

学位授与番号：乙 3242 号

氏 名：西村 礼司

学位の種類：博士（医学）

学位授与日付：平成 31 年 2 月 27 日

学位論文名：

Apert Hand: A follow-up study of 7 patients for 10 or more years.

（アペールハンド：10 年以上の経過観察を行った 7 例）

学位論文審査委員長：教授 安保雅博

学位論文審査委員：教授 鈴木直樹 教授 舟崎裕記

論文要旨

氏名	西村 礼司	指導教授名	宮脇 剛司
<p>主論文 Apert Hand: A follow-up study of 7 patients for 10 or more years. (アペールハンド：10年以上の経過観察を行った7例) Reiji Nishimura, Shintaro Matsuura, Takeshi Miyawaki, Mitsuru Uchida. Jikeikai Medical Journal. 2017; 64: 45-51.</p> <p>要旨</p> <p>【背景・目的】 アペール症候群は頭蓋縫合早期癒合、中顔面低形成、手の重い変形によって特徴づけられる、非常にまれな症候群である。本疾患における手(アペールハンド)には、示・中・環・小指の合指症、橈側偏位し短い母指、指節間癒合症が見られる。これらの変形は患者の日常生活を著しく障害するため、治療が必要である。多くの術式が報告されているものの、症例数や経過観察期間が不足しており手術によってどこまで手機能を改善できるのか明らかになっていない。本研究の目的は、最も基本的な治療である指間分離手術を行った後10年以上経過した患者を評価することで、アペールハンドの適切な治療を選ぶ手がかりを得ることである。</p> <p>【方法】 当科で手術を行ったアペールハンド42例中、指間分離終了後10年以上の経過観察を行い得た7例を対象とした。Upton分類でI型が2例、II型が4例、III型が1例であった。指間分離開始時の平均年齢は12カ月、最終評価時の平均年齢は21歳、平均経過観察期間は19年であった。手指の可動域(ROM)、単純X線、Disabilities of the Arm, Shoulder, and Hand questionnaire(DASH)スコア、日常生活での指の動きを調査した。Upton分類とDASHスコア、DASHスコアとIntelligence Quotient(IQ)、Upton分類とROMの相関を評価した。</p> <p>【結果】 単純X線上で、全ての指節間関節と第4-第5中手骨間が癒合していた。Upton分類とDASHスコアに相関は認めなかった。Upton分類とROMには相関を認め、IQとDASHスコアは逆相関することが示唆された。日常生活動作の大部分を独力で行うことができていたが、母指と他の指の先端が適切に対向しないため細かい物の扱いが困難であった。</p> <p>【結論】 アペールハンドの合指を分離するだけでは細かい物の扱いが難しく、母指の矯正手術によるつまみ動作の獲得が必要である。また、本疾患の上肢機能には変形の重症度のみならず発達障害など他の因子が影響している可能性も示唆された。</p>			

学位論文審査結果の要旨

西村礼司氏の学位申請論文は、主論文 1 編、参考論文 3 編よりなり、主論文のタイトルは『Apert Hand: A follow-up study of 7 patients for 10 or more years』で *Jikeikai Medical Journal*. 2017; 64: 45-51 に発表されている。Thesis のタイトルは、『アペールハンド —10年以上の経過観察を行った7例—』である。

平成 31 年 2 月 8 日に舟崎裕記、鈴木直樹両審査委員出席のもと、公開学位審査を開催し西村氏による研究概要の発表に続いて口頭審査を実施した。口頭発表後、主に下記の質問に対して討論を行った。①アペールハンド 42 例中 7 例になった経緯②1990 年の Upton 分類についての欠点と利点③手術の時期並び評価方法の問題点④手指の可動域と IQ の DASH スコア MP 関節の状況の問題点⑤慈恵の結果から得られた手術法の変遷について⑥今後の更なる発展の為に MRI などの評価の是非についての質問があり、それぞれに対し明快に回答がなされるとともに臨床に基づいた活発な議論がなされた。

口頭審査後に、舟崎、鈴木両教授と慎重に審議し、非常に数少ない貴重な経験の積み重ねから、一般的なアペールハンドの合指を分離するだけの手術では細かい物の扱いが難しく、母指の矯正手術によるつまみ動作の獲得が必要であり、アペールハンドの機能向上のためには母指を示指と対向させてつまみ動作を獲得することが重要と考え、より積極的な母指変形の矯正を始めて、良い結果をだし、新たな手術法を証明した論文で、学位を授与するに十分な価値があると認めた次第である。審査後に論文要旨の一部の文言の修正を指示したがそれについて適切に修正されていた。尚、今後、本疾患の生活機能評価に際しては、術前変形の重症度のみならず多因子を含めた調査と高次元医用画像工学研究所の MRI ならびに動作モデルの構築を行いさらなる慈恵独自の研究を進めることになったことを特筆すべきものであるという審査委員からの意見があった。