術治療によって改善が期待できる場合が多い。当科では Sprengel 変形に対して Woodward 法¹¹⁾を行っており、今回は片側例に対する治療成績を検討したので報告する。

対象および方法

対象は 1986~2008 年にかけて当院で行われた 14 例, 男児 8 例, 女児 6 例である。手術時年齢は平均 4.9 歳(3.8~7.5 歳)(図 1), 最終診察時年齢平均 9.8 歳(5.8~19.5 歳), 経過観察期間は平均

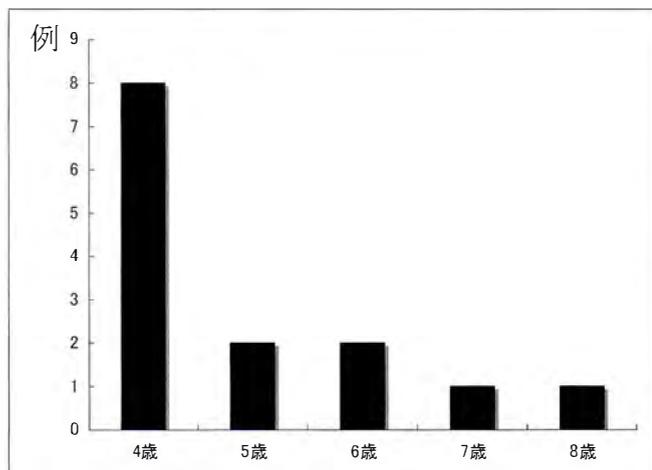


図 1. 手術時年齢
4 歳代が最も多かった。

Key words : clavicular morcellation procedure (鎖骨粉碎骨切り術), congenital high scapula (先天性肩甲骨高位症), glenoid inclination angle (glenoid 傾斜角), Sprengel's deformity (Sprengel 変形), Woodward procedure (Woodward 手術)

連絡先 : 〒 232-8555 神奈川県横浜市南区六ツ川 2-138-4 神奈川県立こども医療センター整形外科 中村直行
電話(045)711-2351

受付日 : 平成 21 年 2 月 14 日

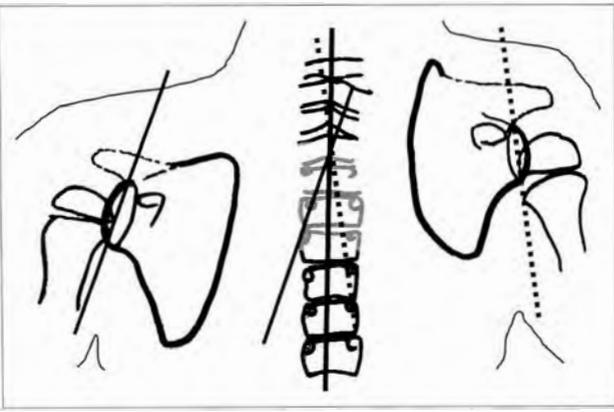


図 2. glenoid 傾斜角(glenoid inclination angle)
立位単純 X 線像から、体軸に対する glenoid 接線の傾斜角を外転(+), 内転(-)として計測した。

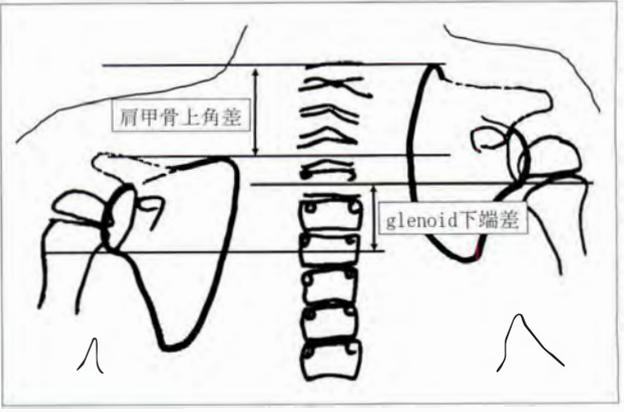


図 3. 肩甲骨引き下げ
肩甲骨の手術による引き下げを調べる際に肩甲骨上角の差と glenoid 下端の差を調査した。

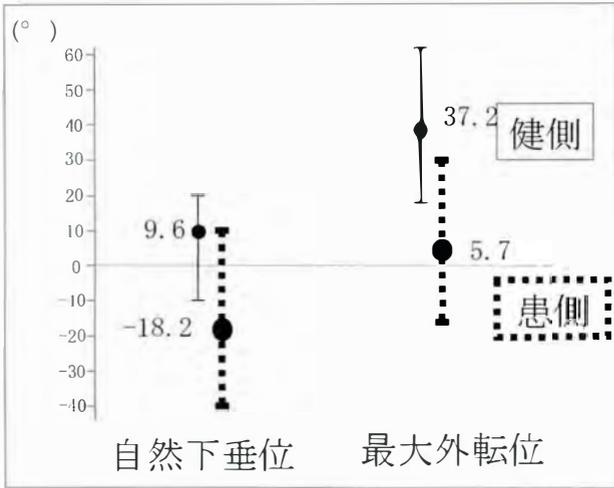


図 4. 術前 glenoid 外転角
患側の肩甲骨は内転位に変位しており、動きも悪い。

5.0 年(0.7~13.8 年)であった。合併奇形として Klippel-Feil 変形 7 例、側弯 6 例、二分脊椎 1 例、肋骨癒合 1 例、副耳 1 例、口唇裂 1 例、片腎 1 例、膀胱外反 1 例を認めた(重複あり)。

手術法は全例 Woodward 法¹¹⁾を行った。Woodward 法は僧帽筋の付着部を意識した C4 から T9 の正中縦切開を用いる。内側は僧帽筋、菱形筋群、頭側は肩甲拳筋、肩甲脊椎骨等を切離後、肩甲骨を引き下げ、その位置で僧帽筋・菱形筋群を棘突起部の筋膜・靭帯に密に再縫合する。なお、当科では、肩甲骨および鎖骨の引き下げによる腕神経叢麻痺を予防するため、先行して仰臥位で全例鎖骨粉碎骨切り⁸⁾を併用している。

後療法は術後 2 週間体幹固定とした後、三角巾

固定とし、術後 4 週から可動域訓練を行った。

調査項目：立位正面単純 X 線像から計測した肩甲骨の形態(肩甲骨長軸長比, scapular index : 長軸に対する短軸の 100 分率)、体軸に対する glenoid 接線の外転角(図 2)⁶⁾を計測した。また、肩甲骨上角の高位の健側との差、glenoid 下端の高位の健側との差(図 3)⁶⁾を計測し、また、肩関節屈曲・外転可動域を術前と最終調査時で比較した。

結果

手術時間は平均 199 分(127~270 分)、術中出血は平均 74 g(14~172 g)で輸血を要した例はなかった。また、腕神経叢麻痺等の合併症はなかった。

肩甲骨長軸長の健側に対する患側比は平均 91.1(±10.0)と健側に比べ小さかった。また scapular index は患側 77.2(63~90)、健側 64.7(58~71)と有意差をもって患側の値が大きくなり、患側の肩甲骨は長軸(縦)が短いことがわかった(p=0.0018)。

術前の glenoid 外転角を、上肢自然下垂位置と最大外転位置で、健側と患側を比較した(図 4)。健側の上肢自然下垂位置での glenoid 外転角は平均 +9.6°(-11~+23°)であり、上肢最大外転位では平均 +37.2°(+14~+67°)であった。一方で患側の上肢自然下垂位置での glenoid 外転角は平均 -18.2°(-41~+11°)であり、上肢最大外転位では平均 +5.7°(-19~+32°)であった。上肢下垂位、

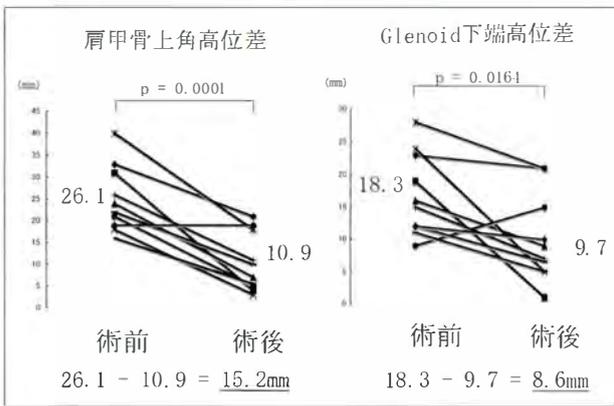


図 5. 肩甲骨 健患側高位差
Glenoid 下端の方が引き下げ距離が短い。

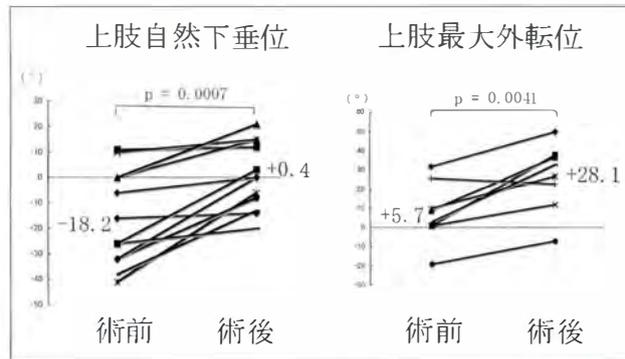


図 6. 患側 glenoid 外転角
手術前後で、上肢自然下垂位、最大外転位ともに有意差をもって改善した。

外転位とも、健側に比べ患側は内転傾向が強く、かつ動きも悪いことがわかった。

手術による肩甲骨の引き下げを調べるため、肩甲骨上角の高位差と glenoid 下端の高位差を調査した(図 3)。肩甲骨上角高位差は、術前平均 26.1 mm (16~40 mm) から平均 10.9 mm (3~21 mm) となった(p=0.0001)。Glenoid 下端高位差は平均 18.3 mm (9~28 mm) から平均 9.7 mm (1~21 mm) となった(p=0.0164)(図 5)。術前と術後と比較するとその高位の差は縮まり、有意に引き下げが得られているが、glenoid 下端の方が引き下げ距離が短く、肩甲骨は外転しながら引き下げられている。また、経過観察中、術後数年を経た肩甲骨高位再上昇を 1 例に認めた。

患側の glenoid 外転角を手術前後で調べると、上肢自然下垂位、最大外転位ともに有意差をもって改善していた(図 6)。

結果的に肩関節の可動域も屈曲・外転とも手術前後で有意差をもって改善しており(図 7)、その改善率も諸家の報告と同等であった。

考 察

今回の報告は、以前の当科の報告⁶⁾に症例を追加したうえで片側例について再調査したものである。手術年齢も 4 歳代が多く、その良好な結果からも、この年代での Woodward 法¹¹⁾は成績が安定しているといえよう。

当科は肩甲骨引き下げに伴う鎖骨下の合併症を回避するため低年齢であっても全例鎖骨粉砕骨切

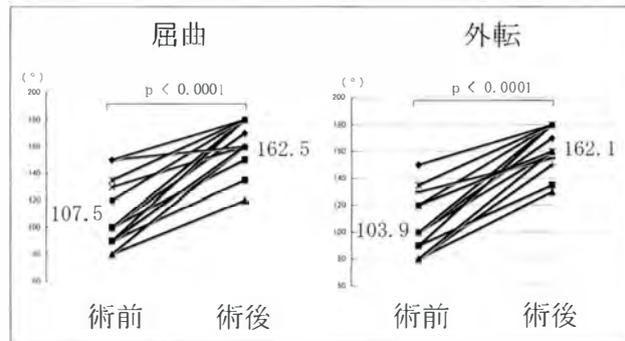


図 7. 肩関節可動域
手術前後で有意差をもって改善している。

り術⁸⁾を併用しており、若干侵襲は大きくなるが、輸血を考慮した例はない。また、現在まで腕神経叢麻痺も経験した例はなく、Woodward 法と鎖骨粉砕骨切り術の併用法は、他術式と比べても同等の治療成績^{1)~5)7)10)11)}を得られる上に、最も安全に行える治療法と我々は考えている。Wilkinson 法¹⁰⁾と比較すると、僧帽筋は近位付着部より切離され尾側へ移行されるので、術後僧帽筋のリリースの改善がよい。もともと患側の肩甲骨周囲筋の萎縮が見られる例が多く、特に菱形筋群の再建困難は、術後の wing scapula 現象の原因となることや肩甲骨の内転、内方回旋も障害となることが危惧される。しかし、実際、当科の術後に問題となるような wing scapula を経験した例はなく、また、肩甲骨の内転、内方回旋に関しては、もともと筋の萎縮があるため、他術式であっても著明に改善できるとは思い難い。本症の治療の主たる目的は、肩関節外転可動域の改善、頸部から肩へ

のシルエットの改善であり、それらを同等に改善できるのであれば、安全に行える手技が望ましいと我々は考えている。

今回結果には示さなかったが、術後上肢の肩関節外転可動域が 150° 未満であった成績不良例を、それ以外の良好例と比較してみたところ、手術時平均年齢は大きく差はなかったが、術前の肩関節外転可動域が不良であった。また、術後は肩甲骨の引き下げに比べglenoidの外転不良例が多かった。つまり、引き下げただけでは十分ではなく、外転を伴う肩甲骨の引き下げでないと、上肢の有効な肩関節外転を得られない可能性がある。また、可動域不良例にはKlippel-Feil変形を全例に認め、同変形を予後不良因子とする報告²⁾を裏付けるものであった。

まとめ

1) 先天性肩甲骨高位症(Sprengel変形)に対してWoodward手術兼鎖骨粉碎骨切り術を行った14例14肩を調査した。

2) 患側肩甲骨の平均引き下げは15.2mmであった。

3) 上肢外転時の肩甲骨の傾斜角は術前 5.7° から 28.1° に改善し、肩関節外転角度も 103.9° から 162.1° に改善した。

4) 本手術はSprengel変形に伴う肩関節機能障害を良好に改善することができる。

文献

1) Carson WG, Lovell WW, Whitesides TE et al :

Congenital elevation of scapula. J Bone Joint Surg **63-A** : 1199-1207. 1981.

- 2) 藤井敏男 : Sprengel変形の診断と治療. 日小整会誌 **14** : 213-219, 2005.
- 3) Green WT : The surgical correction of congenital elevation of scapula (Sprengel's deformity). Proceeding of the American Orthopaedic Association. J Bone Joint Surg **39-A** : 1439. 1957.
- 4) Grogan DP, Stanley EA, Bobechko WP : The congenital undescended scapula. J Bone Joint Surg **65-B** : 598-605. 1983.
- 5) 加藤光康, 北小路隆彦, 鬼頭浩史ほか : Woodward変法による肩甲骨高位症の治療成績. 日小整会誌 **12** : 42-46, 2003.
- 6) 中村直行, 奥住成晴, 町田治郎ほか : 先天性肩甲骨高位症(Sprengel変形)に対するWoodward手術の治療成績. 日小整会誌 **17** : 136-140, 2008.
- 7) 野口康男, 藤井敏男, 松元信輔ほか : Sprengel変形の治療. 臨整外 **19** : 1227-1236, 1984.
- 8) Robinson RA, Braun RM, Mack P et al : The surgical importance of the clavicular component of Sprengel's deformity. J Bone Joint Surg **49-A** : 1481. 1967.
- 9) Sprengel : Die angeborene Verschiebung des Schulterblattes nach oben. Arch Klin Chir **42** : 545-549. 1891.
- 10) Wilkinson JA, Campbell D : Scapula osteotomy for sprengel's shoulder. J Bone Joint Surg **62-B** : 486-490. 1980.
- 11) Woodward JW : Congenital elevation of the scapula. Correction by release and transplantation of muscle origins. J Bone Joint Surg **63-A** : 219-228. 1961.

Abstract

Unilateral Congenital High Scapula ‘Sprengel’s Deformity’ Treated with the Woodward Procedure

Naoyuki Nakamura, M. D., et al.

Department of Orthopaedic Surgery, Kanagawa Children’s Medical Center

Conservative treatment is not effective for shoulder dysfunction with Sprengel’s deformity. Here we report a review of 14 cases (involving 8 boys and 6 girls) with congenital elevation in the unilateral scapula treated with the Woodward procedure, between 1986 and 2004. The mean age at operation was 4 years 10 months, and the mean follow-up duration was 5 years. In each case, we performed pre-treatment clavicular morcellation osteotomy. Klippel-Feil Syndrome was present in 7 cases, and omovertebral bone was present in 7 cases. Postoperatively, we performed soma fixation for two weeks, followed by triangular bandage dipping for one week, and then started shoulder range of motion exercises. The mean flexion angle of the shoulder was improved from 108 degrees to 163 degrees, and the mean abduction angle was improved from 104 degrees to 162 degrees. The glenoid inclination angle in the ipsilateral side with respect to the anteroposterior axis, in the drop arm position, was improved from -18.2 degrees to 0.4 degrees. When treated sufficiently early, high scapula with Sprengel’s deformity and scapular dysfunction can be improved.