

## 症例報告

## 下直筋低形成の2例

牧野 伸二, 保沢こずえ, 近藤 玲子,  
熊谷 知子, 伊藤 華江, 平林 里恵,  
金井 美佳

## 要 約

下直筋低形成の2症例を経験した。

症例1は65歳女性。左眼上斜視の整容的治療を希望して受診した。虹彩コロボーマ, 小角膜を伴っていた。眼位は左眼上斜視50プリズムジオプター (PD) 以上, 左眼の下転制限があった。CTで両眼の下直筋は低形成であったが, 術中, 通常の下直筋は確認できなかった。そのため, 外転神経麻痺に対する西田法を応用して, 左眼の内直筋, 外直筋に, 切腱腱分割をしない筋移動術と上直筋切腱術を施行した。術後, 眼位は改善し, 整容的な満足が得られた。

症例2は17歳男子。左眼上斜視の整容的治療, 複視の改善を希望して受診した。眼位は左眼上斜視25PD, 左眼の下転制限があった。左眼の上直筋後転術を施行し, 術後, 正面眼位は2PDに改善し, 複視も軽快した。下方視での左眼上斜視に対して追加手術を予定したが, 術中, 通常の下直筋は確認できなかった。筋移動術を考慮したが, 正面眼位が良好であることから追加手術は施行せず経過観察中である。

下転制限を伴う上下斜視の中に下直筋欠損があることを念頭におき, 手術に際しては, 術中所見を参考に患眼の上直筋後転, 上直筋切腱, 筋移動術が考慮される。

(キーワード: 下直筋低形成, 上下斜視, 水平筋移動術)

## 1 緒言

斜視の中にはまれに外眼筋の欠損や低形成, 付着部異常などによるものがある。外眼筋欠損については, 上斜筋, 下直筋の欠損の報告は比較的あるが, 上直筋, 内直筋, 外直筋の欠損は極めてまれで, 下斜筋の単独欠損の報告はない。低形成を含めた下直筋欠損の報告は本邦で17例, 国外で20例程度あり, 虹彩コロボーマ, 脈絡膜欠損, 小眼球, 小角膜などの奇形を合併した報告もある<sup>1)-9)</sup>。その多くは斜視手術中に判明したものであるが, 最近では斜視手術前に, magnetic resonance imaging (MRI) や computed tomography (CT) 検査で判明することもある。

下直筋欠損に対する術式には, 上直筋後転術の他に, 外転神経麻痺<sup>10) 11)</sup>に対するHummelsheim法, Jensen法, あるいはdouble elevator palsyに対するKnapp法<sup>12)</sup>を応用した水平筋移動術が選択されることが多い<sup>1) 2) 4) 9)</sup>。2005年Nishidaら<sup>13)</sup>は外転神経麻痺に対して, 切腱, 筋分割を行わない上下直筋移動術(いわゆる西田法)を報告した。下直筋欠損に対して, 西田法を応用して内直筋, 外直筋を切腱, 分割しない筋移動術を施行した報告はない。

今回筆者らは, 下直筋低形成による上下斜視の2例を経験し, 1例に対して西田法を応用した水平筋移動術を施行したので報告する。

## II 症例

**症例1**：65歳 女性

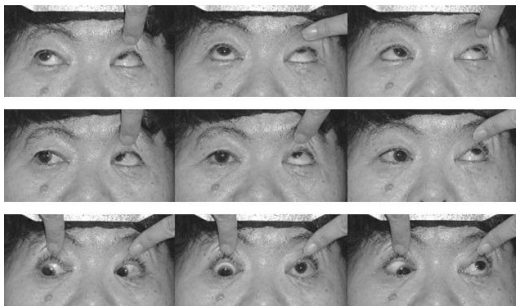
**主訴**：左眼上斜視の整容的治療

**既往歴**：特記すべきことなし

**家族歴**：特記すべきことなし

**現病歴**：小児期から左眼視力は不良で、眼位異常（左眼上斜）を指摘されていた。60歳頃から眼位ずれがさらに気になり、整容的な改善を希望して2008年9月3日、自治医科大学附属病院眼科弱視斜視外来を紹介受診した。

**検査所見**：視力は右=0.5 (1.2×+2.0D)，左=10cm 指数弁 (n.c.) であった。左眼は小角膜（横径9mm），虹彩コロポーマ，白内障があり，眼底は透見できなかった。右眼に異常はなかった。眼位は近見で左眼内上斜30°以上，50プリズムジオプター（PD）以上で定量不能，大型弱視鏡による検査は左眼の上転のため測定不能であった。左眼の眼球運動は内下転，下転，外下転が著明に制限されていた。9方向眼位写真は図1に示すとおりである。

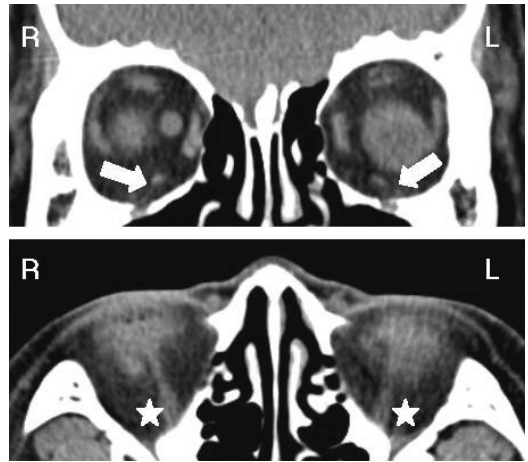


**図1 症例1 術前9方向眼位写真**

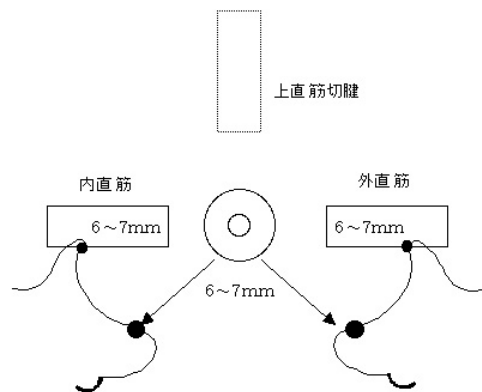
左眼の上斜視，下転制限が顕著である。左眼の小角膜もわかる。

**経過**：左眼の下直筋欠損もしくは低形成による上下斜視を疑い，CT検査を行った。両眼とも下直筋の走行は確認できたが，筋幅は極めて細かった（図2）。2008年10月9日に局所麻酔下に左眼の手術（上下直筋の前後転を計画）を行なった。手術は上直筋を露出し，附着部に6-0吸収糸を通糸し，切腱。その後，下直筋を短縮予定であったが，通常の下直筋附着部の強膜上には極めて薄い組織があったものの，筋組織は確認できなかった。そのため，結膜切開を

広げ，内直筋，外直筋を露出し，それぞれの附着部から6～7mmの位置で筋幅の1/3を目安に5-0非吸収糸（ポリエステル糸）を通糸，1-1で結紮し，内直筋に通糸した糸は鼻下側（7時半の位置），外直筋に通糸した糸は耳下側（10時半の位置）の角膜輪部から6～7mmの強膜に縫着した（図3）。内直筋，外直筋も菲薄化が著



**図2 症例1 CT（上：冠状断，下：軸位断）**  
両眼とも下直筋の走行は確認できる（星印）が，筋幅は極めて細い（矢印）。



**図3 手術模式図**

内直筋，外直筋の附着部から6～7mmの筋幅に5-0非吸収糸を通糸，それぞれ鼻下側，耳下側の角膜輪部から6～7mmの強膜に縫着，上直筋は切腱した。

明であった。上直筋の最大後転を考えたが、拘縮がかなり強く、切離することとした。術後、「左眼角膜が見えるようになった」と整容的な満足が得られた。眼位は角膜反射で左眼上斜50PD、術前に測定不能であった大型弱視鏡による検査でも左眼上斜約30°、左眼の下転制限も術前に比べ改善した(図4)。

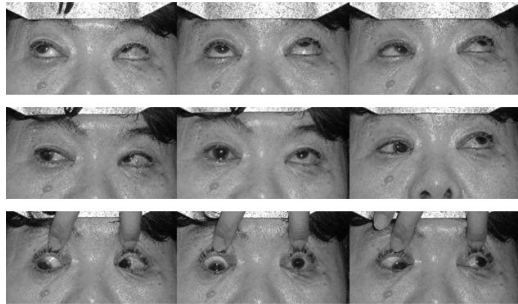


図4 症例1 術後9方向眼位写真  
術後、眼位は整容的に改善し、術前に比べ左眼の下転も可能になっている。

**症例2**：17歳 男子

**主訴**：上下斜視、複視

**既往歴**：特記すべきことなし

**家族歴**：特記すべきことなし

**現病歴**：小学校低学年の頃から、眼位異常(左眼上斜)を指摘されていた。中学生になって、眼位ずれがさらに気になり、眼精疲労、複視も自覚するようになり、整容的な改善を希望して2009年3月11日、自治医科大学附属病院眼科弱視斜視外来を紹介受診した。

**検査所見**：視力は右=1.2 (n.c.)、左=1.2 (n.c.)であった。前眼部、中間透光体、眼底に異常はなかった。眼位は近見で左眼外上斜15°以上、遠見で左外上斜、大型弱視鏡による検査では正面で-8°左眼上斜16°であった。交代プリズムカバーテストでは近見で20PDの外斜偏位と22PDの左眼上方偏位、遠見で16PDの外斜偏位と23PDの左眼上方偏位であった。眼球運動は左眼の下転、外下転が著明に制限されていた。9方向眼位写真は図5に示すとおりである。

**経過**：左眼の下直筋欠損による上下斜視を疑い、CT検査を行った。左眼の下直筋は右眼と

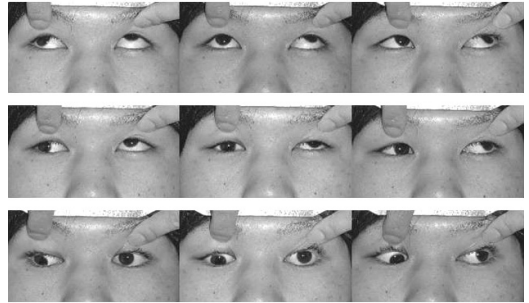


図5 症例2 術前9方向眼位写真  
左眼の上斜視、下転制限が著明である。

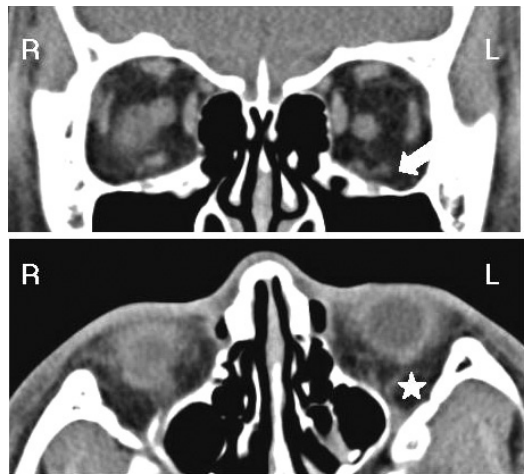


図6 症例2 CT(上：冠状断、下：軸位断)  
左眼の下直筋は右眼と比べ、筋幅は極めて細く(矢印)、走行も明瞭でない(星印)。

比べ、筋幅は極めて細く、走行も明瞭でなかった(図6)。2009年4月30日に局所麻酔下に左眼の上直筋後転6mmを施行した。術後眼位は軽快し、大型弱視鏡による検査では正面で-4°左眼上斜7°であった。交代プリズムカバーテストでは近見で10PDの外斜偏位と8PDの左眼上方偏位、遠見で6PDの外斜偏位と2PDの左眼上方偏位になった(図7)。複視はほぼ消失し、正面眼位の満足は得られたが、下方視での上下ずれ(大型弱視鏡で右下方視-5°左眼上斜11°、左下方視で-3°左眼上斜15°)と下眼瞼後退が整容的に気になり、追加手術を検討することになった。下眼瞼挙上も期待して、2009年12月17日に下直筋短縮を計画したが、通常の



下直筋付着部の強膜上には極めて薄い組織があったものの、筋組織は確認できなかった。術中、症例1に施行した西田法による水平筋移動術も考慮したが、正面での眼位ずれは大きくないこと、水平筋移動術の定量性が少ないことなどを本人、家族に説明して、追加手術は施行せず、経過観察中である。

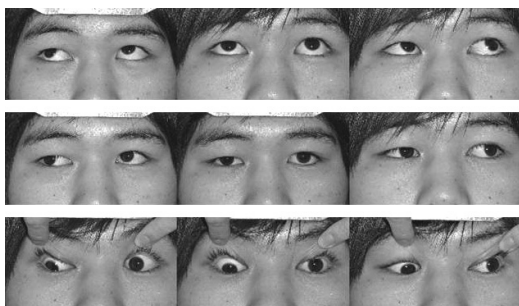


図7 症例2 術後9方向眼位写真  
術後、眼位は改善している。

### III 考按

渡邊ら<sup>1)</sup>、Matsuoら<sup>2)</sup>が本邦における下直筋欠損の報告16例をまとめたものに、さらに検索し得た1例<sup>3)</sup>と今回経験した2例を加えてみると、初診年齢は7か月～73歳、性別は男性6例、女性9例、記載なし4例、欠損眼は右眼8例、左眼7例、両眼3例、記載なし1例であった。症例1にみられた小角膜、虹彩コロボーマなどの奇形を伴ったものが6例であった。また、手術中に判明したものが10例であった。60歳以上の症例は渡邊ら<sup>1)</sup>、Matsuoら<sup>2)</sup>の73歳の症例以外になかったが、今回経験した症例1は65歳で、生後より左眼上斜視があったもののそのまま放置され、時間とともに上直筋の拘縮が進み、上斜視が顕著になり整容的改善を目的に受診したものと考えられた。さらに症例1では、虹彩コロボーマが合併していたが、虹彩コロボーマは胎生第5週から第7週に閉鎖を完了する眼杯裂の閉鎖不全が原因とされており、この時期には外眼筋が動眼神経支配筋原基、外直筋原基、上斜筋原基から発生し、次第に各筋原基に分化していく時期<sup>3)</sup>とほぼ合致し、両者の関連が示唆された。

診断には症例1のように合併奇形のある場合

は下直筋欠損も推測されるが、上斜視の中で下転制限のある症例には稀ではあるが下直筋欠損を疑って、牽引試験や画像検査も必要となる。ただし、これまでの画像所見に関しての報告も下直筋の形態については完全に欠損しているもの<sup>1)-3) 5)-8)</sup>、低形成のもの<sup>9)</sup>、accessory muscleの存在<sup>14)</sup>などが報告されており、画像所見のみで確定することも困難であるかもしれない。静止画像のみならず、動的画像など、より慎重かつ詳細な検討が必要であると考えている。今回経験した2症例の画像所見では、完全な欠損ではなく、低形成であった。しかし、実際の手術所見としては通常の下直筋付着部の強膜上には極めて薄い組織があったものの、筋組織は確認できなかった。また、症例1では内直筋、外直筋の菲薄化がみられ、Linら<sup>7)</sup>の報告にあるように、下直筋のみならず、水平筋の異常にも留意する必要がある。

下直筋欠損に対する術式<sup>1) 2) 4)-9)</sup>には、上直筋後転術、上直筋切腱術の他に、外転神経麻痺<sup>10) 11)</sup>に対するHummelshiem法(上直筋、下直筋の耳側半分をそれぞれ外直筋付着部に移動するもの)、Jensen法(外直筋と上下直筋を分割して外直筋部へ移動する方法)、あるいはdouble elevator palsy<sup>12)</sup>に対するKnapp法(上下直筋全筋を外直筋部へ移動する方法)を応用した水平筋移動術が選択されることが多い。筋移動術や複数筋の手術で問題となる前眼部虚血は前毛様動脈の血流障害によって生じる合併症であるが、これを回避する目的でNishidaら<sup>13)</sup>は外転神経麻痺に対して、切腱、筋分割を行わない上下直筋移動術(西田法)を報告した。下直筋欠損に対して、西田法を応用して内直筋、外直筋を切腱、分割しない筋移動術を施行した報告はない。下直筋欠損の複数例で手術効果を検討したものは高橋ら<sup>4)</sup>の報告以外になく、Hummelshiem法の応用で早期 $19.7 \pm 5.5^\circ$ 、3年で $22.5 \pm 9.2^\circ$ 、Knapp法の応用で早期 $18.0 \pm 6.2^\circ$ 、3年で $20.7 \pm 4.5^\circ$ と報告している。ただし、double elevator palsyに対するKnapp法では長期的に効果が強まることも報告されている<sup>12)</sup>。今回経験した2症例から、手術に際しては、術中の下直筋付着部の状況、上直筋の拘縮の程度、水平筋の異常<sup>7)</sup>を確認して、上直

筋後転でよいか, 上直筋の切腱が必要か, その前に筋移動術をするか, 筋移動術の選択肢として, Hummelsheim 法, Knapp 法を選択するか, 上直筋欠損に対して modified Jensen 法を施行した報告<sup>15)</sup> や西田法のようなより低侵襲の術式を考えた方がよいかなど, 過去の報告を参考にした対処が必要である。症例 1 では上直筋を切腱しており, 水平筋を切腱して Hummelsheim 法や Knapp 法を行なうと前眼部虚血の危険性もあったため, 外転神経麻痺の症例<sup>16)</sup> に施行した西田法を選択した。症例 2 のように上直筋後転で対応できる上下偏位については, 上直筋後転, あるいは水平筋移動術の後に定量性のある上直筋後転で対応することも考えられる。

#### IV 結語

下直筋低形成による上下斜視の 2 例を経験した。1 例は虹彩コロボーマ, 小眼球を伴っていた。画像所見上, 下直筋は確認されたが, 術中には強膜上に極めて薄い組織があったものの, 筋組織は確認できなかった。1 例は西田法を, 1 例は上直筋後転を施行し, 眼位の改善が得られた。下転制限を伴う上下斜視の中に下直筋欠損があることを念頭におき, 手術に際しては, 術中所見を参考に患眼の上直筋後転, 上直筋切腱, 筋移動術が考慮される。

#### 文 献

- 1) 渡邊智子, 松尾俊彦, 古瀬 尚, 他: 下直筋欠損の 1 例. 臨眼 62:1309-1314, 2008.
- 2) Matsuo T, Watanabe T, Furuse T, et al: Case report and literature review of inferior rectus muscle aplasia in 16 Japanese patients. *Strabismus* 11:66-74, 2009.
- 3) 園田 靖, 後藤 浩, 関 明, 他: 片眼の先天性下直筋欠損を認めた上斜視の 1 例. 眼科 32:439-443, 1990.
- 4) 高橋麻穂, 関口和行, 坂上達志, 他: 下直筋欠損の手術. 眼臨 97:275-278, 2003.
- 5) Muñoz M: Congenital absence of the inferior rectus muscle. *Am J Ophthalmol* 121:327-329, 1996.
- 6) Taylor RH, Kraft SP: Aplasia of the inferior

rectus muscle. A case report and review of the literature. *Ophthalmology* 104:415-418, 1997.

- 7) Lin P, Yen M: Congenital absence of bilateral inferior rectus muscles: a case report. *J Pediatr Ophthalmol Strabismus* 34:382-384, 1997.
- 8) Astle WF, Hill VE, Ells AL, et al: Congenital absence of the inferior rectus muscle. Diagnosis and management. *J AAPOS* 7:339-344, 2003.
- 9) Pimenides D, Young S, Minty I, et al: Familial aplasia of the inferior rectus muscles. *J Pediatr Ophthalmol Strabismus* 42:222-227, 2005.
- 10) Lee DA, Dyer JA, O'Brien PC, et al: Surgical treatment of lateral rectus muscle paralysis. *Am J Ophthalmol* 97: 511-518, 1984.
- 11) 丸尾敏夫: 麻痺性斜視の治療. 日眼会誌 98: 1161-1179, 1994.
- 12) 牧野伸二, 木野内理恵子, 保沢こずえ, 他: Double elevator palsy における Knapp 法の手術成績と上直筋の画像所見. 眼臨 100: 659-663, 2006.
- 13) Nishida Y, Hayashi O, Oda S, et al: A simple muscle transposition procedure for abducens palsy without tenotomy and splitting muscles. *Jpn J Ophthalmol* 49: 179-180, 2005.
- 14) Özkan SB, Dayair YO, Balci YG, et al: Hypoplastic inferior rectus muscle in association with accessory extraocular muscle and globe retraction. *J AAPOS* 11:488-490, 2007.
- 15) Mather TR, Saunders RA: Congenital absence of the superior rectus muscle: a case report. *J Pediatr Ophthalmol Strabismus* 24:291-295, 1987.
- 16) 牧野伸二, 保沢こずえ, 近藤玲子, 他: 切腱, 筋分割を行わない上下直筋移動術を施行した外転神経麻痺の 2 例. 自治医大紀要 32: 97-101, 2009.

## Two cases of hypoplasia of the inferior rectus muscle

Shinji Makino, Kozue Hozawa, Reiko Kondo,  
Tomoko Kumagai, Hanae Ito, Rie Hirabayashi,  
Mika Kanai

### Abstract

Two patients with hypoplasia of the inferior rectus muscle are reported.

Patient 1: A 65-year-old woman had left hypertropia. The left eye had a microcornea, iris coloboma, and completely restricted downward movement. Computed tomography showed a hypoplastic left inferior rectus muscle. During surgery, it was confirmed that the left inferior rectus muscle was absent. The patient underwent a muscle transposition procedure without tenotomy and splitting muscles, as described by Nishida. A superior rectus muscle tenotomy was also performed. Postoperatively, the left hypertropia decreased in the primary position. Patient 2: A 17-year-old boy had left hypertropia. His vertical deviation was 25 prism diopters (PD) in the primary position. The left eye had completely restricted downward movement. The left superior rectus muscle was recessed by 6 mm. Postoperatively, the vertical deviation decreased to 2 PD in the primary position. During additional surgery, it was confirmed that the left inferior rectus muscle was absent. Surgeons should keep in mind the possibility of hypoplasia of the inferior rectus muscle when downward gaze is limited and alter the surgical plan as necessary based on the intraoperative findings. We consider that a muscle transposition procedure without tenotomy and tendon-splitting is a surgical option for this unusual abnormality.

(Key words: Horizontal muscle transposition procedure, hypoplasia of the inferior rectus muscle, vertical strabismus)