

軸前性多趾症の術後長期成績

札幌医科大学医学部整形外科学講座

黒川 敬文・射場 浩介・早川 光
花香 恵・山下 敏彦

要旨 【目的】軸前性多趾症は軸後性と比較してまれな先天異常疾患であり、手術成績の報告は少ない。術後長期経過観察が可能であった症例の特徴と術後成績を検討する。【方法】術後10年以上の経過観察が可能であった母趾多趾症3例5足を対象とした。手術時年齢は13か月、術後観察期間は134か月であった。外観の特徴、X線所見、手術方法、術後の機能障害、術後合併症を検討した。【結果】内側母趾の内反変形を4足、外反変形を1足に認め、外側母趾と第2趾間の合趾を2足に認めた。X線では全例中足骨レベルの重複であった。手術は1例2足に内側母趾切除と外側母趾の趾列移動を2期的に行い、1例2足に外側母趾列切除と趾間形成を行った。1足で中足骨基部を温存した内側母趾切除を行った。全例で術後経過は良好であった。【考察】軸前性多趾症は表現型が多彩で、確立された術式がない。本研究では3例の母趾多趾症に異なった手術を行い、良好な長期術後成績を獲得した。

はじめに

多趾症は発生頻度が比較的高い足部先天異常疾患であり、1千出生当たり0.3から3.6と報告されている¹⁾⁷⁾。多趾症は母趾が重複する軸前性と小趾側が重複する軸後性に分類される⁵⁾。四肢先天異常の用語に関する国際コンセンサス委員会では、第1趾列のすべてあるいは一部の重複したものを軸前性、母趾ではない過剰趾が存在するものを軸後性と定義している²⁾。軸前性は多趾症全体の約6%とまれであり、1千出生当たり0.024とされている¹⁾⁷⁾。軸前性は、軸後性と比較して複雑な形態を呈する症例が多く、術後成績も不良であることが報告されている⁶⁾⁸⁾。また、術後の長期経過に関する報告は少なく、確立された治療法はない。今回は当科で手術を行い長期の経過観察が可能であった軸前性多趾症について、その特

徴と術後成績について検討した。

対象と方法

対象は2006年8月から2010年3月までに当科で軸前性多趾症の診断で手術を行った症例の中で、10年以上の経過観察が可能であった3例5足とした。手術時年齢は13か月(10~19か月)、術後観察期間は134か月(120~158か月)であった。検討項目は、外観の特徴、X線所見、合併疾患、手術方法、日常生活における障害の有無、術後合併症とした。

結果

外観所見では内側母趾の内反変形を4足、外反変形を1足、外側母趾と第2趾間の合趾を2足に認めた。5足すべてにおいて、外側母趾は内側母趾と比較して低形成であった。すべての症例で、

Key words : preaxial polydactyly of the foot(軸前性多趾症), post-operative outcome(術後成績), long term(長期), congenital abnormality(先天異常)

連絡先 : 〒060-8543 北海道札幌市中央区南1条西16丁目 札幌医科大学医学部整形外科学講座 黒川敬文
電話(011)611-2111

受付日 : 2020年5月21日

重複した母趾による前足部幅の増大のため靴を履くことが困難であった。X線所見では、5足すべてが中足骨レベルでの重複を認めた。また、外観所見と同様に外側母趾は内側と比較して、中足骨と趾節骨共に低形成となっていた。合併疾患として、2例で両手に母指多指症を認めた。

重複した母趾による前足部幅の増大と外観の改善を目的に手術を行った。術式は、1例2足で外側母趾列切除と趾間形成を、1例1足で荷重時の安定性保持のため中足骨基部を温存して内側母趾

列切除を行った。また、1例2足で内側母趾切除と外側母趾の趾列移動を2期的に行った。術後は前足部幅の改善により、既製の靴を履くことが可能となった。術後の合併症はなく、歩行障害や運動時痛など日常生活での障害も認めなかった。また、術後10年以上経過後の所見では、1例2足に軽度の外反母趾変形を認めたが、運動障害や既製靴の装着困難、疼痛などの機能障害を呈した症例はなかった(表1)。

表 1. 症例のまとめ

	症例1	症例2	症例3
性別	女	女	女
手術時年齢	10 か月	11 か月	19 か月
特徴的所見	両側内側母趾の著名な内反変形	両側外側母趾が隣接趾と合趾	片側罹患 内側母趾が外反変形
術式	2 期的手術 内側母趾 MTP 関節離断 外側母趾を内側へ趾列移動	外側母趾列切断 第 1 趾間形成	内側母趾列切除
経過観察期間	120 か月	158 か月	124 か月
術後機能障害	なし	なし	なし

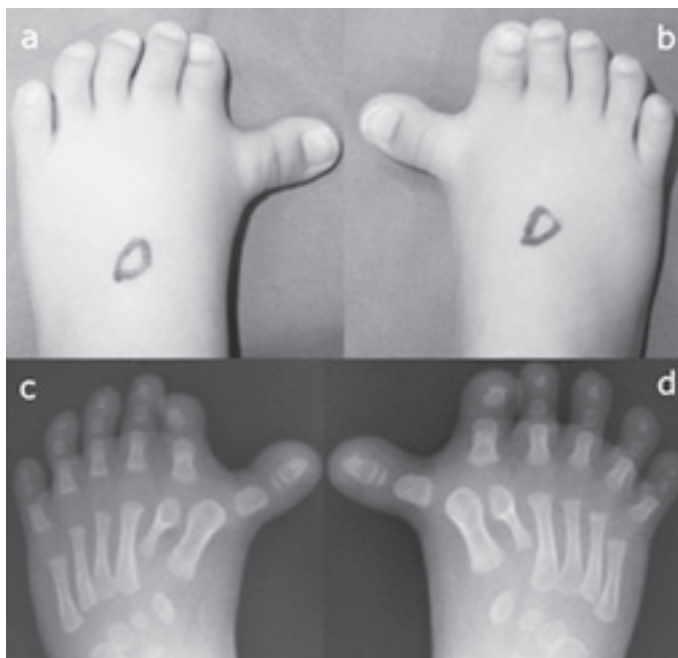


図 1. 症例 1 の初診時所見

外観所見では内側母趾の内反変形を認めた。(a: 左足 b: 右足)
X線所見では中足骨の重複を認め、重複した中足骨はいずれも内側への偏位および低形成を認めた。内側母趾は MTP 関節で著明な内側偏位を呈していた。(c: 左足 d: 右足)

症例提示

症例 1: 手術時 10 か月，女児．両側多趾症

生後より両足部の変形を認め，紹介受診となった．両側母趾の重複と内側母趾の著しい内反変形を認めた(図 1)．X 線所見では中足骨レベルで重複を認め，外側中足骨は低形成であった．また，内側母趾は中足趾節(MTP)関節で著しい内反偏位を呈していた(図 1)．家族歴は特記すべき事項はなく，両手に母指多指症を認めたが，その他の合併疾患は認めなかった．

靴着用困難と外観の改善を目的に手術を計画した．内側母趾は著しい内反変形を呈し，徒手的なアライメント矯正も困難であった．X 線所見で中足骨は内側に偏位していた．一方，外側母趾は低形成であり，特に中足骨は著明な低形成を呈していた．また，立位時は内側母趾の中足骨頭部を中心に荷重バランスをとっていた．以上の所見に基



図 2. 症例 1 の初回手術後 2 年の所見
外観所見では成長に伴う母趾基部の内側への突出を認め，同部に荷重痛を訴えていた．また，母趾と第 2 趾の cross toe を認めた．(a : 左足 b : 右足)
X 線所見では骨成長に伴う内側中足骨頭の内側への突出を認め，右足では外側母趾の相対的外反母趾の進行を認めた．(c : 左足 d : 右足)

づき，初回手術では，強い内反変形を認める内側母趾の MTP 関節での離断術を行った．術中に，切除した内側母趾内側の関節包と側副靭帯の複合体を温存して，外側母趾内側に縫着した．また，内側母趾基節骨に停止していた母趾外転筋を外側母趾に移行した．これらの軟部組織の処置により，外側母趾の可及的なアライメント矯正を行った．術後 3 週間は鋼線による MTP 関節の一時固定を行った．

その後経過良好であったが，初回手術後約 2 年で，内側中足骨の成長に伴う骨頭部の荷重時痛と母趾と第 2 趾の cross toe を認めた(図 2)．温存した外側母趾のアライメント改善を目的に，初回手術後 27 か月で追加手術として外側母趾の内側中足骨への趾列移動を行った．手術では内側中足骨遠位外側を L 字に切除し，外側母趾中足骨を内側中足骨にはめ込むようにして，鋼線固定を行った(図 3)．内側中足骨遠位への外側母趾移行による母趾アライメント改善により，荷重時の疼痛は改善された．

初回手術後から 120 か月の所見で，軽度の外反母趾変形(外反母趾角右 10°，左 21°)を認めるが，疼痛や運動制限，靴着用困難など日常活動での問題は認めていない(図 4)．今後は外反母趾の変形進行も念頭に置き，術後経過観察を継続する予定である．



図 3. 症例 1 の 2 回目手術直後 X 線所見
背側から展開し，内側中足骨遠位外側を L 字に切除後，外側母趾中足骨を内側中足骨にはめ込むようにして趾列移動を行った．(a : 左足 b : 右足)



図4. 症例1の最終経過観察時
 外観所見ではMTP関節部内側の軽度突出を認めるが、疼痛や機能障害なく、cross toeも認めなかった。(a:左足 b:右足)
 X線所見では軽度の外反母趾変形を認めるがMTP関節の適合性は良好であった。(c:左足 d:右足)

症例2:手術時11か月、女兒、両側軸前性多合趾(両側母趾多趾, 両外側母趾第2趾間合趾)

生後より両足部の変形を認め、紹介受診となった。外観では両側母趾の内反変形と第2と第3趾間の合趾を伴う多趾を認めた(図5)。一方、X線所見で両側第2趾は二つの趾節骨と太い基節骨を認め、中足骨近位端は母趾中足骨近位端と同じレベルを呈していた(図5)。以上の所見より、合趾を合併した軸前性多趾症と診断した。以下、外観所見における第2趾を外側母趾、外観所見における第3趾を第2趾と記載する。家族歴は特記すべき事項なく、両手の母指多指症を認めたが症候性の合併疾患はなかった。

靴着用困難と外観の改善を目的に手術を計画した。内側母趾の内反変形が比較的軽度で徒手矯正が可能であったこと、外側母趾が低形成であったこと、立位時は内側母趾の中足骨頭部を中心に荷重バランスをとっていたことより、両外側母趾の趾列切断と第1趾間の形成術を行った。

術後158か月後の所見では、疼痛や運動制限、靴着用困難など日常活動での問題は認めていない(図6)。また、外観とX線所見で両側母趾共に良好なアライメントが保持されていた。

考 察

多趾症の発生原因として、GLI3やZRS/SHHの遺伝子異常が関与していることが最近の研究で明らかとなってきた⁷⁾。一方、これらの遺伝子異常の相互作用により多彩な表現型が発生していると報告されているが、その病態はいまだ不明な点が多い⁷⁾。特に、軸前性は軸後性と比較して表現型が多彩であるため¹⁾³⁾、症例ごとに治療すべき内容が異なる。

自験例においても、臨床所見やX線所見はいずれも症例間で異なり、それぞれの病態に応じた治療計画を立てた。治療法が比較的確立されている軸後性多趾症と比べて、軸前性多趾症ではより慎重な病態把握が必要と考える。

また、乳幼児期では骨格が未発達なため、X線による画像評価や四肢機能評価について、術前での正確な評価は困難である。特に、足部の先天異常疾患では、荷重時のアライメント評価も重要であると考えられる。そのため多趾症に対する手術は、基本的に歩行獲得以降に行ってきた。一方、軸前性多趾症では、内側母趾の内反変形により靴の着用が困難な症例を認める。このような症例では歩行獲得以前での早期手術が必要となる可能性がある。本報告においても3例中2例4足に対して歩行獲得以前に手術を行った。軸前性多趾症の手術時期を決める上で留意すべきことと考える。

軸前性多趾症ではさまざまな形態異常や病態を呈するため、切除趾の選択や術式の選択について一定の見解はない。術前には軟部組織や軟骨に関



図5. 症例2の初診時

外観所見で両側母趾の内反変形と第2趾-第3趾間の合趾を伴う多趾を認めた。(a:左足 b:右足)

X線所見で、両側第2趾は二つの趾節骨(白矢頭)を認め、中足骨近位端は母趾中足骨近位端と同じレベル(白矢印)を呈していた。以上の所見より、合趾を合併した軸前性多趾症と診断した。(c:左足 d:右足)

する情報が少ないため、術中所見に基づいた詳細な術式決定が必要となる。一方、軸前性多趾症術後には荷重が外側にシフトしており、母趾周辺は荷重や蹴り出しにあまり寄与せず、機能よりも整容面や靴のトラブルが多いとする報告がある⁴⁾。しかし、症例1では初回術後においても内側中足骨頭部を中心に荷重していたと考えられた。また、2期的な趾列移動手術で母趾のアライメント矯正をすることで荷重時の疼痛改善を認めたと考える。以上より、軸前性多趾症では、外観を重視した手術では術後経過で障害を認める症例があることに留意する必要がある。

軸前性多趾症の術後中長期成績についての報告は少ない。Burgerら⁴⁾は軸前性多趾症37例において術後平均61か月(37~113か月)の経過観察で機能は良好であったと報告している。一方、本研究では術後10年以上の経過観察が可能であった症例(平均観察期間134か月)を対象に、その術後成績を検討した。疼痛や運動制限、靴着用時の障害など日常生活で問題を認めた症例はなかった



図6. 症例2の最終経過観察時

外観所見とX線所見で両側母趾共に良好なアライメントが保持されている。(a, c:左足 c, d:右足)

が、1例で外反母趾変形の進行を認めた。軸前性多趾症の術後成績評価では長期の経過観察が必要であると考えられた。

まとめ

10年以上の術後経過観察が可能であった軸前性多趾症3例5足の特徴と術後成績を検討した。外観と機能を考慮し、3例でそれぞれ異なった術式を選択した。長期術後成績では日常生活で障害を認めた症例はなかった。

文献

- 1) Belthur MV, Linton JL, Barnes DA : The spectrum of preaxial polydactyly of the foot. *J Pediatr Orthop* **31** : 435-447, 2011.
- 2) Biesecker LG, Aase JM, Clericuzio C et al : Elements of morphology : Standard terminology for the hands and feet. *Am J Med Genet Part A* **149 A** : 93-127, 2009.
- 3) Burger EB, Baas M, Hovius SER et al : Preaxial polydactyly of the foot. *Acta Orthop* **89** : 113-118, 2018.
- 4) Burger EB, Lalé SA, Hovius SER et al : Foot function in patients with surgically treated preaxial polydactyly of the foot compared with age- and sex-matched healthy controls. *Foot Ankle Int* **40** : 414-421, 2019.
- 5) Galois L, Mainard D, Delagoutte JP : Polydactyly of the foot. Literature review and case presentations. *Acta Orthop Belg* **68** : 376-380, 2002.
- 6) 神谷庸成, 堀井恵美子, 洪 淑貴ほか : 軸前性多趾症に対する手術治療について. *日小整会誌* **22** : 69-73, 2014.
- 7) Malik S : Polydactyly : phenotypes, genetics and classification. *Clin Genet* **85** : 203-212, 2014.
- 8) Venn-Watson EA : Problems in polydactyly of the foot. *Orthop Clin North Am* **7** : 909-927, 1976.