

先天性内反足再発例における末梢神経障害の可能性

宮城県立こども病院 整形外科

水野 稚香・落合 達宏・高橋 祐子・小松 繁允

要旨 Ponseti 法は先天性内反足の優れた治療法であるが、再発例の中には特発性とは言い切れない内反足も含まれる可能性は否定できない。今回、神経障害による筋力不均衡が再発の原因になっている可能性について検討した。2008年から2018年に学童期前に再発した先天性内反足9例12足を対象とした。女児2例、男児7例、両側例3例、片側例6例であった。再発年齢は平均3.5歳であった。神経伝導検査で、腓骨神経の運動神経伝導速度は1例が患側で導出不可であったが、その他は正常であった。9例の全例で患側の腓骨神経の複合筋活動電位(Compound Muscle Action Potential: 以下, CMAP)の低下を認め、うち片側例の6例中5例は健側の腓骨神経のCMAPの低下が認められた。筋電図は7例に実施され、3例で神経原性変化を認めた。全患側では腓骨神経の軸索障害と考えられた。筋電図で神経原性変化がある症例、または健側もCMAPの低下のある症例、腓骨神経と脛骨神経のCMAPの低下がある症例は、末梢神経障害あるいはCharcot-Marie-Tooth病が疑われた。したがって、内反足の再発例の診断には神経学的検査も必要といえる。

はじめに

Ponseti 法は先天性内反足の優れた治療法であるが、初期矯正が良好であっても再発し再治療を要する症例もある。再発例には下腿筋の萎縮や腓骨筋の筋力低下が認められることがあり、神経原性の変化が原因の一つではないかとの報告もある¹⁾。今回、Ponseti 法で治療した後に再発した症例の神経障害について調査し、神経障害による筋力不均衡が先天性内反足の再発の原因になっているのかどうかを検討した。

対象・方法

2008年から2018年に当院、あるいは他院でPonseti 法にて初期治療を行った症例33例51足(片側25例、両側8例)のうち学童期前に再発した先天性内反足9例12足を対象とした。症候性

内反足や脳性疾患は除外した。再発の定義はdynamic supination が出現したときとし、矯正ギプスで追加治療しても再発を繰り返す症例を対象とした。女児2例、男児7例、両側例3例、片側例6例であった。この症例について両側の腓骨神経、脛骨神経の神経伝導検査、前脛骨筋または腓腹筋の針筋電図を行った。

結果

再発年齢は平均3.5歳(2~6歳)であった。全例にdynamic supination が認められたが、2例では鶏歩歩行も伴っていた。神経学的検査では下肢深部腱反射の低下が9例中6例で認められた。痛覚による感覚検査は9例中8例に実施したところ、1例は判断困難で3例に感覚低下を認めた。神経伝導検査は、両側の腓骨神経、脛骨神経で実施した。腓骨神経の運動神経伝導速度(Motor Nerve

Key words : 先天性内反足 (congenital clubfoot), 末梢神経障害 (peripheral neuropathy), 再発 (relapses)

連絡先 : 〒 989-3126 宮城県仙台市青葉区落合 4 丁目 3-17 宮城県立こども病院 整形外科 水野稚香

電話 (022)391-5111

受付日 : 2019年4月19日

Conduction Velocity：以下，MCV）は1例が患側で導出不可であったが，その他は正常であった．9例の全例で患側の腓骨神経の複合筋活動電位(Compound Muscle Action Potential：以下，CMAP)の低下を認め，うち片側例の6例中5例は健側の腓骨神経のCMAPの低下が認められた．脛骨神経のMCVは全例正常であったが，CMAPは片側例の3例で患側が低下し，1例では健側も低下が認められた．筋電図は7例に実施され，3例で神経原性変化を認めた(表1)．

症例 1

6歳の男児，左先天性内反足で兄も両先天性内反足で治療歴がある．前医で Ponseti 法に準じて矯正ギプス，アキレス腱切離術を施行され，3歳の時に転居に伴い紹介された．夜間装具の装着率も良かったが，5歳になってから dynamic supination が認められた．単純 X 線で正面 TC 角 (Talo-Calcaneal angle) 10°，側面 TC 角 20°であった(図1)．感覚障害は認められず，深部腱反射は低下していた．下腿周径は患側で細く，下肢筋力は患側の腓骨筋のみ MMT で3であったが，ほかは問題なかった．神経伝導検査では，脛骨神経の MCV は左右とも正常であったが，左の CMAP の低下を認めた．腓骨神経の MCV も両側正常であったが，左の CMAP の低下が認められた(図2)．患側の左において，脛骨神経，腓骨神経とも軸索障害が疑われた．脛骨神経の

CMAP の低下はあったが，前脛骨筋の筋力は問題なく，前脛骨筋腱移行術を施行した．

症例 2

4歳の男児，左先天性内反足である．他医で Ponseti 法に準じて矯正ギプス，アキレス腱切離術を施行され，2歳の時に当科を紹介された．3歳ぐらいより dynamic supination が出現し矯正ギプスを繰り返していた．踵骨は内反し単純 X 線で，正面 TC 角 11°，側面 TC 角 20°であった(図3)．感覚障害はなく，深部腱反射は低下していた．筋力は左腓骨筋だけではなく，健側も含めて前脛骨筋，足趾の筋力低下が認められた．神経伝導検査では，脛骨神経の両側 MCV は正常であったが，両側で CMAP 低下が認められた．腓骨神経では右の MCV は正常であったが，CMAP は低下して，左は導出不可であった(図4)．針筋電図においては神経原性変化が疑われた．上記より軸索障害によるニューロパチーも否定できず，Charcot-Marie-Tooth 病の遺伝子検索を進めている．治療は MRI で前脛骨筋は脂肪変性しており(図5)，そのため後脛骨筋外側移行術を施行している．

考 察

本邦における先天性内反足に対する神経伝導速度検査の論文報告はほとんどない．伊藤ら²⁾は先天性内反足の深腓骨神経の MCV 低下を報告し，Thometz⁴⁾らは再発により手術が必要になった先

表 1. 全症例の検査結果

症例	患側	再発年齢	初期症状	PTR*/ATR*	感覚障害	腓骨 CMAP	腓骨 MCV	脛骨 CMAP	脛骨 MCV	筋電図
①	両	2y	DS	低下	あり	両側低下	正常	正常	正常	神経原性
②	左	3y	DS/鶏歩	低下	あり	両側低下	正常	正常	正常	神経原性
③	右	6y	DS	正常	判断難	両側低下	正常	患側低下	正常	正常
④	左	5y	DS	低下	なし	両側低下	正常	患側低下	正常	正常
⑤	両	3y	DS	正常	未	両側低下	正常	正常	正常	未
⑥	両	2y	DS/鶏歩	低下	なし	両側低下	正常	正常	正常	未
⑦	左	2y	DS	低下	なし	低下**	低下**	両側低下	正常	神経原性
⑧	左	4y	DS	正常	なし	両側低下	正常	患側低下	正常	正常
⑨	右	5y	DS	低下	あり	両側低下	正常	正常	正常	正常

* PTR : Patella Tendon Reflex, ATR : Achilles Tendon Reflex

** 患側は検出不可，健側は腓骨神経 CMAP, MCV 共に低下

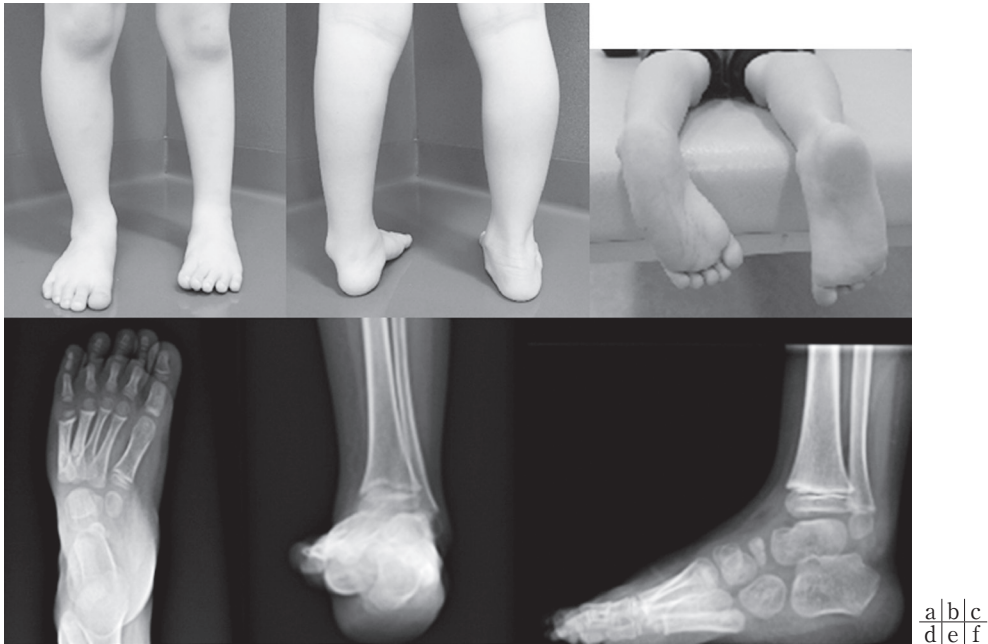


図 1. 症例 1

a, b, c: 左内反足
d, e, f: 左足単純 X 線

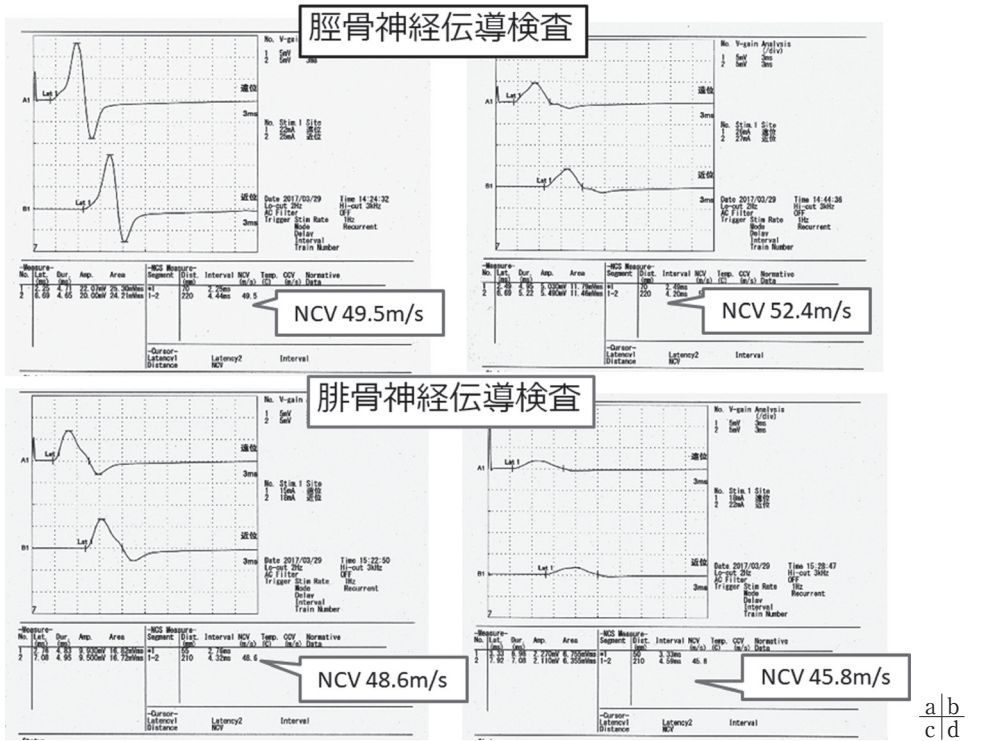


図 2. 症例 1

a: 右脛骨神経伝導速度 MCV 49.5 m/s, CMAP 正常
b: 左脛骨神経伝導速度 MCV 52.4 m/s, CMAP 低下
c: 右腓骨神経伝導速度 MCV 48.6 m/s, CMAP 低下
d: 左腓骨神経伝導速度 MCV 45.8 m/s, CMAP 低下

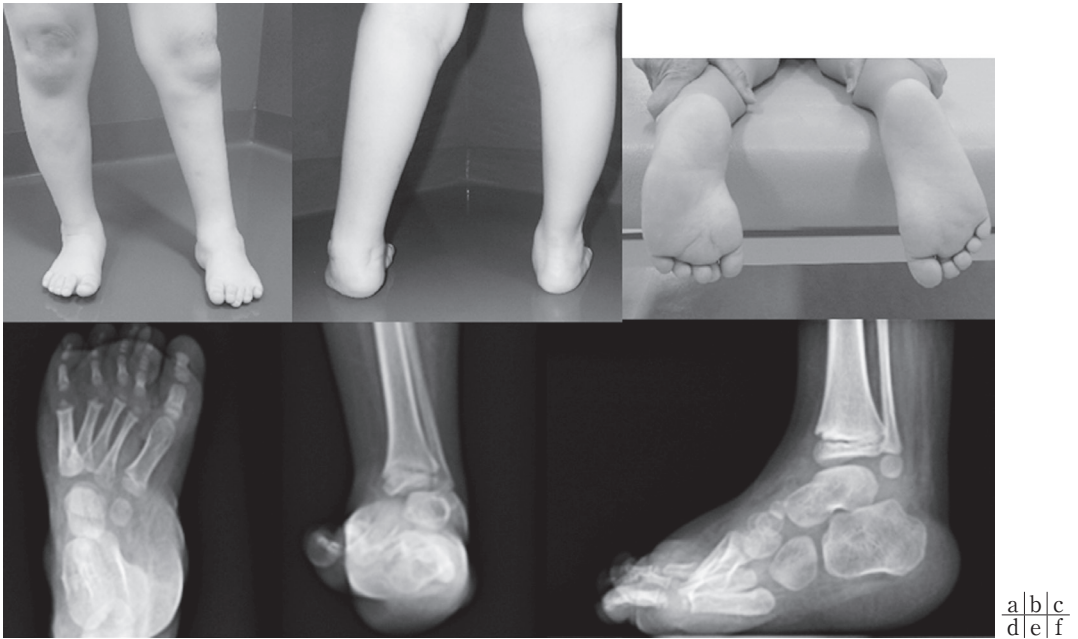


図3. 症例2

a, b, c : 左内反足

d, e, f : 左足単純 X 線

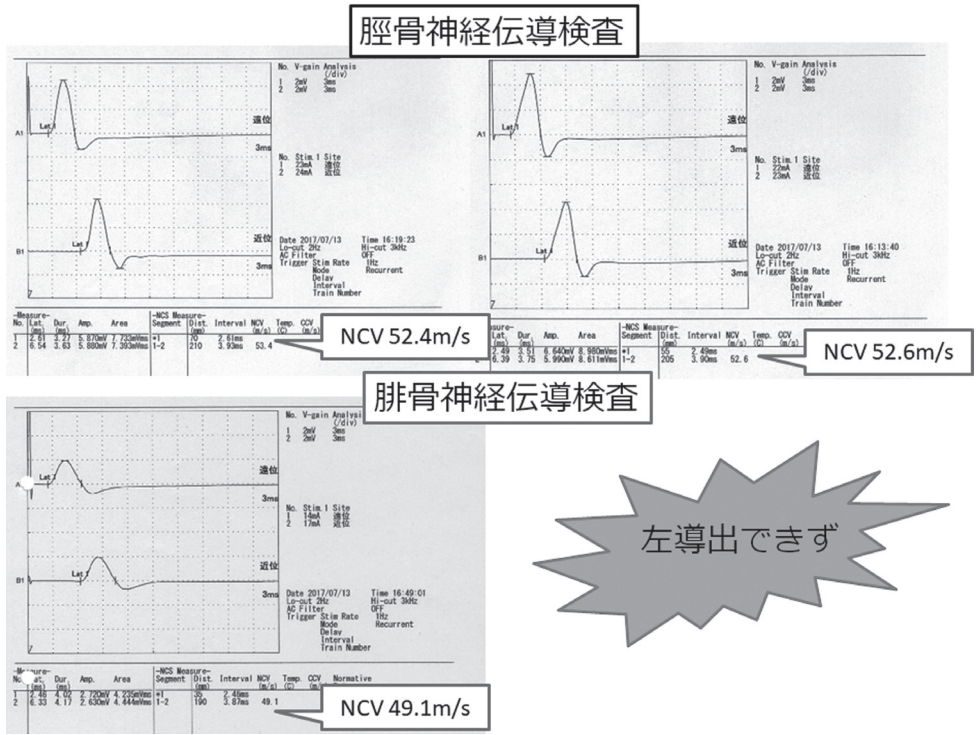


図4. 症例2

a : 右脛骨神経伝導速度 MCV 52.4 m/s, CMAP 低下

b : 左脛骨神経伝導速度 MCV 52.6 m/s, CMAP 低下

c : 右腓骨神経伝導速度 MCV 49.1 m/s, CMAP 低下

d : 左腓骨神経伝導速度 導出できず

a|b
c|d

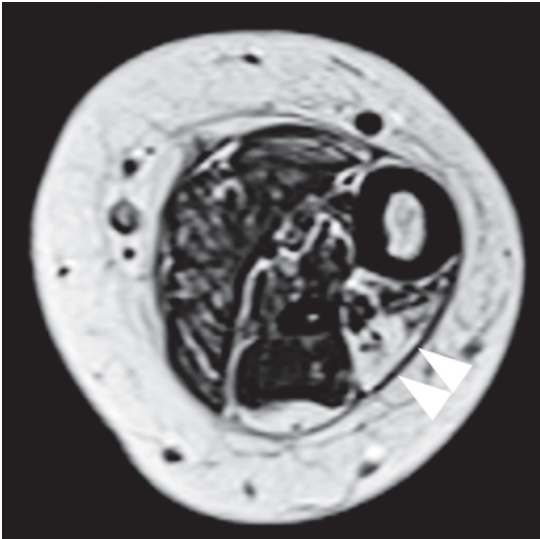


図5. 症例2
左下腿MRI：前脛骨筋は脂肪変性していた(矢印)

天性内反足の神経伝導速度検査を行い、57%の症例に神経学的要因を認め、最も腓骨神経の異常が多かったことを報告している。本例でも全例患側の腓骨神経のCMAPの低下を認め、軸索障害が疑われた。さらには片側側の健側でも腓骨神経CMAPの低下も認められた症例があったことは、患側だけでなく両側の末梢神経障害も疑う所見と判断された。またFeldbrin¹⁾らは、腓骨神経の異常だけではなく、我々同様に脛骨神経の異常のあった症例も報告している。さらに再発症状であるdynamic supinationは、腓骨神経の異常からの腓骨筋の筋力低下と前脛骨筋の筋不均衡からの症状であり、前脛骨筋腱の外方移行を推奨している。本例でも再発した内反足の全例で腓骨神経の軸索障害を認めたことから、前脛骨筋外方移行術を当初検討した。しかし、症例の中には前脛骨筋の筋力低下を呈した症例もあったため、術前にMRIで下腿筋の評価を行い、前脛骨筋の脂肪変性が認められた症例には後脛骨筋移行術に変更した。

今回、我々は学童期前に再発した先天性内反足を調査したが、Lovell³⁾らは、Ponseti法での治療例のうち6歳以降の再発例にはCharcot-Marie-Tooth病などの神経障害を含むことを報告している。Charcot-Marie-Tooth病は主に10~20代で

発症することが多いが、今回の学童期前の症例の検査結果の中には、針筋電図で神経原性変化があり、健側の腓骨神経のCMAPの低下のある症例、腓骨神経と脛骨神経の両方でCMAPの低下がある症例は、末梢神経障害、特にCharcot-Marie-Tooth病の可能性も疑われた。先天性内反足再発例の全症例が神経学的要因とは限らないが、その神経学的検査には重要な意味がある。すなわち、手術治療が前脛骨筋外側移行術でいいのか、装具が必要かなどの選択の判断の根拠となり、さらに今後複数回手術の可能性や、現在健側とした足部の罹患はどうなのかなどの予後判断につながるものである。

まとめ

内反足の再発例に神経伝導速度、針筋電図を行い、末梢神経障害の可能性が認められた。したがって、再発例の診断には神経学的検査も必要といえる。

文献

- 1) Feldbrin Z, Gilai AN, Ezra E et al : Muscle imbalance in the aetiology of idiopathic club foot. An electromyographic study. J Bone Joint Surg **77-Br** : 596-601, 1995 .
- 2) 伊藤雅則：腓骨神経伝導速度による先天性内反足の研究. 名古屋市立大学医学会雑誌 **38(4)** : 453-469, 1987.
- 3) Lovell ME, Morcuende JA : Neuromuscular disease as the cause of late clubfoot relapses : report of 4 cases. Iowa Orthop J **27** : 82-84, 2007.
- 4) Thometz J, Sathoff L, Liu XC et al : Electromyography nerve conduction velocity evaluation of children with clubfeet. Am J Orthop **40** : 84-86, 2011.