

屈指症における近位指節間関節周囲形態変化の定量的評価

国立成育医療研究センター整形外科

谷 潤 綾 乃・関 敦 仁・中 村 千恵子
福 岡 昌 利・日下部 浩・高 山 真一郎

要 旨 屈指症は近位指節間関節の屈曲拘縮を呈する先天異常である。今回我々は近位指節間関節周囲の変形を定量的に評価した。【対象・方法】屈指症 21 例の罹患指 31 関節、非罹患指 18 関節を対象とした。単純 X 線側面像で①基節骨骨頭扁平率：骨頭に類似する楕円の横径に対する縦径の比率、②基節骨頸部くびれ率：骨幹部背側の延長線から骨頭前縁への距離に対する、最もくびれている点への距離の比率、③中節骨近位骨端核前方拡大率：骨端核前後径の後 1/4 での縦径に対する前 1/4 での縦径の比率、の 3 つの評価項目を定義し、コントロール群との比較、年齢や屈曲拘縮角度との相関について検討した。【結果】いずれの評価項目とも 2 群間で有意差を認めた。年齢、屈曲拘縮角度との相関は見られなかった。【考察】屈指症では基節骨骨頭扁平化、頸部くびれ、中節骨近位骨端核形態異常が生じており、これらを定量的に評価することができた。

はじめに

屈指症は近位指節間(以下、PIP)関節の屈曲拘縮を呈する先天異常である。日本手外科学会先天異常委員会による Modified IFSSH classification では、II：分化異常、D：拘縮・変形、1：軟部組織、e：屈指症として分類されている。小指、環指、中指、示指の順に多く、女児より男児で多いとされる。単純 X 線像で骨形態変化が見られる(図 1)という報告は散見され、実際の診療中にもそのような印象を受けるが¹⁾³⁾⁶⁾⁸⁾、その変形を詳細に評価した報告はない。これらの変化が重症度や治療成績と関連するのかわかぬ、涉猟しえた限りこれまでに検討はなされていないようである。今回我々は屈指症における PIP 関節周囲の変形を定量的に評価したので報告する。

対象・方法

当院で 2003 年から 2011 年までに屈指症と診断され、治療前に単純 X 線写真側面像を撮影していた 21 例(男児 15 例、女児 6 例)を対象とした。評価時年齢は平均 4 歳 0 か月(1 歳 0 か月～13 歳 11 か月)であった。罹患関節は 31 関節(中指 14、環指 7、小指 10)であり、これを罹患群とした。このうち両側罹患例は 5 人 12 例(両中指 2 人、両小指 2 人、両小指+左中環指 1 人)、多数罹患例は 4 人 10 例(中環指 4 人、先に示した両小指合併例を含む)であった。罹患関節の屈曲拘縮角度は平均 74°(20°～115°)であった。片側罹患例での健側 18 関節(中指 8、環指 6、小指 4)をコントロール群とした。合併症としては Russel silver 症候群、Turner 症候群、精神発達遅滞、Sprengele 変形、先天性握り母指などの合併が見られた。

Key words : camptodactyly(屈指症), contracture(拘縮), radiographic assessment(画像評価)
連絡先 : 〒 157-8535 東京都世田谷区大蔵 2-10-1 国立成育医療研究センター整形外科 谷潤綾乃
電話(03)3416-0181

受付日 : 平成 24 年 2 月 2 日

a|b



図 1. 屈指症罹患指(a), 非罹患指(b)の単純 X 線写真側面像
 屈指症罹患指では基節骨骨頭の扁平化, 頸部のくびれ, 中節骨骨端核前方の拡大がみられる。

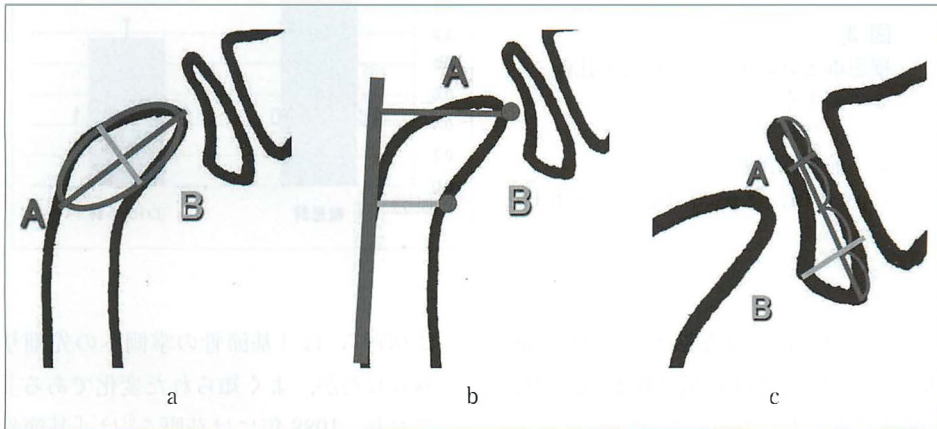


図 2. 単純 X 線写真側面像での評価項目

- a : 基節骨骨頭扁平率(扁平率) = B/A (A : 基節骨骨頭にあてはめた楕円の横径, B : 同楕円の縦径)
- b : 基節骨頸部くびれ率(くびれ率) = B/A (A : 基節骨骨幹部背側の延長線から骨頭前縁までの距離, B : 同じく頸部の最もくびれている点への距離)
- c : 中節骨近位骨端核前方拡大率(前方拡大率) = B/A (A : 骨端核後 1/4 での縦径, B : 同じく前 1/4 での縦径)

単純 X 線写真側面像における評価項目として以下の 3 項目を定義した。① 基節骨骨頭扁平率(以下, 扁平率) : 基節骨骨頭に類似する楕円を描き, その横径に対する縦径の比率(図 2-a)。② 基節骨頸部くびれ率(以下, くびれ率) : 基節骨骨幹部背側の延長線から骨頭前縁までの距離に対する, 最もくびれている点への距離の比率(図 2-b)。③ 中節骨近位骨端核前方拡大率(骨端核が出現している症例のみ, 以下, 前方拡大率) : 骨端核前後径の後 1/4 での縦径に対する前 1/4 での縦径の比率(図 2-c)。各評価項目について罹患群とコントロール群との比較を行った。

また, 年齢, 屈曲拘縮角度との相関についての検討は, 罹患群を 4 歳未満群($n=19$)と 4 歳以上群($n=12$), 屈曲拘縮角度 75° 未満群($n=15$)と 75° 以上群($n=16$)に分け, 各評価項目について比較した。

結果

各評価項目の測定値, 2 群間の比較を示す(図 3)。扁平率は罹患群 0.65 ± 0.10 , コントロール群 0.84 ± 0.10 であり, 罹患群で有意に低値であった($p < 0.001$)。くびれ率は罹患群 0.71 ± 0.07 , コントロール群 0.75 ± 0.06 であり, 罹患群で有意に

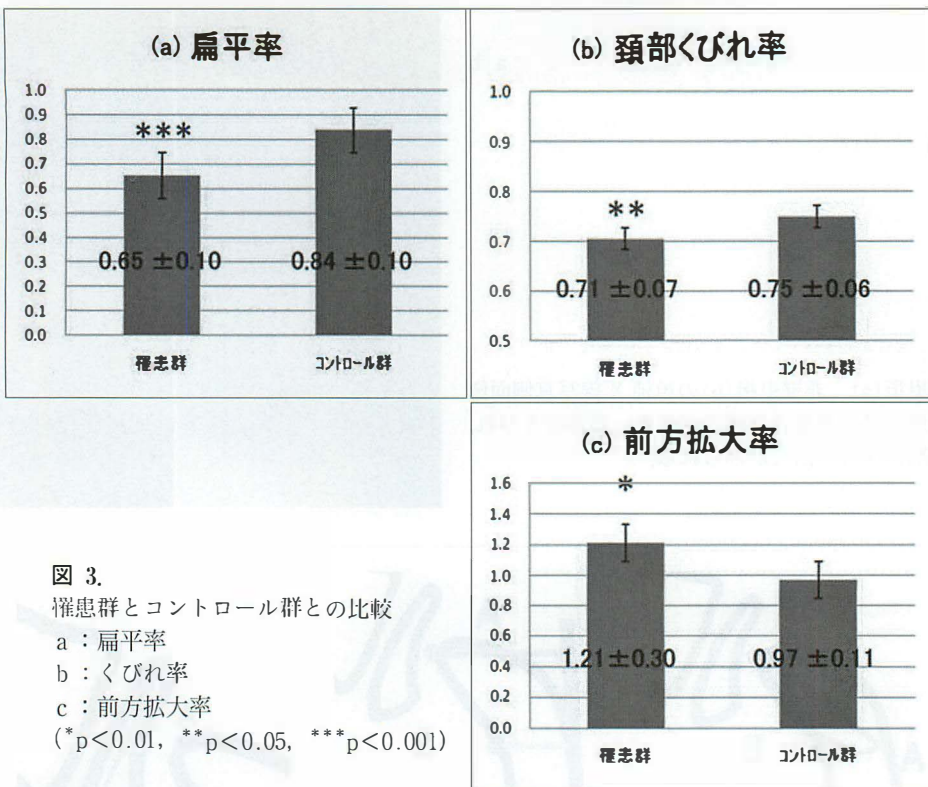


図 3.
 罹患群とコントロール群との比較
 a: 扁平率
 b: くびれ率
 c: 前方拡大率
 (* $p < 0.01$, ** $p < 0.05$, *** $p < 0.001$)

低値であった ($p < 0.05$). 前方拡大率は罹患群 1.21 ± 0.30 , コントロール群 0.97 ± 0.11 であり, 罹患群で有意に高値であった ($p < 0.01$).

また, 4歳未満群と4歳以上群とを比較した結果, 扁平率では4歳未満群 0.66 ± 0.09 , 4歳以上群 0.64 ± 0.13 で, 有意差を認めなかった. くびれ率は4歳未満群 0.69 ± 0.06 , 4歳以上群 0.72 ± 0.07 であり, やはり有意差を認めなかった. 前方拡大率も4歳未満群 1.10 ± 0.24 , 4歳以上群 1.31 ± 0.32 であり, 有意差を認めなかった(図4).

屈曲拘縮角度 75° 未満群と 75° 以上群との比較では, 扁平率は 75° 未満群 0.64 ± 0.11 , 75° 以上群 0.66 ± 0.10 であり, 有意差を認めなかった. くびれ率は 75° 未満群 0.72 ± 0.06 , 75° 以上群 0.69 ± 0.07 で, やはり有意差を認めなかった. 前方拡大率についても 75° 未満群 1.17 ± 0.33 , 75° 以上群 1.27 ± 0.26 であり有意差は認めなかった(図4).

考 察

これまで屈指症について数多くの報告が発表されているが, その中で骨形態の変化について言及しているものはごく一部に限られている. 1986年

に初野ら³⁾は「基節骨の掌側への先細りが全例にみられたが, よく知られた変化である」と報告しており, 1988年には荻野ら⁶⁾は「基節骨の頭部が掌側に先細り頸部で掌側に屈曲する変形を認めた」と述べている. 2006年にはFoucherら¹⁾が「画像的な変化として基節骨頭の平坦化, 中節骨近位端の肥厚が出現する」と報告している. しかし, いずれも変形についての詳細な評価は行っていない.

そこで, 我々はこれらの変形を定量的に評価する方法を考案した. 1種類のパラメーターだけで変形を定量化することは難しく, また簡便で再現性の高い測定方法を検討した結果, 基節骨骨頭扁平率, 基節骨頸部くびれ率, 中節骨近位骨端核前方拡大率という3種類のパラメーターを定義した. 今回の測定では, いずれのパラメーターとも屈指症罹患関節と非罹患関節の間に有意差を認めた. この評価方法で屈指症における骨形態の変化を定量的に評価できると考えた.

さらに, 片側罹患例において各々の症例内で同指の健側, 患側の値を比較すると, 全症例とも扁平率, くびれ率は患側で低値, 前方拡大率は患側

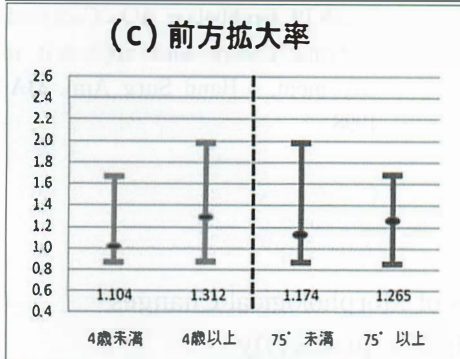
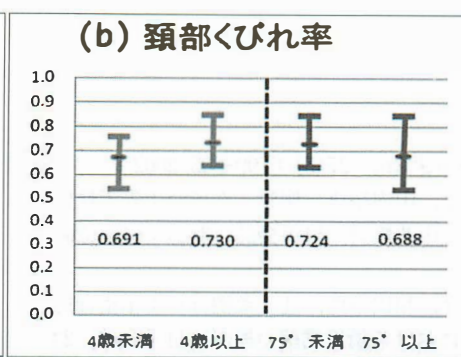
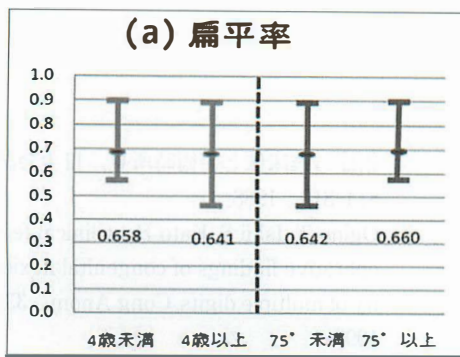


図 4. 年齢、屈曲拘縮角度と骨形態変化の相関
 4歳未満(n=19) vs 4歳以上(n=12), 75°未満(n=15) vs 75°以上(n=16)での比較
 a: 扁平率
 b: くびれ率
 c: 前方拡大率
 いずれも有意差を認めない。

で高値、あるいはほぼ同等の値となった。逆に患側で基節骨頭や頸部が増大している症例、あるいは中節骨骨端核前方が健側よりも縮小している症例は認めなかった。つまり、すべての罹患関節で少なくとも一つ以上のパラメーターが変動していた。過去の報告では、62.5%⁶⁾あるいは29%¹⁾に骨形態変化を認めたという記述がみられるが、どのように変形の有無を評価したかは述べられていない。今回の方法は、わずかな変形を定量的に捉えることができ、屈指症におけるPIP関節の骨関節評価に有用と考えられた。

また、基節骨頭部の変形を認めた例では、PIP関節拘縮の程度が強い傾向がみられたという報告もあったが⁶⁾、今回の検討では、各評価項目と屈曲拘縮角度との間に相関は見られなかった。

このような単純X線像での骨形態変化は、屈曲拘縮が持続するために生じた二次的な変化であると考えられる⁸⁾。それぞれのパラメーターに変化が生じるメカニズムは明らかでないが、以下のように考察した。骨頭の扁平化については、過去の報告ではcentral slipによる圧迫が原因であると考察されている⁸⁾が、骨頭背側が中節骨からの軸圧を受けないために骨化が遅延している可能性が示唆される。頸部のくびれは、掌側板など軟部

組織の持続的な圧迫の影響が考えられる。また、中節骨骨端核は、基節骨骨頭からの軸圧を受けない前方が拡大すると推測した。

また、今回の検討では年齢の異なる2群間で変形程度に有意差を認めず、罹病期間による差は明らかでなかった。骨形態変化は生下時からの屈曲拘縮による二次的な変化と推測するが、形態変化は罹病期間と並行して進行するのではなく、ある程度の年齢以降ではその進行は緩徐になると考えた。

二次的な変化としてこのような変形が生じるならば、治療による屈曲拘縮改善後に骨関節の形態改善も得られる可能性があり、今後はこれらの変形と重症度や治療効果・予後との関連性について、検討を加えたい。

文 献

- 1) Foucher G, Lorea P, Khouri RK et al: Camptodactyly as a spectrum of congenital deficiencies: A treatment algorithm based on clinical examination. *Plast Reconstr Surg* 117 (6): 1897-1905, 2006.
- 2) Ghidella SD, Segalman KA, Murphey MS: Long-term results of surgical management of proximal interphalangeal joint contracture. *J*

Hand Surg Am 27(5) : 799-805, 2002.

- 3) 初野英之, 山内裕雄, 柳原 泰ほか: 先天性屈指症の臨床的検討. 日手会誌 3(2) : 616-620, 1986.
- 4) 射場浩介, 和田卓郎, 辻 英樹ほか: 単指罹患屈指症における術後成績の検討. 日手会誌 23(6) : 732-735, 2006.
- 5) 児島忠雄, 増沢源造, 平川正彦ほか: 小指を含まない屈指症について. 日手会誌 3(2) : 612-615, 1986.
- 6) 荻野利彦, 三浪明男, 佐久間 隆ほか: 小指屈指症の臨床像と手術時所見. 日手会誌 5(4) : 814-819, 1988.
- 7) Ogino T, Ishii S, Kato H : Clinical features and operative findings of congenital flexion deformity of multiple digits. Cong Anom 33 : 389-397, 1993.
- 8) Smith PJ, Grobbelaar AO : Camptodactyly : A unifying theory and approach to surgical treatment. J Hand Surg Am 23A-1 : 14-19, 1998.

Abstract

The Quantitative Evaluations of Morphological Changes around PIP Joints in Camptodactyly

Ayano Tanibuchi, M. D., et al.

Department of Orthopaedic Surgery, National Center for Children Health and Development

Camptodactyly is congenital flexion contracture of proximal interphalangeal (PIP) joint. Some reports described radiological changes of proximal phalanx head, but there was no quantitative evaluation. The purpose of this study is to assess the quantitative changes around PIP joints in camptodactyly.

31 joints of the affected group and 18 joints of the control group were examined. We defined three parameters as flattening rate of head of proximal phalanx, neck-constriction rate and epiphysis-hypertrophic rate. All parameters showed significant differences between the two groups. In the affected group, these parameters didn't correlate with age nor degree of flexion contracture.

In camptodactyly, flattening of the head, neck constriction of proximal phalanges and hypertrophy of epiphysis in middle phalangeal are observed. The morphological changes of PIP joints can be evaluated quantitatively using these parameters.