

先天性斜視症候群の斜頸位に対する
Half Torsional Kestenbaum 手術 (図4, 表5)

大月 洋・岡山 英樹・小西 玄人 (岡山大学医学部眼科学教室)
藤原 由延・長谷部 聡・渡辺 好政

Half Torsional Kestenbaum Operation for Torticollis
Treatment in Cases with Congenital Strabismus Syndrome

Ohtsuki Hiroshi, Okayama Hideki, Konishi Haruhito,
Fujiwara Yosinobu, Hasebe Satoru and Watanabe Yoshimasa
Department of Ophthalmology Okayama University Medical School

要 約

先天性斜視症候群にみられる斜頸位の原因について考察をおこない、half torsional Kestenbaum 手術の治療効果について報告した。上下偏位を代償するための斜頸位とは断定し難い5症例を対象に両眼開放下と同様の頭位を示す固視眼に対して斜頸方向に眼球を視軸のまわりに回転させるように上、下斜筋の角膜側を前後転した結果、1例を除く4症例に斜頸位の改善が得られた。この術式の斜頸矯正効果を調べるために、術前後の斜頸位の角度変化と、術眼の回旋偏位度の変化との関係について検討したところ、両者に有意な相関が認められた。 $r=0.9086$, ($p<0.05$)。一方、術前後の斜頸位の角度変化と、上下偏位の変化との関係については有意な相関は認められなかった。従って、回旋偏位によって生じた視覚変化の情報が前庭中枢へ入力されて、これが姿勢平衡中枢に何らかの影響を与えて頭位に変化が生じるものと推察した。(日眼 92:477—483, 1988)

キーワード：斜頸位, Half torsional Kestenbaum, 先天性斜視症候群, 回旋偏位

Abstract

We have studied the surgical procedure for the treatment of torticollis and its results in five cases with congenital strabismus syndrome. The head was tilted to either side of shoulder even though there was no definite proof that the torticollis compensates vertical ocular deviation. Whenever the same torticollis as that of binocular viewing was found fixating with one eye, that eye, regardless of dominant or non-dominant, was rotated operatively towards the tilted direction with a combination of strengthening and weakening of the anterior portion of both oblique muscles. Therefore, we named this the half-torsional Kestenbaum operation. In all but one case the degree of head tilt was satisfactorily reduced when compared with that of preoperative head tilt. To elucidate the operative mechanism for correction of torticollis, the relationship between the reduction degree of head tilt and surgically induced cyclotorsion, as well as vertical deviation in primary position was evaluated. There was a significant correlation between the surgically induced cyclotorsion and the reduction degree of head tilt. $r=0.9086$ ($p<0.05$) There was no significant correlation between surgically induced vertical deviation and degree of reduction of head tilt. These results suggest that the operatively induced ocular cyclotorsion would cause a straightening motor response by affecting the vestibular equilibrium system without yielding sensory compensatory cyclofusion, through which head tilt could be correct-

別刷請求先：700 岡山市鹿田町2-5-1 岡山大学医学部眼科学教室 大月 洋 (昭和62年10月5日受付)

Reprint requests to: Ohtsuki Hiroshi, M.D. Dept. of Ophthalmol., Okayama Univ. Medical School

2-5-1 Shikata-cho, Okayama 700, Japan

(Accepted October 5, 1987)

ed. (Acta Soc Ophthalmol Jpn 92: 477—483, 1988)

Key words: Head tilt, Half torsional Kestenbaum, Congenital strabismus syndrome, Cyclotorsion

I 緒 言

先天性斜視症候群に出現する頭位異常は、交代性上斜位、潜伏眼振、眼位の動揺、A-V現象などとともに代表的な随伴症状のひとつであり、つぎのような特徴的なパターンがみられる。すなわち頭位は両眼開放下と優位眼固視では概ね等しく、非優位眼で固視する場合には頭位異常は出現しないか、軽度の場合が多い。

この症候群にみられる頭位異常のなかでも頭を側方へ傾斜する斜頸位の原因については意見が分かれ、ひとつは眼位に動揺があり、上下偏位が一定しないので偏位を矯正するための代償頭位とは断定し難いという意見¹⁾と、もうひとつは両眼視が存在する場合に限っては代償頭位、両眼視が欠如する場合は不明とする意見がある²⁾。ただし、潜伏眼振を合併する場合には注視方向によってこれが顕性化することもあるので眼振を抑制するための頭位とする考え方³⁾もあるが、斜頸位では水平、垂直方向を注視する場合と異なり、眼球の視軸まわりの回旋運動が問題となる訳で、この点についてはヒトはこれを自由に制御できないので中枢から末梢の眼筋へ出力される神経インパルスの innervation の状態からこの頭位異常の原因を考察することは無理があるように思われる。

斜頸を伴う先天眼振の例に EMG を用いて頭部傾斜時の眼筋の innervation の状態を調べた報告³⁾によると、正常者にみられるような眼球の反対回旋運動に参与する回旋筋群間には相反神経支配がみられなかったことから前庭系の障害が想定されている。一方、斜頸位をとることによって頸部の抗重力筋の深部受容器を刺激し頸部求心系ニューロンと前庭—動眼反射弓を利用して眼振を抑制するという症例報告もあり⁴⁾、眼振を含めたこの症候群にみられる斜頸の原因は不明というのが実情である。

このような原因のはっきりしない斜頸位の治療について言及することは早計と思われるが、眼筋の手術操作によって頭位が矯正できるかどうかについては大いに興味のあるところであり、これは麻痺性斜視の場合と異なり、眼位を矯正すれば頭位が矯正されるというものではなく何らかの工夫が必要と思われる。これに対して最近、眼振を伴う斜頸位の矯正に新しい手術法

が紹介されている³⁾⁵⁾。この方法は眼振の静止位における眼筋への innervation の状態を変化させることなく視線と頭位の方向を一致させるようにして眼球を回転して頭位を矯正する Kestenbaum の手術法に模して torsional Kestenbaum と呼称されている。ただし、厳密には頭部の側方傾斜視時には耳石の反射が生じて、innervation の状態が変化するので手術矯正のしくみは異なると思われる。手術方法は両眼の上、下斜筋の角膜側の付着部を視軸まわりに耳側、鼻側方向へ移動し、角膜面上の垂直子午線の頂点を斜頸の方向に cycloverision させて斜頸を矯正するのであるが、何故に頭位が矯正されるかの理由については現在のところ確実な解答はないようである。

著者らは従来から代償性頭位以外の頭位異常、とくに先天性斜視症候群では優位眼が頭位の状態を決定する鍵を握っていると考えており、今回は優位眼、非優位眼に関係なく両眼開放時と同様の頭位が観察される固視眼に対してのみこの術式を試み、単眼性の回旋偏位がどの程度に斜頸位の矯正に関係するかを上下偏位のそれと比較し検討し、さらに、この症候群にみられる斜頸位の原因について考察をおこなった。

II 対 象

対象は斜頸を認める先天性斜視症候群の 5 症例。頭位は両眼開放下と単眼視下での視力標を目標にした明視努力時の状態で判定し、Harms の正切スクリーンを利用して頭位を計測した。

Table 1 に術前の 5 症例の検査結果をまとめた。両眼開放下での斜頸位の角度は 15°～25°、そのうち 15°が 2 例、20°が 2 例、25°が 1 例で、両眼開放下と優位眼固視における頭位が一致したのは 5 例中 4 例であった。頭位と眼位の関係についてみると、斜頸位の状態で上転眼が上になるタイプ(症例 1, 2, 3, 4)と、下になるタイプ(症例 5)の 2 型があり、斜頸位の方向と上下偏位の関係は上下偏位が小さくなる方へ斜傾するタイプ(症例 1, 2, 3)と、上下偏位が大きくなる方へ斜傾するタイプ(症例 4, 5)の 2 型に分類された。ただし前者では逆方向に傾斜した場合と比較して上下偏位には著しい差は認められなかった。下斜筋過動例が 2 例、上斜筋過動例が 1 例みられたが、これら上下回

Table 1 Five cases with congenital strabismus syndrome

Case	Age (yrs) Sex	Dominant eye	Head posture			Vertical deviation(pd)			Cyclovertical muscle dysfunction	DVD	Nystagmus	Disorder of central nerve system
			Binocular viewing	Monocular viewing		Primary position	R-Tilt 30'	L-Tilt 30'				
				R-Fix.	L-Fix.							
1 (T.Y.)	17 F	R	R-Tilt 15'	R-Tilt 15'	(-)	L/R 16 (R-Fix.) R/L 5 (L-Fix.)	L/R 14	L/R 16	(-)	(+)	horizontal rotatory	
2 (N.T.)	10 F	L	R-Tilt 20'	R-Tilt 20'	Chin depression 10'	L/R 10 R/L 4	L/R 8	L/R 12	B) Overaction of superior oblique muscle	(+)	horizontal	Epilepsy
3 (N.Y.)	4 F	R	R-Tilt 15'	R-Tilt 15'	Face turn to L.10'	L/R 6 R/L 6	R/L 8	R/L 12	B) Overaction of inferior oblique muscle (R>L)	(+)	horizontal	
4 (M.R.)	8 M	R	L-Tilt 25'	L-Tilt 25'	(-)	R/L 4 R/L 14	R/L 8	R/L 14	(-)	(-)	(-)	
5 (M.Y.)	8 F	R	R-Tilt 20'	R-Tilt 20'	Face turn to L.15'	L/R 6 R/L 10	L/R 6	(-)	B) Overaction of inferior oblique muscle (R>L)	(+)	horizontal	Epilepsy

旋筋の異常の程度からは頭位異常は説明できなかった。交代性上斜位と潜伏眼振は症例4を除く全例に認められたが、眼振の方向は症例1の回旋性以外は全て水平性を示し、眼振の方向、強さからも頭位異常の原因となるような所見は認められなかった。中枢神経系の異常としてepilepsyが症例2と5にみられた。両眼視については全例に頭位異常の状態でも周辺融像は確認できなかった。

III 手術法および手術成績

1. 手術術式

原法と異なり両眼開放下と同じ頭位異常を示す固視眼に対してのみ以下の3種類の術式を用いて角膜の垂直子午線の頂点を斜頸の方向と同じ方向に視軸まわりに回旋させた。術眼は優位眼側が多く、非優位眼は症例2のみであった。術量は斜頸の角度の大きさには関係なく全ての症例にほぼ同じ量度でおこない、可及的に正面位の上下偏位の程度に影響を与えないように回旋をおこなさせるようにした。

1) 術式 1

術眼に著しい斜筋の異常がなく、したがって術後に著しい上下偏位の変化がおこらぬと予想された症例にのみ適用した。

(1) 外回旋 (症例1, 2)

上斜筋付着部の角膜側2/3~1/2の腱組織を強膜から切離し、視軸まわりに滑車方向へ10mm後転、同時に下斜筋付着部の角膜側の筋組織を2/3強膜から切離し

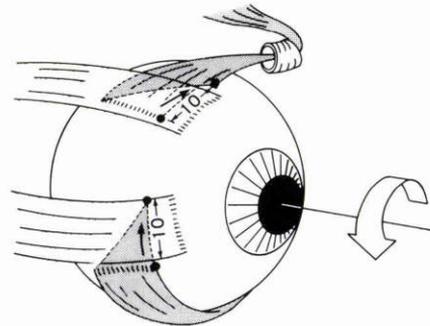


Fig. 1 Excyclotorsion

外直筋の下をくぐらせるようにして10mm上方へ移動した (Fig. 1).

(2) 内回旋 (症例4)

上斜筋付着部の角膜側2/3~1/2の腱組織を強膜から切離し、耳側へ10mm前転、同時に下斜筋付着部の2/3を強膜から切離し下斜筋の走行に沿い下直筋側へ後転した (Fig. 2).

2) 術式 2^{b)}

術眼を回旋偏位させる場合、各々前転した斜筋の上、下転効果で本来の上下偏位が助長される恐れがあるので、とくに下斜筋過動の強い方の固視眼を外回旋する症例に対してはこの術式を用いた。

(1) 外回旋 (症例3, 5)

上斜筋付着部を全て強膜から切離し角膜側10mm、後極側4mmを上斜筋腱の走行に沿い後転、同時に付着

部全体を4mm 後極側へ移動した。下斜筋は付着部から10mm 下方の筋に通した糸を外直筋付着部の下端付近の強膜に通糸し、一方、下直筋付着部の後極端から4mm 下方の筋に通した糸を4mm 前方の強膜へ通糸し、計2カ所で下斜筋を強膜に縫縮するようにして固定した (Fig. 3)。

2. 手術成績

術後平均14.2カ月の手術結果を Table 2 に示す。

1) 斜頸矯正効果 (Table 3)

症例3を除く全ての症例に斜頸の改善がみられた。ただし、残余の斜頸角度は5°~15°で、症例3以外は術前と同様、両眼開放時の頭位と術眼固視時の頭位の一

致が認められた。

2) 術眼の回旋偏位度と斜頸位の角度変化の関係 (Table 4)

眼底写真上から視神経乳頭の上、下端を結ぶ中点と中心窩を結ぶ直線と中心窩を通る水平基準線のなす角度を計測し術眼の回旋偏位を術前後で比較した結果、全例に回旋偏位が確認できた。しかし回旋偏位の角度

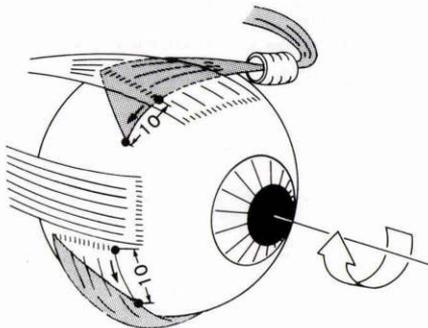


Fig. 2 Incyclotorsion

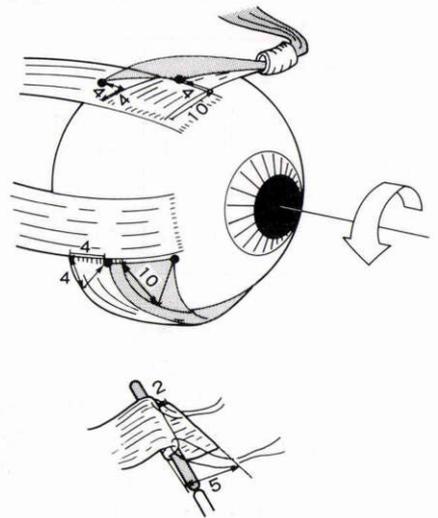


Fig. 3 Sagittal displacement (Excyclotorsion)

Table 2 Five cases with surgically treated congenital strabismus syndrome by half torsional Kestenbaum operation

Case	Dominant eye	Torsional Kestenbaum (objective cyclotorsion)	Head posture			Vertical deviation (pd)			Bagolini's striated glasses test	Follow-up (Months)
			Binocular viewing	Monocular viewing		Primary position	R-Tilt 30'	L-Tilt 30'		
				R-Fix.	L-Fix.					
1 (T.Y.)	R	R-eye (excyclotorsion:5)	R-Tilt 10'	R-Tilt 10'	(-)	L/R 12 (R-Fix.) R/L 3 (L-Fix.)	L/R 10	L/R 14	Fusion (-)	30
2 (N.T.)	L	R (excyclotorsion:8)	R-Tilt 5'	R-Tilt 5'	(-)	L/R 4 R/L 6	R/L 5	R/L 8	(+)	8
3 (N.Y.)	L	R (excyclotorsion:5)	R-Tilt 15'	L-Tilt 5'	R-Tilt 15'	L/R 10 R/L 10	R/L 8	R/L 12	(-)	25
4 (M.R.)	R	R (incyclotorsion:9)	R-Tilt 5'	R-Tilt 5'	R-Tilt 10'	L/R 0 R/L 4	L/R 4	R/L 4	(+)	6
5 (M.Y.)	R	R (excyclotorsion:6)	R-Tilt 5'	R-Tilt 5'	Face turn to R.15'	L/R 5 R/L 14	(-)	L/R 4	(-)	2

Table 3 Correlation of pre-and postsurgical degree of head tilt. In all but one case the degree of head tilt was satisfactorily reduced when compared with that of preoperative head tilt. *: indicates a overcorrected case.

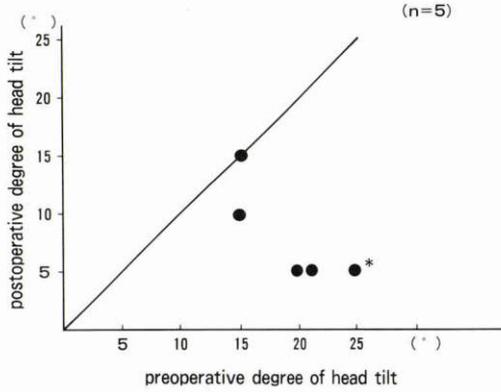
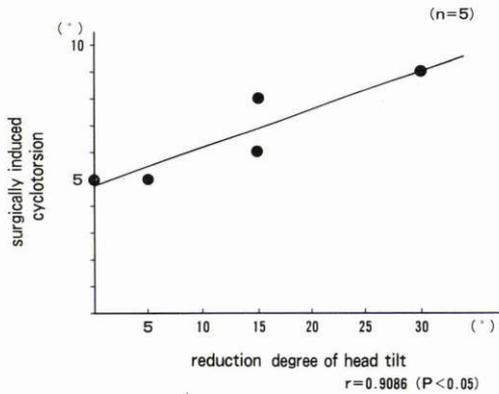


Table 4 Relationship between amount of surgically induced objective cyclotorsion and reduction degree of head tilt. There is a liner correlation between amount surgically induced objective cyclotorsion and reduction degree of head tilt under binocular viewing.

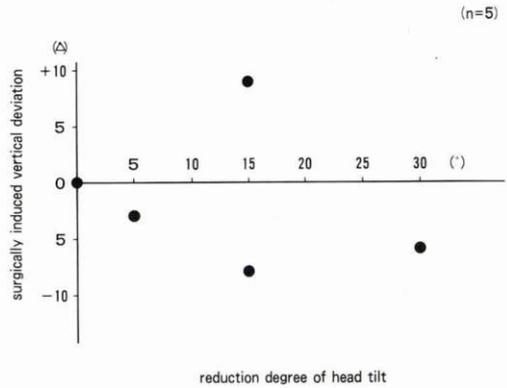


変化についてはばらつきがあり、5°～9°を示した。この術前後の回旋偏位と斜頸位の角度変化の関係について検討した結果、両者には有意な正の相関が認められた。r=0.9086 (p<0.05)。

3) 上下偏位に対する手術の影響 (Table 5)

正面位における左、右眼固視時の上下偏位の差を術前後で比較し、手術の上下偏位に対する影響を調べた結果、術前に比較し増加がみられたのは症例5のみで、他は減少、もしくは不変例であった。手術前後の上下

Table 5 Relationship between amount of surgically induced vertical deviation and reduction degree of head tilt. Ordinate: Plus indicates a increased degree of vertical deviation when compared with that of preoperative deviation, Minus indicates decreased degree of vertical deviation. There is no significant correlation between amount of surgically induced vertical deviation in primary position and reduction degree of head tilt under binocular viewing.



偏位と斜頸の角度変化の関係を検討した結果、両者には有意な相関は認められなかった。

4) 斜頸位の方と上下偏位の関係

術前と同様、上下偏位が小さくなる方へ斜頸位をとる症例(症例1, 2, 3)と、逆に大きくなる方へ斜頸する症例(症例4, 5)の2型があり、前者では斜頸位での上下偏位は逆方向に斜傾した場合のそれと比較しても著しい差は認められなかった。

5) 両眼視に対する影響

症例4と5に周辺融像が獲得されただけで、他の症例では頭位異常の状態でも周辺融像は確認できなかった。

IV 考 按

この症候群に出現する斜頸位が両眼視を得るための代償頭位であるかどうかの点を明確にする必要があるが、対象例の全てに頭位異常の状態でも両眼視が欠如していること、斜頸方向に頭を傾けたときに生じる上下偏位が逆方向に傾斜させた場合のそれよりも大きくなる症例がみとめられたこと、逆に上下偏位が小さくなる方へ斜傾する頭位であっても逆方向へ斜傾した場合の上下偏位と大差がみられなかった症例もあり、これらから判断すると必ずしも斜頸位は上下偏位に対する

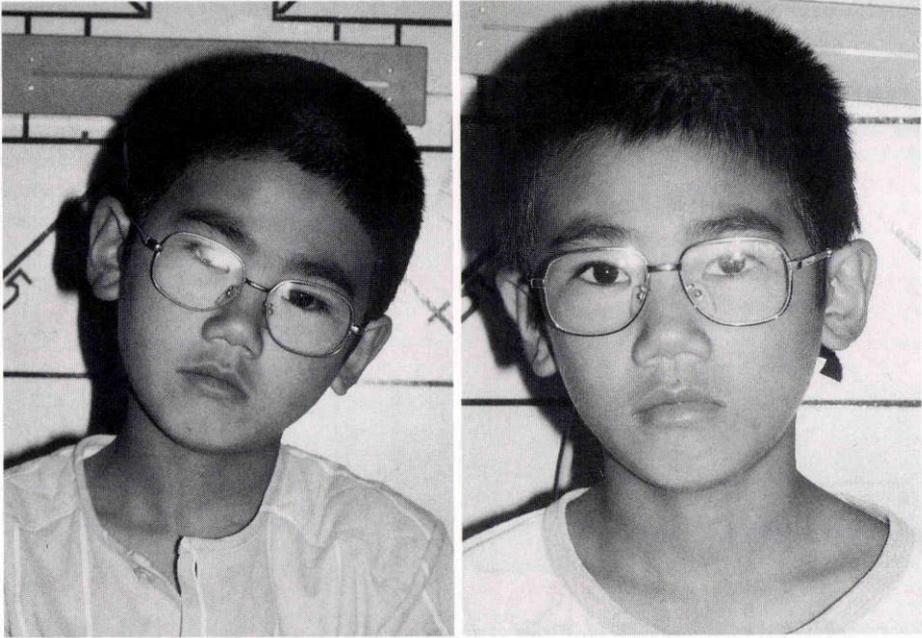


Fig. 4 Pre-and postsurgical torticollis in case 4. Preoperative head posture (left), postsurgical head posture (right).

代償頭位とは断定し難く、むしろ、眼位の異常が生後早期に出現していることを考慮すれば、頭位異常は眼位一頭位(姿勢)の協調障害の結果と理解したいと思われる。つまり頭位は重心動揺とともに静的姿勢平衡の状態がここに集約される重要な表現型と看做することができ、先天性斜視症候群では生得的に眼位に異常があるために両眼から入力される視覚情報に質的、量的な欠陥を生じ、これに対する前庭、体性感覚入力の姿勢制御に関係する入力系の補償機転が正常に作動しない場合に姿勢平衡の調節機能に異常が生じて頭位異常が出現すると推察される。因みに、この症候群では正常者に比較して円滑な頭部運動が遂行されにくく、頭位の動的制御にも問題があることが指摘されている⁷⁾。

同じような考え方としてこのような頭位異常を脳幹レベルにおける眼球運動神経核と回路網を形成する運動系の障害つまり、Kopffehlhaltung とする考え方⁸⁾もある。

優位眼を含めてどちらかの眼で固視する場合の頭位と両眼開放時の頭位が一致する現象は左、右どちらかの眼と頭位を正常に保つ姿勢制御中枢が優位に連絡していると推察され、従ってこの方の固視眼に手術操作をおこなえば頭位に何らかの変化が生じるものと予測

される。ただし視軸まわりの回旋性の眼球運動については自由にこれを制御することができないので、顔を水平方向にまわす頭位異常に対して内転眼を水平方向の眼球偏位の程度に関係なく顔のむき方向と同方向に回転させた場合に頭位が矯正される現象とは同一視できないが、術前後の斜頸角度と回旋偏位の変化の間に有意な相関が認められた結果から、頭位の方向を決定する固視眼に対する回旋偏位は斜頸矯正に大きな影響を与えるものと考えられる。つまり、単眼性に生じた回旋性の偏位が感覚的に、順応されることなく、外界の傾きの変化として自覚され、この視覚変化が前庭中枢へ入力されて⁹⁾これに対する代償反応として姿勢に変化がおこるのであり、具体的には傾斜した像の方向に頭を傾けることによって傾斜像を矯正し斜頸位が矯正されると推察される。ただし、つぎの2点に注意する必要がある。第一点は頭部が固定された状態で傾斜した像が呈示された場合、代償性の回旋性の眼球運動が生じて手術効果が減少する点であるが、これは1°以内のわずかな量にすぎず¹⁰⁾、手術による回旋偏位の量からは問題にはならぬと思われる。第二点は、回旋性の感覚融像で回旋偏位が代償され、頭位に変化がおこらぬことも考えられるが、このような状況は回旋偏位のみで他に著しい眼球偏位がなく、しかも両眼視が良

好な場合であり、対象例のように周辺融像さえも困難な状況では回旋偏位に対する融像反応はおこり難く、単眼性の視覚変化は頭位の変化で代償される可能性の方が大きいと考えられる。

手術による上下偏位に対する変化の程度は斜頸位に対して直接的な矯正効果はないにしても、回旋偏位で生じる頭位変化の量がこの上下偏位で修飾される可能性もあるので、可及的に上下偏位を生じさせないように工夫すべきと思われる。しかし、今回の症例のうち、上下偏位の増加した最大の角度変化は5Δ、逆に減少例の最大のそれは6Δであり、この術式の上下偏位に対する影響は慎重に手術操作をおこなう限りはあまり考慮する必要はないものと思われる。

今回用いた術眼の回旋偏位の測定法には全く問題がない訳ではなく、この方法では厳密には頭の固定ができておらず、また他眼に代償性の回旋性のひき運動がおこらぬことが前提になるので理想的には両眼開放下の回旋偏位を測定し、両眼の相対的な差で術前後の回旋偏位の変化を求めるのがより適切と思われる¹¹⁾。

擱筆にあたり恩師松尾信彦教授の御指導と御校閲に感謝いたします。

視能訓練士、武縄佳世子、文部技官光岡健之両氏の御協力に感謝いたします。

文 献

- 1) 久保田伸枝：交代性上斜位。丸尾敏夫編、眼科 Mook, No. 10, 斜視, 弱視, 東京, 金原出版, 123—130, 1979.
- 2) 山本裕子：頭位異常と両眼視一特に上下斜視について。日本弱視斜視学会雑誌 14: 35—41, 1987.

- 3) Conrad HG: Rotatorische Kestenbaum-Operation-Befunde und Hypothesen. Schielen Band 12: 38—50, 1980.
- 4) 大月 洋, 中山緑子, 渡辺好政: 先天性眼振: 斜頸と眼振抑制について。日眼 89: 1188—1197, 1985.
- 5) Conrad HG, de Decker W: Rotatorischer Kestenbaum-Umlagerungs-chirurgie bei Kopfwangshaltung zur Schulter. Klin Mbl Augenheilk 173: 681—690, 1978.
- 6) Conrad HG, de Decker W: Torsional Kestenbaum procedure of a surgical concept, in Reinecke RD (ed): Strabismus II. Proceedings of the Fourth Meeting of the ISA, Orland, Grune and Stratton, 301—314, 1982.
- 7) 大月 洋, 岡山英樹, 渡辺好政他: 3次元頭位計測システムによる頭部運動解析。眼臨 81: 1141—1147, 1987.
- 8) de Decker W: Heterotropie (manifeste Strabismus), in Kaufmann H (ed): Strabismus, Enke Verlag, Stuttgart, 139—199, 1987.
- 9) Ebenholtz SM, Benzschauel TL: The rod and frame effect and induced head tilt as a function of observation distance. Percept Psychophy 22: 491—496, 1977.
- 10) Goodenough DR, Sigman E, Oltman PK, et al: Eye torsion in response to a tilted visual stimulus. Vision Research 19: 1177—1179, 1979.
- 11) Inatomi A, Takahashi F, Kani K: Fundus Haploscope and the Measurement of Cyclodeviation, in Reinecke RD (ed): Strabismus II. Proceeding of the Fourth Meeting of the ISA, Orland, Grune and Stratton, 733—738, 1982.