

## Delta tibia の 2 例

木村 篤 史<sup>1)</sup>・関 敦 仁<sup>2)</sup>・江口 佳 孝<sup>2)</sup>  
内川 伸 一<sup>2)</sup>・鳥居 暁 子<sup>2)</sup>・小野 敦 子<sup>2)</sup>  
櫻井 沙 織<sup>2)</sup>・高山 真一郎<sup>2)</sup>・宮 寄 治<sup>3)</sup>

1) 北里大学北里研究所病院 整形外科

2) 国立成育医療研究センター病院 整形外科

3) 国立成育医療研究センター病院 放射線科

**要 旨** Delta tibia は、先天性下腿偽関節症と、特徴的な経過や画像所見から早期に鑑別することが重要である。当院で経験した delta tibia の 2 例を報告する。【症例 1】出生時より左下腿に彎曲が認められた。特記すべき既往はなく、経過観察のみで 8 歳までに前方凸の彎曲は改善したが、外側凸彎曲および脚長差が遺残したため手術治療を検討中である。【症例 2】生下時から左下腿の彎曲が認められた。双胎児、帝王切開で出生した低出生体重児で左足に母趾多趾症と左手の示指中指の斜指が認められた。経過観察を行い前方凸の彎曲は改善したが、外側凸の彎曲と脚長差は遺残し、6 歳時の斜指症手術の際に、併せて腓骨骨幹部での部分切除を行い、9 歳時に創外固定器による骨延長変形矯正手術を施行した。

### 序 文

Delta tibia は、2003 年に Currarino らが報告した下腿彎曲症である<sup>1)</sup>。以前より重複母趾に伴う下腿彎曲として報告がある疾患で、生下時より下腿彎曲を呈するが先天性下腿偽関節症とは異なり、経過観察中に脚長差は遺残するが彎曲は改善することが知られている<sup>1)4)5)7)</sup>。当院で下腿偽関節症と鑑別し、delta tibia として治療を行った 2 例について報告する。

### 症 例

**症例 1:** 生下時から左下腿の Anterolateral bowing type<sup>1)3)4)</sup>の彎曲を呈し、在胎児の外傷性骨折陳旧例の疑いで紹介となった。在胎 40 週、体重 3,355 g、経膈分娩、Apgar 9 点、特記すべ

き既往や家族歴は認められなかった。四肢奇形合併はなく、カフェ・オ・レ斑など神経線維腫症を疑う所見は認められなかった。熱感腫脹や疼痛による回避行動などは認められなかった。特徴的な X 線画像所見と経時的な彎曲改善から、自然軽快する下腿彎曲症を疑い補高の着用のみで経過観察を行った。8 歳までに単純 X 線正面像で外方凸の彎曲は 58° から 25° まで改善し、側面像で前方凸の彎曲は 31° から 0° まで改善した。脚長差は成長に伴い 35 mm まで増大した(図 1)。脚長差と残存した外方凸変形に対して、手術治療の必要性を検討中である。

**症例 2:** 生下時から左下腿の Anterolateral bowing type の彎曲を呈し、先天性下腿偽関節症の疑いで紹介となった児。在胎 35 週の双胎児、帝王切開で出生し低出生体重児として ICU 管理

**Key words:** delta tibia(デルタ・ティビア), congenital bowing of the tibia(先天性下腿彎曲症), congenital pseudarthrosis of the tibia(先天性下腿偽関節症), anterolateral bowing(前外方凸彎曲), tibial duplication(重複脛骨)

**連絡先:** 〒 162-0054 新宿区河田町 10-13 アトラス 404 北里大学北里研究所病院 整形外科 木村篤史

電話(080)2250-7069

**受付日:** 2017 年 1 月 30 日

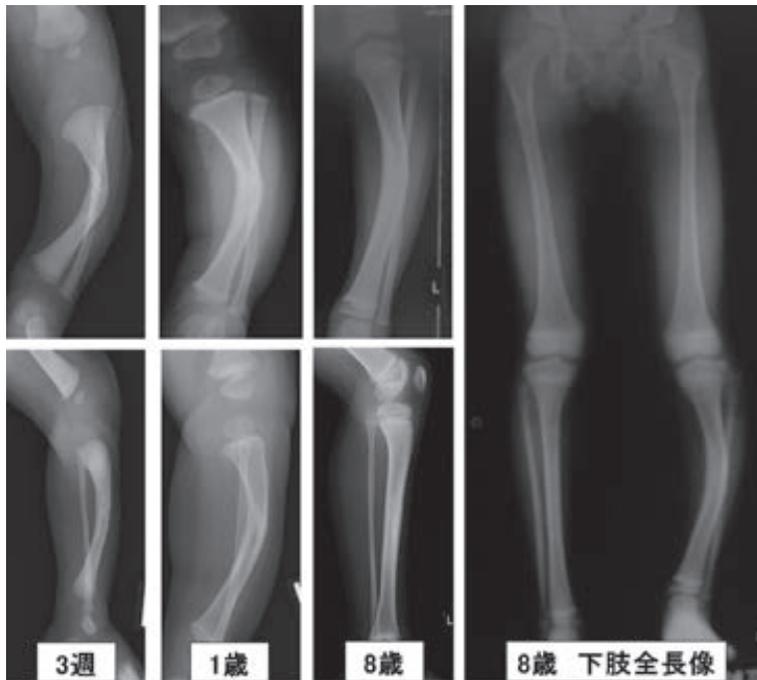


図1. 症例1のX線画像経過  
 (左上)単純X線正面像 (左下)単純X線側面像 (右)8歳時のX線下肢全長正面像  
 脚長差は徐々に増大し8歳時点で35 mmの脚長差となった。

が行われていた。初診時生後7か月、左足に母趾多趾症と左手の示指中指の斜指を合併していたが、カフェ・オ・レ斑など神経線維腫症を疑う所見は認められなかった。熱感腫脹や疼痛による回避行動などは認められなかった。他院で撮影した初期のX線画像と比較すると、初診時において既に弯曲が改善傾向にあり、併せて認められる特徴的な所見(図2)から自然軽快する下腿弯曲症を疑い、歩行開始したところから短下肢装具着用とするなど、慎重に経過観察を行った。6歳時までにX線正面像で外方凸の弯曲が49°から22°、側面像で前方凸の弯曲が54°から7°まで改善していた。脛骨弯曲改善の経過から腓骨が弯曲矯正の妨げになっていると判断し、手の斜指症手術の際に併せて腓骨骨幹部での部分切除を行った。その後、明らかな弯曲の改善が認められたが(外方弯曲22°→12°、前方弯曲7°→0°)、腓骨が早期に骨癒合した後に外方凸の弯曲が若干増悪し、8歳時点で外側凸19°の弯曲を呈した。脚長差は成長とともに増大し、8歳時で約40 mmの脚長差が

認められたため(図3)、9歳時に創外固定器による骨延長・変形矯正手術を施行した(図4)。創外固定器は、単支柱型創外固定(Orthofix® LRSs-small+5 mm half pin 3×3)を用いた。手術は脛骨の骨切り・創外固定器設置に加え、遠位脛腓間固定、腓骨部分切除を同時に施行した。骨延長量は、0.5 mm/d~1.0 mm/dで適宜調節し、2か月間で40 mmを延長、旺盛な延長仮骨形成を認めた。術後5か月時で独歩(創外固定装着中)可能、関節可動域は足関節背屈5°、底屈45°、膝関節伸展-5°、屈曲155°と軽度の足関節背屈制限および膝関節伸展制限が認められるのみで、十分に独歩可能である。

## 考 察

先天性下腿弯曲症は、①変形の頂点が前外方にあり、下腿偽関節症やその前段階にあたり、高率に偽関節化し自然矯正されない難治性の Antero-lateral bowing type、②頂点が後内方にありまれであるが成長に伴い弯曲は自然矯正される一方、

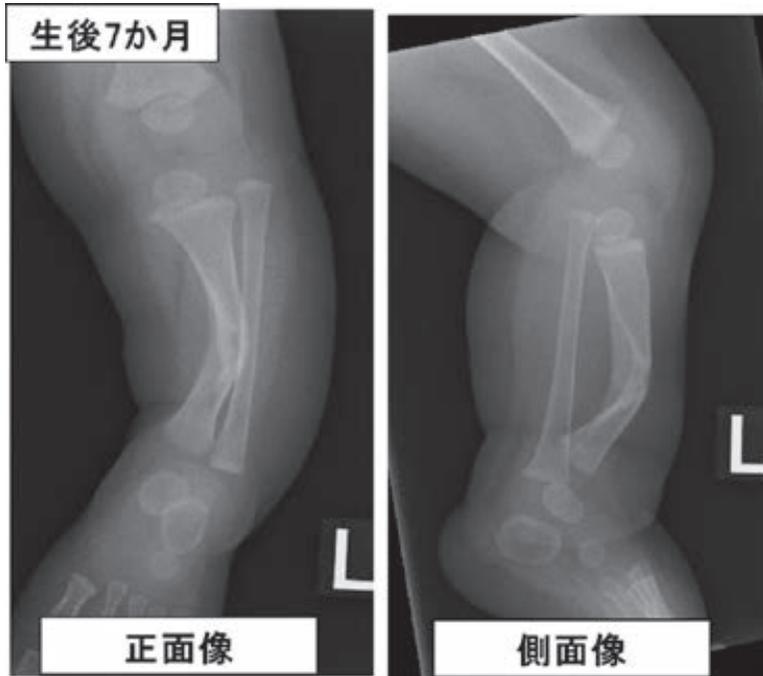


図 2. 症例 2

彎曲部の頂点前方には骨皮質欠損を，後方の凹部には Triangular osseous structure が認められた．脛骨の近位遠位骨幹部委縮，嚢胞性病変や骨硬化は認められない．腓骨は正常である．

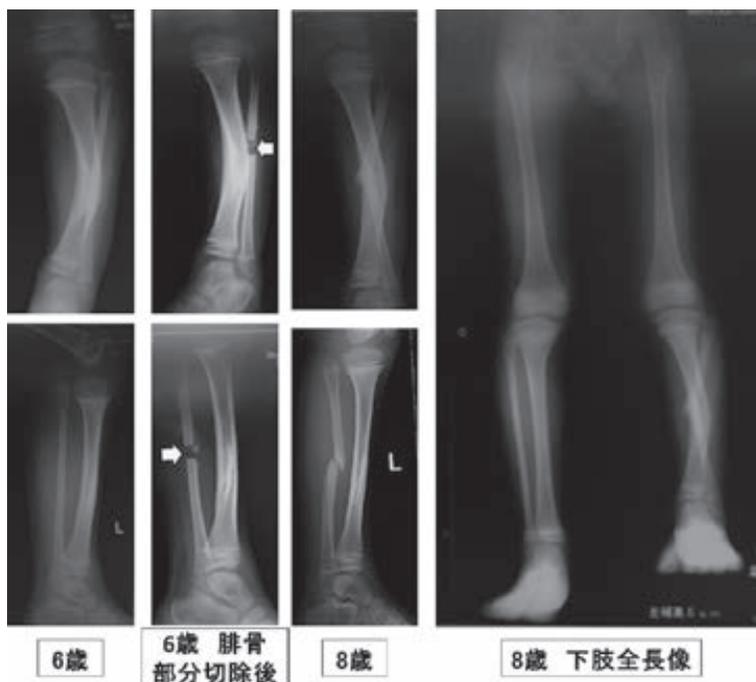


図 3. 症例 2 の X 線画像経過

(左上)単純 X 線正面像 6 歳時に腓骨部分切除を施行した[矢印] (左下)単純 X 線側面像 (右)8 歳時の X 線下肢全長正面像

脚長差は徐々に増大し 8 歳時点で 40 mm の脚長差となった．

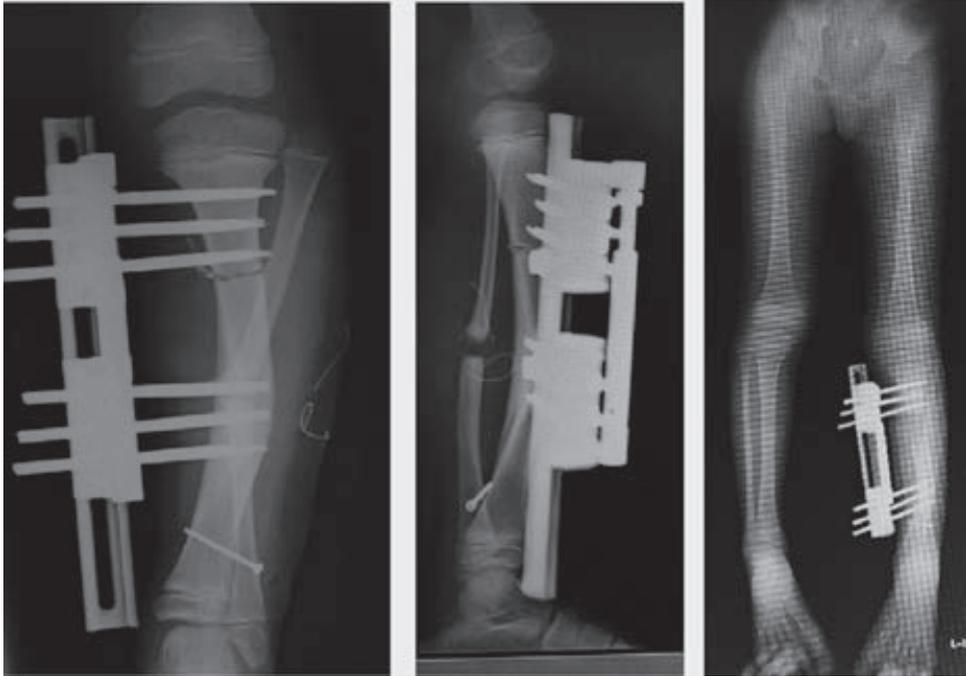


図 4. 症例 2 骨延長・変形矯正手術の経過  
(左)術直後単純 X 線正面像 (中央)術直後単純 X 線側面像 (右)延長終了後単純 X 線下肢全長像  
脚長差は矯正されている。

脚長差は遺残する予後良好な Posteromedial bowing type とに分類される<sup>1)3)4)5)8)</sup>。

Kito ら, Manner らが報告した第 1 趾奇形に伴う下腿彎曲<sup>3)4)</sup>や, 2003 年に Currarino らが報告した delta tibia して報告された症例<sup>1)</sup>は, Antero-lateral bowing type であるが, 下腿偽関節症とは関連せず自然軽快する例であった。Premal らの報告<sup>6)</sup>と併せて, 家族発症例はなく, 片側性, やや男児に多いとされる。第 1 趾の多趾など四肢奇形の合併が多く, X 線側面像で前方凸の彎曲は継続的に改善するが, X 線正面像で外方凸の彎曲および脚長差は遺残する。下腿偽関節症とは異なり彎曲部での骨折を合併しても癒合は良好に得られることが報告されている。また, 画像所見として脛骨の遠位よりに彎曲の頂点があること, 頂点では髓腔が最も狭くなること, その頂点部は骨皮質欠損を伴うほか, 凹側は骨性の三角形架橋 (Triangular osseous structure) を認めることが挙げられる<sup>1)6)</sup>。同部の CT 横断像では髓腔が二重になっている特徴的な画像 (Tibial duplica-

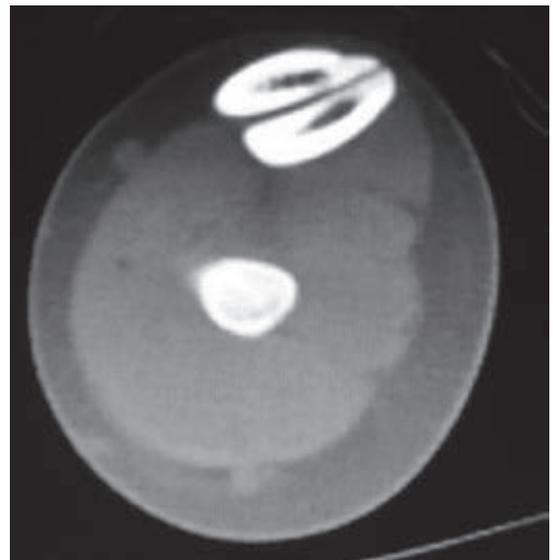


図 5. 症例 2 脛骨 Triangular osseous structure 部の CT 横断像

Tibial duplication といわれる重複した髓腔構造を認めた。母趾多趾症を伴う下腿彎曲症に特徴的な画像所見として報告されている<sup>3)4)</sup>。

tion)<sup>3)4)</sup>が認められることがある (図 5)。骨幹部の委縮は認められないことや基本的に腓骨病変は

表 1. Delta tibia と先天性下腿偽関節症の鑑別点<sup>2)7)</sup>

	Delta tibia	先天性下腿偽関節症
経過	彎曲が改善 脚長差が遺残する	難治性 偽関節化など
XP・CT 所見	萎縮など変化なし Triangular osseous structure 前方の骨皮質欠損 Tibial duplication	骨幹部の萎縮や嚢胞変性 しばしば腓骨にも病変
合併疾患	四肢の奇形 指や足趾が多い	神経線維腫症 カフェオレ斑など
治療法	保存的治療 または 成長後の脚長差補正	偽関節や変形の治療
骨折	骨癒合は得られる	難治性偽関節になりやすい

認められないことも、下腿偽関節症との画像における鑑別点として挙げられる<sup>2)7)</sup> (表 1)。これらの特徴から、本疾患は難治性の Anterolateral bowing type と異なる下腿彎曲症といえる。

自験例 2 例について、共に凹側に三角形の骨性架橋など特徴的な所見を認め、骨幹部に萎縮や神経線維腫症を疑わせる所見や腓骨病変は認められず、経過中に X 線側面像で前方凸彎曲は改善し、X 線正面像で外側凸の彎曲・脚長差が遺残したことを併せて delta tibia とされる下腿彎曲症として矛盾がないと判断した。経過中に下腿偽関節症とは鑑別でき、脛骨の横径成長も認められたため、骨折予防装具・免荷装具の長期着用はしなかった。また、これまでに delta tibia と考えられる下腿彎曲症に骨延長・矯正手術を施行した例は、我々が渉猟し得た限り報告がない。高率に偽関節化する下腿偽関節症との鑑別が必須になるが、自験例では術後旺盛な仮骨形成が既に認められており、本疾患の遺残する脚長差および X 線正面像での外側凸彎曲に対する有効な治療法である。

## 結 語

脚長差および Anterolateral bowing を呈す delta tibia 2 例を経験した。いずれも X 線側面像での前方凸彎曲は改善したが、正面像での外側凸彎曲が遺残し脚長不等が認められた。先天性下腿

偽関節症との鑑別が重要である。

## 文献

- 1) Currarino G, Herring JA, Johnston CE et al : An unusual form of congenital anterolateral tibial angulation—the delta tibia. *Pediatr Radiol* **33** : 346-353, 2003.
- 2) Hefti F et al : Congenital pseudarthrosis of the tibia: history, etiology, classification, and epidemiologic data. *J Pediatr Orthop* **B9** : 11-15, 2000.
- 3) Kitoh et al : Congenital Anterolateral Bowing of the Tibia With Ipsilateral Polydactyly of the Great Toe. *Am J Med Genet* **73** : 404-407, 1997.
- 4) Manner HM, Radler C, Ganger R et al : Pathomorphology and treatment of congenital anterolateral bowing of the tibia associated with duplication of the hallux. *J Bone Joint Surg Br* **87** : 226-230, 2005.
- 5) Pappas AM : Congenital posteromedial bowing of the tibia and fibula. *J Pediatr Orthop* **4** : 525-531, 1984.
- 6) Premal AP et al : Fracture through the apex of a delta tibia (minor tibial duplication) following minor injury *Pediatr Radiol* **42** : 753-757, 2012.
- 7) Shah HH, Doddabasappa, SN, Joseph B : Congenital posteromedial bowing of the tibia. *J Pediatr Orthop B18* : 120-128, 2009.
- 8) 富沢仙一, ほか : 先天性下腿彎曲症の病態と治療. *関節外科* **30** : 701-707, 2011.