

症例報告

# Painful os sustentaculiの1例

八神俊明, 相原敏則<sup>1)</sup>, 本多正徳

済生会宇都宮病院 放射線科, 自治医科大学とちぎ子ども医療センター 小児画像診断部<sup>1)</sup>

## A case of painful os sustentaculi

Toshiaki Yagami, Toshinori Aihara<sup>1)</sup>, Masanori Honda

Department of Radiology, Saiseikai Utsunomiya Hospital

Department of Pediatric Medical Imaging, Jichi Children's Medical Center Tochigi<sup>1)</sup>

**Abstract** The os sustentaculi is a rare supernumerary bone (accessory bone and sesamoids) which is located on the medial side of the talocalcaneal joint, posterior to the sustentaculum tali<sup>1)</sup>. Many supernumerary bones are known in the foot. Among them, os tibiale externum and os trigonum are relatively frequently encountered on plain radiographs. Os sustentaculi, however, is rarely found<sup>2,3)</sup>. This small bone has two characteristics different from the others. First, it is much more frequently symptomatic<sup>2)</sup>. Second, routine radiographic study fails to detect it. So a physician might easily overlook this bone as a cause of ankle pain. Multidetector-row CT (MDCT) provides easy recognition of this small bone. Knowing the os sustentaculi as a cause of ankle pain, the diagnosis of "painful os sustentaculi" would be easily made. Therefore we presented a pediatric case of painful os sustentaculi clearly demonstrated on MDCT. Embryological considerations will be briefly discussed as well to explain the relationship among three similar conditions, that is, os sustentaculi, talocalcaneal coalition, and assimilated os sustentaculi.

**Keywords** Painful os sustentaculi, Sustentaculum tali, Subtalar coalition, Assimilated os sustentaculi, Multidetector-row CT(MDCT)

### はじめに

多検出器型CT (Multidetector-row CT. 以下, MDCT)にて診断し得たPainful os sustentaculiの小児例を経験したので報告する.

Os sustentaculiは距踵関節内側に存在する過剰骨(注)で, 載距突起の後面に付着している(Fig.1白矢頭). 適切な訳語がなく, 邦文文献でもOs sustentaculiと表記されている. 足部の過剰骨のうち,

注) Supernumerary bone 過剰骨:

鶴田らの文献<sup>2)</sup>では, 足の主たる構成骨である跗節骨, 中足骨, 足根骨以外の骨を一括して「過剰骨」と表記し, それぞれについて詳細な報告がなされている. 著者らが文献検索したOs sustentaculiにかかる内外の文献は6篇<sup>2,8-12)</sup>であるが, これらのうち, この文献以降に発行されたものは4篇で, ほとんど全てに引用されている. それゆえ, 著者らもこの文献を引用する形で, 過剰骨(Supernumerary bone)を用いることとした.

原稿受付日: 2010年6月18日, 最終受付日: 2010年9月9日

別刷請求先: 〒321-0974 宇都宮市竹林町911-1 済生会宇都宮病院 放射線科 八神俊明

外脛骨 Os tibiale externum や三角骨 Os trigonum などは比較的頻度が高く、足、あるいは足関節の単純X線写真にてしばしば目にする。しかし、Os sustentaculi の頻度はこれらに比べると低い<sup>2,3)</sup>。加えて、他の過剰骨に比べて有症状(痛み)であることが多い<sup>2)</sup>、「足関節正面・側面」、「足部正面・斜位」などの足部のルーチン撮影では認識しがたい<sup>2)</sup>などの特徴がある。有症状ゆえ日常臨床の場で遭遇する可能性があり、診断に難渋しうる。しかし、MDCTの普及に伴い、多断面再構成画像(multiplanar reconstruction, 以下MPR)を作成することが容易になった現在、Os sustentaculi の存在と病

的意義を知っていれば、「載距突起後面に付着する過剰骨」を画像上明らかにすることは難しいことではない。我々はPainful os sustentaculi の小児例を経験し、MDCTにて特徴的な所見を描出して診断につなげることができた。画像診断医にこの過剰骨の存在と病的意義を広く周知する目的で、その画像を提示し報告する。あわせて、Os sustentaculi の成り立ちを発生学的に考察し、Subtalar coalition, Assimilated os sustentaculi との関連について述べる。

## 症 例

患者：10歳男児

主訴：左足関節内側部の痛み

画像所見：足関節単純X線写真正面像・側面像(Fig.2a, b)では、明らかな異常は指摘し得ない。MDCT MPR画像にて、載距突起と距骨に嘴状の骨性隆起を認め、その間に小さな過剰骨を認めた。(Fig.3a, b白矢頭)。2つの断面、すなわち冠状断と矢状断のいずれにおいても距骨・踵骨とは連続していないことがわかる。

## 考 察

足部には主たる構成骨である趾節骨、中足骨、足根骨以外にも数多くの小骨が存在する。比較的よく知られており、単純X線写真を撮影すれば必

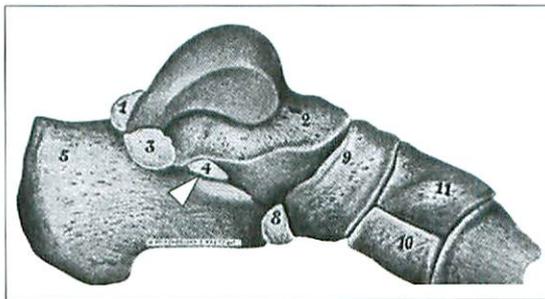


Fig.1 Os sustentaculum (white arrowhead)  
Reprinted from the textbook (Kopsch FR : Die Knochen des Fußes. Rauber-Kopsch Anatomie des Menschen [19ed], Georg Thieme Verlag Stuttgart, 1955, p234.)<sup>1)</sup>



Fig.2 Radiographs of the left ankle ; AP (a) and lateral (b) projections  
Prior to X-ray exposure, a radiopaque marker (X) was put on the skin just over the pain. In spite of the marker, it is difficult to point out any abnormality around it.

ず目にするのは種子骨である。種子骨以外にも、種々の小骨があって、教科書にも掲載されている<sup>4-6)</sup>。鶴田らはこれらを一括して過剰骨と呼称している<sup>2)</sup>。著者らもそれに倣うことにする(注)。

Os sustentaculiは載距突起後部と距骨との間に位置する小さな過剰骨である(Fig.1 白矢頭)。Pfitznerにより1896年に初めて報告された<sup>3)</sup>。その報告は425例の解剖足を対象とし、0.47%の頻度で存在したとしている。この過剰骨は足部に現れるもののなかでも稀である。1981年の鶴田らの報告によれば、足部に現れる過剰骨のうち0.3%を占めるに過ぎなかったという<sup>2)</sup>。2003年に報告されたMelladoらの総説では11種の過剰骨が紹介されている。そのうちOs sustentaculiはOs vesalianumについて少ない<sup>7)</sup>。

足部の過剰骨自体は、単純X線写真で偶然に指摘されることが多く、その多くは無症状である。しかし、稀に症状を呈することがあり、なかでもOs sustentaculiは、有症状となる頻度が高いことが、前述の鶴田らの報告に記載されている<sup>2)</sup>。その場合、Painful os sustentaculiと呼ばれる。そのCT画像が2002年にMelladoらにより初めて報告されている<sup>8)</sup>。この報告によれば、症状は局所の痛みで、繰り返す外傷や、慢性刺激が原因ではないかと考察されている。本症例においても、足部

内側の、載距突起後方に限局した痛みを訴えており、原因となっていることが明らかだった。

我々の症例(Fig.2, 3)も、Melladoらによって報告された症例も、そのCT画像において異常の存在は一目瞭然である。にもかかわらずMDCTやMRI画像を紹介しているものはわずかである。我々が文献検索し得た論文は2篇<sup>8,9)</sup>で、2症例が紹介されていたに過ぎない。

報告例がわずかである理由は、以下のような三つの要因が挙げられる。1. 頻度が低いこと、2. 容易に見逃され得ること、3. 重症度が低いことである。

1. 「低頻度のものほど症例報告につながる」こともありうるが、それを凌駕するほどに頻度が低ければ、報告が少ないことは腑に落ちる。一般的に、「過剰骨は偶然発見されるもので、有症状例は稀」という記述は成書にも見られる。しかし特筆すべきは、鶴田らの論文に記載されている以下の一節である。

「Os sustentaculiに関しては、有症状の確率が高い。」このことは本報告において強調しておきたい点でもある。著者らは、頻度よりも、以下に述べる要素を注意すべきと考えている。

2. 見逃しについては、骨関節疾患の画像診断の一般的な進め方が関与する。足関節痛を訴えて患



a | b

Fig.3

a: Coronal multiplanar reconstruction (MPR) of the left ankle (1 mm slice thickness) demonstrates a small skeletal component (white arrowhead) between the bony beaks from both calcaneus and talus (white arrows).

b: Parasagittal MPR of the left ankle through the os sustentaculi (1 mm slice thickness) demonstrates a supernumerary bony particle (white arrowhead) apart from both calcaneus and talus.

者が医療機関を訪れた場合、最初に行われる画像診断法は、局所すなわち足関節の単純X線写真であろう。その内容は正面像と側面像の2方向撮影となるはずである。しかし、Os sustentaculiは足関節単純X線写真2方向撮影では診断することは難しい<sup>2)</sup>。我々の症例でも、足関節側面像(Fig.2)では距骨下関節周囲に異常を指摘することは困難であった。

3. 重症度は、確かに低いと思われる。本症例も安静で軽快している。日常生活に支障をきたすことが少なく、「self limiting」つまり自制内の経過をとるのではなからうか。診断に至らず、外来経過観察をした場合、再診につながらなければさらなる画像検査は行われない。

著者が勤務する済生会宇都宮病院では、2009年の1年間で739例について足関節の単純X線写真が撮影されている。「0.3%」との鶴田らの報告を援用すれば、1年間に2件のOs sustentaculiが指摘されるはずである。そのうちどれだけの頻度で有症状、つまりPainful os sustentaculiとなるのかは採用できるデータがないため、わからない。しかし、前述した2.の繰り返しにもなるが、以下の点に留意すべきである。

鶴田らは、単純X線写真において、同骨を診断するために斜位撮影の必要性を指摘し、正面・側面の標準的な2方向撮影では診断は難しいことを

述べている<sup>2)</sup>。Os sustentaculiを念頭におかず、局部のスクリーニング検査として単純X線写真が依頼される日常臨床の場合は、それを診断することが極めて難しいことは容易に理解できる。

鑑別診断には、Subtalar coalition(距踵間癒合症)に伴う骨折と偽関節形成、Assimilated os sustentaculi(適切な邦語訳なし)が挙げられる。

本症例では、独立した過剰骨、すなわちOs sustentaculiと診断したが、距踵間癒合症に骨折が起き、偽関節を形成した結果生じた「骨片」と考えることも可能である。しかしこれらの疾患を厳密に定義した報告は見あたらない。その点は以下のように考える。

胎生期、距骨と踵骨載距突起との間の軟骨性架橋が存在していることが知られている<sup>13)</sup>。発生の過程でこの軟骨性架橋は吸収され距踵関節が形成されるが、その吸収が不完全であった場合にOs sustentaculiが生じると考える。

この発生学的な観点から上記疾患を一連のスペクトラムとして捉えることができる。胎生期、軟骨性の距骨と踵骨がその内側で架橋により連結していることがわかっている<sup>13,14)</sup>。距骨・踵骨双方との連結部が吸収され、それらから孤立して骨化したものがOs sustentaculi、双方との連結部分が吸収されずに骨化したものがSubtalar coalition(距踵間癒合症)、一方だけが吸収され骨化したもの

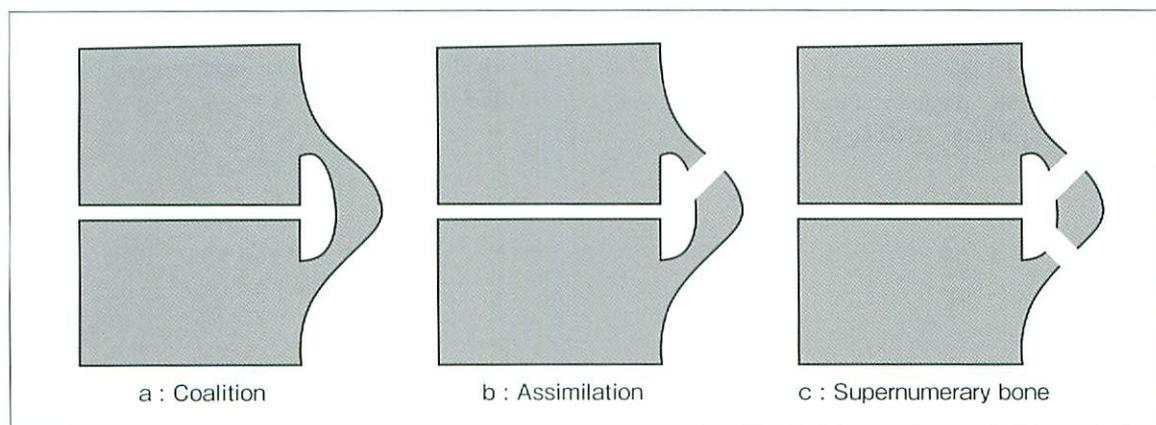


Fig.4 Schematic drawings explaining relationship among talocalcaneal coalition, assimilated os sustentaculi and os sustentaculi on the basis of the fate of the medial talocalcaneal bridge. Complete failure of absorption results in talocalcaneal coalition (a). Partial absorption occurred at the talar side results in assimilated os sustentaculi (b). If absorption occurred at both talar and calcaneal sides and a portion between them ossified, os sustentaculi (c) results.

がAssimilated os sustentaculiと考えるのである。Fig.4にシェーマを示す。

本症例の距骨および踵骨から嘴状に突出する部分は、胎生期の軟骨性架橋の残存であり、小さな過剰骨すなわちOs sustentaculiとともに物理的な慢性刺激が加わって症状を呈したと考える。

本症、すなわちPainful os sustentaculiはその存在を知った上でCT検査を行えば診断は容易である。世界で最もCTが普及している我が国において、CT画像の報告がないのは奇異なことである。その原因は「Painful os sustentaculiという疾患の存在を知らない」ということに尽きる。

## 結 語

Painful os sustentaculiと考えられる小児症例を報告した。稀な病態ではあるが、知ってさえいればその特徴的な画像所見から、CT検査の追加により迅速な診断が可能と考えられる。

## ●文献

- 1) Kopsch FR : Spezielle Knochenlehre, Rauber-Kopsch lehrbuch und Atlas der Anatomie des menchen Band I (19ed). Stuttgart, Georg thieme verlag 1955, p121-255.
- 2) 鶴田登代志, 塩川靖夫, 加藤 明, 他 : 足部過剰骨のX線学的研究. 日本整形外科学会雑誌 1981 ; 55 : 357-370.
- 3) Pfitzner W : Beiträge zur Kenntnis des menschlichen Extremitätenskeletts. VII. Die Variationen im Aufbau des. Fuss-Skeletts. Schwalbes Morphol Arb 1896 ; 6 : 245.
- 4) Sarrafian SK : Anatomy of the foot and ankle, 2nd edn. Philadelphia, Lippincott, 1993, p93-101.
- 5) Keats TE, Anderson MW : Atlas of normal roentgen variants that may simulate disease, 8th ed. Philadelphia, Mosby, 2007, p838-854.
- 6) Schmidt H, Freyschmidt J : Koeler/Zimmer Borderlands of normal and early pathologic findings in skeletal radiography, 4th ed. New York, Thieme, 1993, p1773-1864.
- 7) Mellado JM, Ramos A, Salvadó E : Accessory ossicles and sesamoid bones of the ankle and foot : imaging findings, clinical significance and differential diagnosis. Eur Radiol 2003 ; 13 Suppl 4 : L164-177.
- 8) Mellado JM, Salvadó E, Camins A, et al : Painful os sustentaculi : imaging findings of another symptomatic skeletal variant. Skeletal Radiol 2002 ; 31 : 53-56.
- 9) Bencardino J, Rosenberg ZS, Beltran J, et al : Os sustentaculi : depiction on MR images. Skeletal Radiol 1997 ; 26 : 505-506.
- 10) Bloom RA, Libson E, Lax E, et al : The assimilated os sustentaculi. Skeletal Radiol 1986 ; 15 : 455-457.
- 11) Kraft H : Assimilated accessory skeletal element of the foot (Os sustentaculi) as cause for frequently recurring disorders. Arch Orthop Unfallchir 1958 ; 49 : 652-654.
- 12) London RI, March HC : Os sustentaculi : Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med 1956 ; 76 : 1114-1118.
- 13) Kawashima T, Uthhoff HK : Prenatal development around the sustentaculum tali and its relation to talocalcaneal coalitions. J Pediat Ortho 1990 ; 10 : 238-243.
- 14) Harris R : Retrospect-peroneal spastic flat foot (rigid valgus foot). J Bone Joint Surg Am 1965 ; 47 : 1657-1567.