Arthrogryposis Multiplex Congenita に伴う 内反足の治療について

九州大学整形外科

大石年秀・野村茂治

藤井敏男・松元信輔

近藤正一

新光園

松尾隆・原寛道

Treatment of Club Foot in Arthrogryposis Multiplex Congenita

by

T. Ohishi, S. Nomura, T. Fujii,
S. Matsumoto, S. KondoDepartment of Orthopaedic Surgery, Faculty of Medicine,
Kyushu University

T. Matsuo, H. Hara

Fukuoka Kenritsu Kasuya Shinkoen

54 patients of arthrogryposis multiplex congenita were treated at orthopedic department of Kyushu university for past 52 years. Among these patients, 14 patients with club foot deformity were analysed in this series.

Most foot deformities required the limited surgical release of the soft tissues following conservative treatment and many of the resistant ones also needed expansive arthrodesis within 20 years old.

According to these results, we got a conclusion as follows, the club foot in arthrogryposis multiplex congenita should be treated by corrective cast for the first 4 months after birth, subsequently by either posterior release or posteromedial release. Braces or splints should be applied in order to prevent recurrence after those surgical procedures. But, in spite of our effort by the early treatment, gradual recurrence of the corrected foot is inevitable.

Therefore, in order to get a lasting plantigrade foot, Evans procedure with posterior release at 4 years old is recommended against the recurrent deformities.

はじめに

Arthrogryposis Multiplex Congenita (以下 AMC と略す) は Otto⁹⁾ により 1841 年に報告され、1904 年 Rosenkranz により命名された四肢に先天性に関節拘縮を有する比較的稀な疾患である。

われわれは、歩行能力を早期に獲得し、5才位までに下肢の治療を完了すべく、本症の股・膝関節および

足部の変形に対し系統的な治療方針の基に早期より積極的な観血的治療を行なっている。AMC に伴う内反足は当科の AMC 54 例中 27 例と 50% に見られ足部変形のうち最も多い変形である。しかもその変形は諸家の認めるごとく再発傾向が非常に強く極めて難治性である。近年 Friedlander²⁾, Gibson³⁾, Lloyd-Roberts⁶⁾, Won H¹¹⁾, Williams¹⁰⁾ 等により多数例のより詳細な報告がなされているが AMC の内反足

の治療体系は未だ確立されたものではない。そこでわれわれは AMC の内反足に対する治療方針決定の一助とすべく当科にて現在治療経過観察中の内反足を伴う AMC の追跡調査を行ない、それらを主体に検討し、当科における本症の内反足の治療変遷、治療上の問題点および当科の治療方針について言及する。

調査対象及び評価法

当科にて現在治療経過観察中の内反足を伴う AMC 14例 (男9例, 女5例) 27足である。初診時年齢は最年少4日, 最年長34才, 平均3才7カ月である。また追跡期間は6カ月から42年, 平均6年9カ月である。治療成績については全例が保存的療法の後に観血的治療を要しているので、観血的治療の経過から3群に分類し判定した。I群: 軟部組織解離術のみの症例, II群: 軟部組織解離術後に年長に成り広汎な関節固定術を行なった症例, III群: 軟部組織解離術後に Evans 手術を追加した症例の3群である。治療成績判定基準としては、本症の足関節は生下時既に非常に硬く、また術前の足変形の程度は症例により非常に差があり、さらに術後の歩行能力には下肢の他関節における変形の有無が大きく関与する等、いわゆる特発性先天性内反足の判定基準は本症の内反足には適合し難いので、今回は硬くても立位荷重可能な planti-

grade foot の獲得の有無をもって判定した。

症 例

症例1 2カ月 女 両内反足

I群の症例で、初診時、高度の内反足にて直ちにギプス矯正を行ない内転変形は軽度改善されたが尖足は強剛にて生後8カ月で両後内側解離術を行なった。術後はギプスや装具にて矯正位を保持したが術後2年頃より徐々に両足に内転内反尖足の再発を来している(図1)。

症例2 2才 男 両内反足

II群の症例で、満州医大にて生直後より徒手矯正、生後7カ月で両アキレス腱切離術を受け、2才で当科を受診したが、尖足が非常に強く両足にアキレス腱切

図1 症例1 A: 術前 B: 後内側解離術後1年 C: 術後2年半, 内転変形再発

図2 A: 初診時 B: アキレス腱切離及び踝上骨切り後19年 C: 汎距骨関節固定後23年変形残存

腓術と踝上骨切り術を行なった。その後、連絡なく21才で再来し両足の内転内反尖足は著明で汎距骨関節固定術を行なったが矯正不十分なため、44才の現在、変形が残存している(合2)。

症例3 生後4日 女 両内反足

Ⅲ群の症例で、生後4日目よりの3カ月間のギプス矯正にても十分な矯正が得られず、生後4カ月で右足に後内側解離術を行なった。術後、矯正位保持に努力したが再発を来し3才10カ月で右足を後方解離術を伴った Evans 手術にて内転内反尖足を同時に矯正した。6才3カ月の現在も plantigrade foot を示している(図3)。

図3 症例3 A: 初診時 B: Evans 手術後2年半 plantigrade foot を獲得している。

調 査 結 果

(1) 治療内容の変遷: 昭和1年より40年の間は年少児にアキレス腱延長などの小範囲の軟部組織解離を行ない十分な plantigrade foot を獲得することなく、年長になり、三関節固定を要している。昭和40年代初期には年少児に、より広範な軟部組織解離を行なったが、それでも後に変形再発を来し、やはり年長児に広汎な骨手術を要している。最近では、出来るだけ早期からの保存的療法の後に、生後6カ月以内で広汎な軟部組織解離術を行なった後に4才位で、最少

限の骨手術である Evans 手術を追加した症例が多い。

(2) 治療経過から分類した3群の症例数はⅠ群: 9例15足, Ⅱ群: 4例7足, Ⅲ群: 3例5足であった(表1)。

(3) 治療成績: 各群のうち術後2年以上経過した症例で plantigrade foot が獲得された症例数は、Ⅰ群: 8足中1足のみで変形再発が非常に多い。Ⅱ群: 7足中4足で大きな手術侵襲に比して成績は悪い。Ⅲ群: 5足中4足と最も成績が良い(表1)。

表1 治療内容と治療成績

	治療内容による分類	症例数	治療成績
Ⅰ群	軟部組織解離術のみ	9例15足	8足中1足
Ⅱ群	軟部組織解離術十三関節または汎距骨関節固定術	4例7足	7足中4足
Ⅲ群	軟部組織解離術＋Evans 手術	3例5足	5足中4足

考 案

AMC の内反足に関する治療上の問題について検討を行ない当科の治療方針について言及する。

1. 保存的療法 AMC の内反足も特発性先天性内反足と同様に早期からの徒手矯正が必要である事は言を待たない。しかしわれわれの調査結果や諸家の報告からも明かなように、徒手矯正やギプスによる矯正では不十分であり、特に尖足変形は矯正できない。また中断すると直ちに再発を来し治療効果の永続性は望み難い。この原因としては AMC の特性が大きく関与している。即ち本症の足部は広範な弾性に乏しい線維性結合組織や筋・腱・靱帯の強い拘縮のために Chopart 関節や Lisfranc 関節のみならず足関節にも著明な可動制限を有し、足部は非常に硬い変形である。さらに多くの症例に膝関節屈曲制限を有し、かつ足部は小さく踵部に触れにくいために尖足矯正位の保持は困難である。このように保存的療法には限界があり、早期からの観血的療法を考慮しなければならない。

2. 軟部組織解離術 Ⅰ群の後方または後内側解離術などの軟部組織解離術単独例では8足中7足に変形再発を認め著しい再発傾向を示している。中でも尖足変形が最も再発し易い。再発要因としては、①変形が高度で硬く軟部組織解離術のみでは十分に矯正出来

ない事, ②特発性先天性内反足よりも早期に足根骨に強い変化を来している事, ③腱延長を行っても腱に滑動性がなく実質的な腱延長の効果が得られない事, ④下肢軸の回旋異常により見せかけの矯正位をとり易い事などが挙げられる。これらにより術中に十分な矯正位が得られない事が再発の最も重要な因子である。われわれは十分な矯正位を得るために次の事を心掛けています。①変形が二次性に高度に成り骨性変化を生じる以前の生後4カ月位の早期に解離術を行う。②腱延長術では十分な効果は期待し難いので腱切腱術を行う。特に後脛骨筋腱やアキレス腱は切腱の方がより効果的である。Lloyd-Roberts⁶⁾ はアキレス腱の一部切除を勧めている。③内側解離術で内転変形が十分に矯正されない場合は2才位でも適応可能な踵骨頸部外転骨切を考慮する。術後にも色々な問題が残されている。即ち, ①異常な線維性結合組織による非常に硬い手術瘢痕の形成, ②足部周辺の筋力不均衡, ③膝関節屈曲制限による尖足矯正位保持の困難さ等, 術後にも変形再発の要因が存在しているので, 術後は適切な補足具による長期間の矯正位保持が必要である。しかし, 以上の点に注意を払っても軟部組織解離術単独例ではわれわれの成績や Lloyd-Roberts⁶⁾ の報告にも見るとく, 術後, 長期間に亘って徐々に再発を生じて来るので, 更に何らかの骨・関節手術の必要性が考慮される。

3. 広汎な関節固定術 II 群に見られるように幼児期, 軟部組織解離術に留まり再発し年長に成り三関節または汎距骨関節固定術などの広汎な関節固定術を要した症例では術前の変形が非常に高度になっているため, 手技上の困難さを伴い, 術後, 軽度の変形が残存し易い。よって広汎な骨手術を行うにしても変形が高度になる以前の10才位の比較的早期に行うのが望ましい。

4. Evans 手術 われわれは最近では, 第50回中部整災会⁹⁾ で報告したごとく, 本症の下肢の治療を5才位までに完了すべく努力しているので, 内反足においても, 軟質組織解離術後の再発変形を10才まで放置することなく, 骨手術として4才位の比較的早期に適応出来る Evans 手術を後方解離術と共に追加し, 内転内反尖足を同時に矯正し永続性のある plantigrade foot を獲得している (表2)。Evans 手術の利点は, ①三関節固定術に較べて踵立方関節のみの固定のため, 手術侵襲が小さく, 足長への影響も少な

表2 治療体系

いので4才位の年少児にも適応出来る。②後方解離術単独では再発しやすい尖足変形も Evans 手術を同時に行うことにより, 術後, 内転内反変形が十分に矯正されているので体重負荷が矯正力として働き尖足変形の再発を防止する点である。

5. 距骨摘出術 本法は本症の内反足の治療として以前程ではないが最近でも比較的多く用いられている術式である。本法については Menelaus⁷⁾, Denis¹⁾, Young¹²⁾, 亀下⁴⁾, 河野⁵⁾ 等の歩行開始以前の乳幼児に適応した報告があるが, 本法は①大きな手術侵襲, ②特有の内転変形の残存, ③距骨の取り残しによる再発, ④足長および足高の短縮によりさらに小さな足の形成, ⑤足関節の機能性と脛骨・距骨関節における変形性関節症の発生など問題点が多く存在しているのでわれわれは用いていない。

ま と め

1. AMC の内反足においては保存的療法や軟部組織解離術単独では十分な矯正が得られず再発しやすい。また年長児における再発変形の矯正には広汎な関節固定術を要する。

2. AMC の内反足に対しては生直後からのギプス矯正の後, 生後3~4月の早期に後方または後内側解離術を行ない, 術後は装具にて矯正位を保持し, 再発する変形に対しては4才位の年少児に適応出来る手術侵襲の小さい骨手術である Evans 手術により永続的な plantigrade foot を獲得している。

3. 距骨摘出術は手術侵襲が大きく, 術後の問題点も多く, 現在のわれわれの治療体系においてはその必要性を認めていない。

4. AMC の内反足の治療にあたっては, 十分な歩行能力獲得のために股・膝関節を含めた系統的な治療方針に基く治療が必要である。

文 献

- 1) Denis, S. D.: Instructional Course Lec-

- ture. 23: 79-95, 1974.
- 2) Friedlander, H. L.: J. Bone Joint Surg. 50-A: 89-112, 1968.
 - 3) Gibson, O. A.: J. Bone Joint Surg. 52-D: 483-493, 1970.
 - 4) 亀下喜久男: 整形外科. 29: 766-772, 1978.
 - 5) 河野龍之助: 整形外科と災害外科. 23: 324-327, 1974.
 - 6) Lloyd-Roberts, G. C.: J. Bone Joint Surg. 52-B: 494-507, 1970.
 - 7) Menelaus, M. B.: J. Bone Joint Surg. 53-B: 468-473, 1971.
 - 8) 大石年秀: 中部整災誌. 22: 52-55, 1979.
 - 9) Otto, A. W.: Edinburgh Med. J. 58: 565-597, 1951.
 - 10) Williams, P. F.: Orthop. Clin. North Am. 9: 67-87, 1978.
 - 11) Won H. Oh.: Orthop. Clin. North Am. 7: 511-515, 1976.
 - 12) Young, A. B.: The Lancet. 670-671, 1692.

質 問 長崎大 鈴木 良平
距骨摘出を行なった症例はありませんか。

解 答 九州大学整形 大石 年秀
AMC の内反足に対する距骨摘出術の経験はない。

質 問 熊大 天野 敏夫

① 内反足変形だけを来すような Arthrogryposis はあるか。

② Evans 手術で尖足も改善されるのはなぜか。

解 答 九大整形外科 大石 年秀

① われわれは AMC の診断の一つの目安として 2 カ所以上の両側性関節罹患を重視しているので、内反足のみの症例には AMC の診断名を用いていない。

② 4 才位で後方解離術を伴った Evans 手術にて内転内反尖足を同時に矯正している。

解 答 九大病院 野村 茂治

〈当足変形の再燃が EVANS 手術で少いのは〉

内転内反変形の矯正が不十分であれば、内転内反変形の再燃に伴い尖足変形も再燃する。

EVANS 手術で軟部組織のみならず骨切除を加えて内転内反を充分矯正すれば体重負荷も正しく尖足矯正力として働くことと合まって尖足再燃を予防しているものと考ええる。