

Triphalangeal Thumb(삼지골 무지) - 1례 보고 -

전주 예수병원 정형외과

최경수 · 이영식 · 정의섭 · 공영규

= Abstract =

Triphalangeal Thumb - Case Report -

Kyung Soo Choi, M.D., Young Sik Lee, M.D., Eu Sub Choung, M.D. and Young Kyu Gong, M.D.

Department of Orthopedic Surgery, Presbyterian Medical Center, Chon Ju, Korea

Triphalangeal thumb is characterized by interposition of an extraphalanx between the two normal phalanges of the thumb. The extra-phalanx varies from a small triangular bone to a normal phalanx in what appears to be a thumbless five fingered hand. Triphalangeal thumbs are divided into three types and the treatment differs from associated anomalies and clinical features.

We had a bilateral triphalangeal thumbs treated by closed wedge osteotomy to the extra-phalanx.

Key Words: Triphalangeal thumb, Treatment.

서 론

Triphalangeal thumb(삼지골 무지)은 무지(撫指)의 정상적인 두 지골 사이에 외지(外指: extraphalanx)가 존재하는 것으로 외지의 크기는 작은 삼각골에서 정상 지골까지로 다양하다. 그것은 세가지 형으로 분류되며, 동반기형과 기형의 종류에 따라 치료 방법도 달라진다.

본 예수병원 정형외과에서는 4세 여아의 Triphalangeal thumb 1례를 치험하였기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

증 례

환 자: 최○연, 여자, 4 1/12세

주 소: 무지 원위지골 척추만곡, 양측

가쪽력: 특이사항 없음.

병 력: 출생후 3개월부터 양측 무지의 지관절에서 척추만곡이 발견되어 1주 간격으로 네 차례의 석고교정을 시도하였으나 변형이 교정되지 않았다.

이학적 소견: 외관상 발육은 중등도였으며, 영양 상태는 양호하고, 전신상태도 좋은 편이었다. 양쪽 무지는 지관절에서 30도 척추만으로 만족되어 있었으며, 그 길이는 인지의 근위지관절에 닿아 정상소견

이었다. 제 1 Web space의 구축은 없었으며 pinching, grasping과 opposition은 정상이었다. 또한 양측 손의 발달상태는 동일하였다.

방사선 소견: 생후 3개월의 방사선 사진에서는 외지가 보이지 않으나, 4 1/12세의 방사선 사진에서는 양측 무지에서 원위지골 크기의 외지가 정상지골 사이에 존재하고 있으며, 외지기저부의 경사때문에 지관절에 만곡증이 있음을 알 수 있다(Fig. 1, 2). 원위지골과 근위지골의 성장판은 정상적이었다.

치료와 추시결과: 양측 무지의 지관절을 중심으로 외측 종절개하여 외지의 관절면 바로 하부에서 폐쇄식 설상 절골술(Closed wedge osteotomy)을 실시하였으며, K-wire를 무지 끝에서부터 근위지골의 기저부까지 삽입하여 고정하였다(Fig. 3).

그리고 골막을 봉합후 피부봉합하였다. 수술후 무지전체를 포함한 단상지 석고고정하였으며, 술후 6주에 K-wire를 제거하고 물리치료를 시작하였다. 수술후 12개월의 방사선 사진에서 우측 무지의 만곡증은 소실하였으나, 좌측 무지에는 약 5도의 만곡증이 남아 있음을 볼 수 있다(Fig. 4). 양측 무지의 기능은 수술전과 같이 모두 정상으로 회복되었다(Fig. 5, 6, 7, 8, 9).

고 찰

삼지골 무지는 1826년 DuBois¹²⁾가 처음으로 보

Fig. 1. Initial both thumb AP view showing triphalangism with trapezoidal extra-phalanx and ulnarward deviation.

Fig. 2. Initial photograph of both thumb showing ulnarward deviation and good development of thenar muscles.

Fig. 3. Postoperative both thumb AP view showing closed wedge osteotomy to the extra-phalanx and good alignment after K-wire fixation.

Fig. 4. Postoperative 1 year both thumb AP view showing good alignment on right thumb. On left thumb, there remains 5 degree ulnarward deviation and bony spicule.

Fig. 5. Postoperative 1 year photograph of both hand showing abduction of both thumb and no contracture of first web space.

Fig. 6. Postoperative 1 year photograph of both hand showing full adduction of both thumb.

Fig. 7. Postoperative 1 year photograph of both hand showing good extension of the both thumb.

Fig. 8. Postoperative 1 year photograph of both hand showing full flexion of interphalgeal joint of thumb and good development of thenar muscles.

Fig. 9. Postoperative 1 year photograph of both hands showing good opposition of the both thumb.

고한 이래 방사선 촬영이 가능해지면서 많은 학자들이 보고하고 있다^{2, 13, 19, 20, 22, 27, 28}.

발생원인은 불확실하나 우성유전으로 생각하고 있다^{3, 15, 17, 42}. 때로는 임신중의 Thalidomide 복용 후 유증으로 발생한다고도 한다²⁹. 남녀 비율은 같고, 대부분(87%)은 양측성이다¹⁸.

동반 질환으로서 Polydactyly of thumb and big toe^{17, 21, 24-26}, Cleft feet^{30, 36}, Heart defect³⁰, Fanconi's pancytopenia syndrome¹, Blackfan-Diamond anemia^{11, 33}, Hypoplastic anemia³⁶, Trisomy 13~15³⁸, Juberg-Hayward syndrome²³, Imperforated anus⁴⁴, Defects of tibia^{37, 39}, Cleft palate¹⁰ 등이 있다. 본 환자의 가족력에는 특별한 소견이 없었고, 상기의 동반질환도 발견할 수 없었다.

Wood⁴⁶는 외지의 형태에 따라서 다음 세가지로 구별하였는데, 제 1 형은 이상형의 외지를 갖고 있는 무지로서 대부분 척측으로 만곡되며, 이상형 외지는 삼각형, 사다리꼴 또는 직사각형이다(Fig. 10). 만곡되는 이유는 삼각형 외지의 불균등 성장과 정상 지골성장판에 의한 비정상적인 압력때문이라고 하였다^{32, 46}. 제 2 형은 정상보다 길어서 무지끝이 제 2 수지의 근위지관절 이하까지 닿으며, 절반 이상

에서 제 1 web space의 구축을 보인다⁴⁶. 제 3 형에서는 5개 수지가 같은 단면상에 위치하며, 무지가 뚜렷히 구분되지 않는다. 삼지골 무지의 50% 이상이 제 3 형에 해당되며⁴⁶, 제 3 형에 속하는 대부분의 환자에서 수장근(thenar muscle)이 없었다^{9, 14, 24, 30}.

Hilgenfelt¹⁹는 무지의 기능에 따라 opposable 한 경우와 nonopposable 한 경우로 구별했으며, opposable 한 경우에는 외지가 매우 작거나 정상크기이며, 대부분 척측으로 만곡되고, nonopposable 한 경우는 지골의 크기는 같으나 수장근이 없거나, 형성부전이기 때문에 기능장애가 초래된다고 보고하였다.

본 환자에서는 외지의 크기는 정상보다 작고 사다리꼴이며 척측으로 만곡되어 있었으나, 수장근은 정상적인 형태와 기능을 보유하고 있었으며, 원위 두 지골사이에 관절은 형성되지 않았다. 치료방법에 있어서 수부의 특별한 기능장애가 없는 한 치료할 필요가 없다고 한다^{6, 7}.

Milch²²는 만곡의 치료시 부목을 사용하면 성장판의 불균형 때문에 각 형성이 초래된다고 하였다. 수술적 치료방법에는 여러 가지가 있으나, Green¹⁰은 ① 동반기형 특히 만곡지나 다지증, ② 제 1 web space의 구축, ③ 이상형외지, ④ 손가락이 모두 같은 면에 위치하는 five fingered hand, ⑤ 수장근 결손의 순서대로 치료하라고 하였다.

수술적 치료는 무지가 3~5세에 급속히 성장하고, 수술하기에 적당한 크기로 무지가 성장해야하므로 6 세 전에 시행하는 것이 좋다³¹. Green¹⁰은 무지의 기능을 빨리 숙달시키기 위하여 학동기전, 5 세 경에 수술하는 것이 좋다고 하였다.

다지증이나 만곡지 같은 동반기형이 있을 경우에는 삼지골 무지를 제거하는 것이 좋으나, 무지는 그 안정성이 중요하므로 삼지골 무지가 안정형태로 정렬되어 있으면 이지골 무지를 제거하는 것이 좋다¹⁴.

제 1 web space의 구축이 심하지 않을 때는 4-flap Z-plasty하고⁴⁶, 심할 경우에는 large dorsal rotational flap을 실시하여 치료한다^{41, 43}.

이상형 외지가 있을 경우 이를 제거하여 각형성과 무지의 길이를 조절하는 방법이 있는데^{9, 10, 32, 34}, 이는 1 세 전에 시행하여야 하고^{9, 14, 24, 34, 36}, 8 주 가량 강선고정해야 안정성을 유지할 수 있다.

Barsky^{3, 4}, Converse⁸, Buck-Gramcko³, Hertz¹⁰ 등은 five fingered hand 때 제 1 중수골을 후전, 외전, 회내시켜 무지를 재건하였다.

수장근이 결손되어 있을 경우 Scharizer⁴⁰는 첫째, Flexor capri ulnaris와 Palmaris longus를 이용한 opponensplasty, 둘째, Flexor digitorum su-

perforialis를 이용한 방법이 있다고 하였으나, 첫째 방법은 이들의 근력이 필요이상 세고, 행정이 짧기 때문에 둘째 방법을 이용하는 것이 더 좋은 결과를 얻을 수 있다고 보고하는 학자도 있다⁸⁾.

본 환자의 경우는 양쪽 무지가 opposable하고 또한 제 1 web space의 구축이나, 수장근 결손은 없었으며 다만 이상형 외지에 의한 만곡증을 주소로 하고 있다. 따라서 본 저자들은 만곡증의 원인이 되는 사다리꼴의 이상형 외지의 기저부에 폐쇄식 설상 절골술을 시행하여 정렬시켰으며, 무지의 끝에서 부터 근위지골 기저부까지 K-강선 고정하였다.

결 론

삼지골 무지는 외지의 형태에 따라 세가지로 구별할 수 있으며, 여러 가지 수술적 치료방법이 있다.

전주 예수병원 정형외과에서는 opposable 한 type I 삼지골 무지 1례를 폐쇄식 설상 절골술(closed wedge osteotomy)로 치료하여 만족할만한 결과를 얻었기에 문헌고찰과 함께 보고하는 바이다.

REFERENCES

- 1) Aase, J.M. and Smith, D.W.: *Congenital anemia and triphalangeal thumbs. J. Pediatr.*, 74:471-474, 1969.
- 2) Abramowitz, I.: *Triphalangeal thumb-a case report and evaluation of its importance in the morphology and function of the thumb. S.Afr. Med. J.*, 41:104-106, 1967.
- 3) Barsky, A.J.: *Congenital anomalies of the thumb. Clin. Orthop.*, 15:96-110, 1959.
- 4) Barsky, A.J.: *Congenital Anomalies of the Hand and Their Surgical Treatment. Springfield, Charles C Thomas Co.*, 1958.
- 5) Buck-Gramcko, D.: *Pollicization of the index finger. J. Bone Joint Surg.*, 53A:1605-1617, 1971.
- 6) Bunnell, S.: *Surgery of the Hand. p. 641, 3rd ed. London, J. B. Lippincott Co.*, 1944.
- 7) Campbell, W.D.: *Campbell's Operative Orthopedics. 2nd Ed. London, Henry Kimpton*, 1949.
- 8) Converse, J.M.: *Plastic and Reconstructive Surgery. p. 1720. Philadelphia, W.B. Saunders Co.*, 1964.
- 9) Cotta, H. and Jager, M.: *Die familiäre triphalangie des daumens und ihre operative behandlung. Arch. Orthop. Unfallchir.*, 58:282-290, 1965.
- 10) Cotta, H. and Jager, M.: *Die operative behandlung der angeborenen daumenfehlbildung einschlie ß lich de daumenaplasie. Arch. Orthop. Unfallchir.*, 62:339-358, 1977.
- 11) Diamond, L.R., Allen, D.M. and Magill, F.B.: *Congenital (erythroid) hypoplastic anemia: A 25-year study, Am. J. Dis. Child.*, 102:403, 1961.
- 12) DuBois: *Arch. Gen. Med.*, 11:148, 1826.
- 13) Dubreuil-Chambardel, L.: *Un case hyperphalangie du pouce. Gaz de Centre, Tours*, 15: 25-29, 1910.
- 14) Flatt, A.: *The Care of Congenital Hand Anomalies. pp. 109-117. St. Louis, C.V. Mosby Co.*, 1977.
- 15) Gates, R.R.: *Human Genetics, p. 413. 1st ed. New York, Macmillan*, 1946.
- 16) Green David P.: *Operative Hand Surgery 1st Ed. pp. 383-390 New York Churchill Livingstone Co.*, 1982.
- 17) Haas, S.L.: *Three-phalangeal thumb. Z. Orthop.*, 80:294-298, 1951.
- 18) Hertz, V.R. and Littler, J.W.: *Adduction, pronation. and recession of the second metacarpal in thumb agenesis. J. Hand Surg.*, 2:113, 1977.
- 19) Hilgenfelt, O.: *Operativer daumenersatz and beseitigung von grierfstorungen bie fingerverlusten. Stuttgart, Enke*, 1950.
- 20) Hilgereiner, H.: *Ueber hyperphalangie des daumens. Beitr. Klin. Chir.*, 54:585-629, 1907.
- 21) Jaeger, M. and Refior, H.J.: *The congenital triangular deformity of the tubular bones of the hand and foot. Clin. Orthop.*, 81:139-150, 1971.
- 22) Joachimsthal, G.: *Ueber brachydaktylie und hyperphalangie. Virchows Archiv.* 151:429, 1898.
- 23) Juberg, R.C. and Hayward, J.R.: *A new familial syndrome of oral, cranial, and digital anomalies. J. Pediat.*, 74:755-762, 1969.
- 24) Kirmission, E.: *Pouces a trois phalanges. Rev.*

Orthop. 10:249-253, 1909.

- 25) Komai, T., Ozaki, Y. and Inokuma, W.: *A Japanese kindred of hyperphalangism of thumbs and duplication of thumbs and big toes.* *Folia Hered. Pathol.*, 2:307-312, 1953.
- 26) Krisjansen, A.: *Supernumerary phalanx in the thumbs, "Hyperphalangeal Pollicis."* *Hospitals-tid*, 69:109-119, 1926.
- 27) Lapidus, P.W. and Guidotti, F.P.: *Triphalangeal bifid thumb.* *Arch. Surg.*, 49:228-234, 1944.
- 28) Lapidus, P.W., Guidotti, F.P. and Coletti, C. J.: *Triphalangeal thumb-report of six cases.* *Surg. Gynecol. Obstet.*, 77:178-186, 1943.
- 29) Lenz, W., Theopold, W. and Thomas, J.: *Thiphalangie des daumens als folge von thalidomidomidschadgung.* *Munch. Med. Wschr.*, hr., 106:2033, 1964.
- 30) Lewis, T. and Embleton, D.: *Split-hand and splitfoot deformities, their types, origins and transmission.* *Briometrika*, 6:25-58, 1908.
- 31) Lovell and Winter: *Pediatric Orthopedics 2nd Ed. pp. 683-685 Philadelphia, J.B. Lippincott Co.*, 1986.
- 32) Milch, H.: *Triphalangeal thumb.* *J. Bone Joint Surg.*, 33A:692-697, 1951.
- 33) Minag, H. and Steinbach, H.L.: *Roentgen appearance of anomalies associated with hypoplastic of childhood.* *Am. J. Roentgenol. Radium Ther. Nucl. Med.*, 97:100, 1966.
- 34) Miura, T.: *Triphalangeal thumb.* *Plast. Reconstr. Surg.*, 58:587-594, 1976.
- 35) Murphy, S. and Lubin, B.: *Triphalangeal thumbs and congenital erythroidhypoplasia: Report of a case with unusual features.* *J. Pediatr.*, 81:987-989, 1972.
- 36) Phillips, R.S.: *Congenital split foot(lobster claw) and triphalangeal thumb.* *J. Bone Joint Surg.*, 53B:247-257, 1971.
- 37) Polinelli, U.: *A case of familial hyperphalangia of the thumbs.* *Minerva Nefrol.*, 12:373-375, 1962.
- 38) Poznarski, A.K., Gall, J.C., Jr. and Stern, A. M.: *Skeletal manifestations of the Holt-Oram Syndrome.* *Radiology*, 94,45-54, 1970.
- 39) Salzer, M.: *Über den kongenitales tibiadefekt.* *Zbl., Chir.*, 85:673-681, 1960.
- 40) Scharizer-Mannheim, E.: *On the Surgical treatment of 3-joint thumb.* *Langenbecks Arch. Chir.*, 309:47-51, 1965.
- 41) Strauch, B. and Spinner, M.: *Congenital anomaly of the thumb: Absent intrinsic and flexor pollicis longus.* *J. Bone Joint Surg.*, 58 A:115-118, 1976.
- 42) Swanson, A.B. and Brown, K.S.: *Hereditary triphalangeal thumb.* *J. Hered.*, 53:259-265, 1962.
- 43) Tajima, T., Watanabe, Y. and Uchiyama, J.: *Treatment and study of the hypoplastic thumb.* *Jpn. J. Plast Reconstr. Surg.*, 10:227-234, 1967.
- 44) Townes, P.L. and Brocks, E.R.: *Hereditary syndrome of imperforate anus with hand, foot, and ear anomalies.* *J. Pediatr.*, 81:321-326, 1972.
- 45) Woolf, R.M. and Broadbent, T.R.: *The four-flap Z-plasty.* *Plast. Reconste. Surg.*, 49:48-51, 1972.
- 46) Wood, V.E.: *Treatment of the triphalangeal thumb.* *Clin. Orthop.*, 120:188-200, 1976.