

全身麻酔下に徒手整復した環軸関節回旋位固定の2例

静岡県立こども病院整形外科

増田和浩・芳賀信彦・滝川一晴

要旨 発症後長期間が経過している環軸関節回旋位固定 (atlanto-axial rotatory fixation, 以下 AARF) の2例に対して全身麻酔(以下全麻)下に徒手整復を行い、その後の固定により良好な結果が得られたので報告する。症例1: 5歳, 男児, 誘因なく頸部右側屈, 左回旋位で固定状態となった。発症後4週から持続介達牽引を行ったが改善しなかった。発症後12週で全麻下に徒手整復を行い、その後ミネルパ型ギプスで4週間, 頸椎カラーで2週間の固定を行った。症例2: 6歳, 女児, 頸部リンパ節炎発症後2週で頸部右側屈, 左回旋位で固定状態となり、発症後4週からグリソン牽引を行ったが改善しなかった。発症後10週で全麻下に徒手整復を行い、その後ハローベスト固定を8週間, フィラデルフィアカラー固定を4週間行った。上記の2症例は、いずれも Fielding 分類ではII型に相当した。

はじめに

環軸関節回旋位固定 (atlanto-axial rotatory fixation, 以下 AARF) は、環軸関節が回旋位で固定され、いわゆる cock-robin position を呈する、小児に多い疾患である。Fielding²⁾らは AARF を4つの型に分類している。環椎の前方転位のないI型は、自然治癒あるいは発症後早期の牽引治療により治癒し再発は少ない。しかし、環椎の前方転位のあるII型やIII型では特に発症後の経過期間が長いと牽引療法が無効であることが多いが、こういった症例に対する治療方法は未だ確立されていない。我々は介達牽引で症状改善が得られず、全身麻酔(以下全麻)下徒手整復を行った Fielding II型の陳旧性 AARF 2例を報告する。

症 例

症 例 1: 5歳, 男児

主 訴: 斜頸位, 頸部可動域制限

現病歴: 1985年, 5歳4か月時に誘因なく頸部右側屈, 左回旋で固定状態となった。発症後1か月時に前医にて持続介達牽引を2週間施行したが改善せず, 発症後3か月で当科を受診, 入院となった。

現 症: 頸部は右側屈 20~30°, 左回旋 30~40° でほぼ固定され, 自発痛はないが他動的な伸展および右回旋にて疼痛が出現した。神経学的異常所見はなかった。

画像所見: 断層 X 線正面像では、環椎外側塊と軸椎歯突起間の位置関係が非対称であった(図 1-a)。単純 X 線側面像で環椎歯突起間距離は 3.0 mm であった(図 1-b)。CT では右側の環椎外側塊が前方転位しており、Fielding II型であった(図 1-c)。

入院後経過: グリソン牽引を1週間行ったが効果はなかった。発症後12週の時点で全麻下に約 30° の左側屈のみを加えたところ、クリックとともに整復され可動域制限が消失した。整復後の単純

Key words: atlanto-axial rotatory fixation (環軸関節回旋位固定), manipulation under anesthesia (全麻下徒手整復), conservative treatment (保存的治療), torticollis (斜頸)

連絡先: 〒420-8660 静岡県静岡市漆山 860 静岡県立こども病院整形外科 芳賀信彦 電話(054)247-6251

受付日: 平成 15 年 8 月 26 日

a|b|c

図 1.

症例 1: 整復前

a: 断層 X 線正面

b: 単純 X 線側面

c: 単純 CT



図 2. 症例 1: 整復後正面 X 線像



a|b

図 3. 症例 2: 整復前

a: 単純 X 線側面, b: 3 次元 CT

X 線で環椎外側塊と歯突起の関係は左右対称となった(■ 2)。ミネルバ型ギプスで 4 週間固定した後、頸椎カラーを装着した。カラー固定とした 2 週後に斜頸位が再発したが X 線では明らかな転位がなく放置した。以後徐々に斜頸位は軽快、1 年後には消失した。全麻下徒手整復後 2 年まで経過観察し、再発はなかった。

症 例 2: 6 歳, 女児

主 訴: 斜頸位, 頸部可動域制限

現病歴: 2001 年, 6 歳 5 か月時に頸部リンパ節炎発症後 2 週で右側屈, 左回旋位で固定状態となった。発症後 1 か月時に前医にてグリソン牽引を試みたが、恐怖感から臥位がとれず発症後 2 か月で当科を受診, 入院となった。

現 症: 頸部は右側屈 30°, 左回旋 10°で固定され、疼痛が強く他動的にほとんど動かせない。神経学的異常所見はなかった。

画像所見: 単純 X 線側面像で環椎は軸椎に対して 5°前屈し, 環椎歯突起間距離は 5.0 mm であった(■ 3-a)。3 次元 CT では歯突起は左に偏位し, 環椎は軸椎に対して 10°左回旋位にあり(図 3-b), Fielding II 型であった。

入院後経過: 意識下の牽引が不可能なため、発症後 10 週の時点で全麻下に徒手整復を行った。整



図 4. 症例 2: 整復後 3 次元 CT

復操作は X 線透視下で行い、頸椎の屈曲に関しては術前機能撮影で得られた自動運動での最大屈曲位の 2/3 の角度までとするように心掛けた。明らかな整復感はなく中間位をとれた。整復後、単純 X 線で環椎の前屈は 0°に改善し、3 次元 CT では歯突起の位置は中央に位置し、環椎の軸椎に対する回旋は消失した(図 4)。整復位が得られたため、8 週間のハローベスト固定を行い、その後フィラデルフィアカラーを 4 週間装着した。カラー除去後 2 年まで経過観察し、再発はなかった。

表 1. 牽引以上の治療を行った症例で、Fielding 分類、経過の記載の十分なものに対する治療法、固定法および固定期間

| 文献 | 患者年齢 (歳) | 性 | Fielding 分類 | 発症後経過期間 | 治療法 | 固定期間と固定法 | 結果 |
|------------|----------|---|-------------|---------|--------------------------|-----------------------------------------|----|
| Johnson | 11 | M | I 型 | 0 日 | 介達牽引 1 週 | ポリネックカラ 6 週 | |
| 塩川ら | 5 | F | I 型 | 2 日 | 全麻下徒手整復 | ポリネックカラ 4 週 | |
| 塩川ら | 7 | F | I 型 | 4 日 | 全麻下徒手整復 | ポリネックカラ 4 週 | |
| Johnson | 12 | M | I 型 | 1 週 | 介達牽引 1 週 | ポリネックカラ 6 週 | |
| 小林ら | 10 | F | I 型* | 1 か月 | ① 直達牽引 2 週 ● 直達牽引 3 週 | ポリネックカラ ポリネックカラ + 介達牽引 6 週 | 再発 |
| 小林ら | 12 | M | I 型* | 1.5 か月 | ① 直達牽引 2 週 ● 介達牽引 3 週 | ギプス固定 3 週 ポリネックカラ 6 週 | 再発 |
| 坂本ら | 9 | F | I 型 | 3 か月 | 介達牽引 3 週 → 直達牽引 2 週 | ① フィラデルフィア装具 4 日 ② ハロ ベスト 12 週 | 再発 |
| 山口ら | 9 | M | I 型* | 14 週 | 介達牽引 → 全麻下徒手整復 | ハロ ベスト 8 週 + ポリネックカラ 8 週 | |
| Scapinelli | 9 | F | I 型 | 3.5 か月 | 全麻下徒手整復 | ミネルバ型ギプス 2 か月 | |
| 星野ら | 8 | F | I 型 | 9 か月 | 介達牽引 3 週 → 全麻下徒手整復 | 介達牽引 3 週 → ギプス固定 3 週 | |
| 片山ら | 7 | F | II 型 | 5 日 | 全麻下徒手整復 | 3 日後に勝手に坐位をとり ● 介達牽引 5 週 + 頰椎カラ 3 週 | 再発 |
| 片山ら | 6 | F | II 型 | 5 週 | 介達牽引 6 週 | | 再発 |
| 山口ら | 7 | F | II 型* | 8 週 | 介達牽引 1 週 → 全麻下徒手整復 | 直達牽引 2 週 + ハロ ベスト 5 週 + ポリ ネックカラ 8 週 | |
| 坂本ら | 6 | F | II 型 | 3 か月 | 直達牽引 3 週 | フィラデルフィア装具数日 | 再発 |
| 小林ら | 7 | F | II 型* | 6 か月 | 介達牽引 3 週 → 全麻下徒手整復 | ポリネックカラ 6 週 | |
| 小林ら | 6 | F | III 型* | 1 か月 | 直達牽引 3 週 | ポリネックカラ 3 週 | |
| 小林ら | 9 | F | II 型* | 3 か月 | 介達牽引 6 週 | ポリネックカラ 6 週 | |
| 小林ら | 10 | F | III 型* | 3 か月 | ● 直達牽引 3 週 ● 観血固定 | ギプス固定 6 週 | 再発 |

*ADI を参考に決定

注：牽引以上とは介達・直達牽引、全麻下徒手整復、観血固定を指す

考 察

AARF の多くは発症初期の頰椎カラなどで簡単な固定や介達牽引で治癒するが、これらに反応しなかったり、一度整復された後に再発する症例、あるいは発症後期間が経過して受診する症例がある。

このような発症時より治療開始までの時間が経過した症例の治療法として、直達牽引、全麻下徒手整復、後方固定手術が行われているが、後方固定術は可動域を減少させる治療法でもあり、前二者が無効であった場合に適応となる。全麻下徒手整復には、①十分な矯正力が加えられる、②臥床期間が短い、という利点があり、数例^{3)6) 7)12)13)15)}の報告がある一方で、Fielding²⁾、Lebwohl⁹⁾や Phillips¹⁰⁾は脊髄損傷や椎骨動脈への影響の危険を伴

うために行うべきでないとしている。直達牽引にはこういった危険を生じる可能性が少ないという利点があるが、Burkus¹⁾は直達牽引でも急に整復された場合には麻痺の危険があると述べ、覚醒下の愛護的な徒手整復を行っている。また直達牽引には臥床期間が長くなるという欠点があり、小児に多い本疾患では問題となる。

我々は脊髄損傷の予防のため、整復できない場合は無理をしないという条件で全麻下に徒手整復を行っている。症例 1 では屈曲を加えずに整復操作を行い、当時は小児に適合するハローベストが入手できなかったためギプス固定を行った。最近経験した症例 2 では、術前の頰椎機能撮影を参考に、操作中の頰椎屈曲範囲に制限を加え、脊髄損傷のリスクを回避できると考えた。この範囲で整復位が得られない場合は、ハローリングの装着に

とどめ、術後直達牽引を行う予定であった。今後
もこの方針で治療を行う予定であるが、更に脊髄
損傷のリスクを減らすためには、術中の脊髄モニ
タリングや術中 CT・MRI が今後有用となる可能
性がある。

整復後の固定期間に関しては一致した意見がな
い。Fielding 分類と整復後の経過の記載が十分
で、牽引治療あるいは全麻下徒手整復を行った報
告例を表 1 にまとめた。Fielding I 型では固定期
間や固定方法と再発リスクに相関関係は無く、発
症後経過が 3 週間以上の長期にわたる例の再発が
多い¹²⁾。この理由としては Fielding²⁾らが述べてい
るように長期間経過例では環軸関節の周囲の靭帯
や関節包などの軟部組織が拘縮し、整復阻害因子
となっていることが考えられる。

Fielding II 型・III 型では再発例は固定期間が短
い傾向があり、片山⁹⁾らおよび Phillips¹⁰⁾らは整復
後 4~6 週間の、小林⁷⁾らは整復後 6 週間の固定が
必要と述べている。II 型・III 型の AARF 発症時に
は環軸関節の周囲の軟部組織が損傷を受けている
可能性が高く、整復位保持のために一定期間以上
の固定が必要であると考え。今回の症例につい
ては、症例 1 はミネルバ型ギプス固定 4 週後に 4
週間の頸椎カラー固定としたが再発した。症例 2
は整復位が得られてから 8 週間のハローベスト固
定を行ったあとに 4 週間のフィラデルフィアカ
ラー固定を行い、再発していない。これらの結果
から、発症後長期間経過している Fielding II 型以
上の AARF に対して整復後の再発を防止するた
めには、我々は少なくとも 6 週間以上の強固な固
定が必要であると考え。

文 献

- 1) Burkus JK, Deponce RJ : Chronic atlantoaxial rotatory fixation. Correction by cervical traction, manipulation, and bracing. *J Pediatr Orthop* 6 : 631-635, 1986.
- 2) Fielding JW, Hawkins RJ : Atlanto axial rotatory fixation (fixed rotatory subluxation of the atlanto axial joint). *J Bone Joint Surg* 59 A : 37-44, 1977.
- 3) 星野啓介, 坪内俊二ほか : 小児環軸関節回旋位固定の治療経験. *整形外科* 53 : 1403-1405, 2002.
- 4) Johnson DP, Fergusson CM : Early diagnosis of atlanto axial rotatory fixation. *J Bone Joint Surg* 68 B : 698-701, 1986.
- 5) Jones RN : Rotatory dislocation of both atlanto axial joints. *J Bone Joint Surg* 66-B : 6-7, 1984.
- 6) 片山直樹, 森 健躬ほか : 小児の骨折を伴わない Atlanto axial rotatory fixation について. *整形外科* 32 : 121-128, 1981.
- 7) 小林慶二, 渡辺 良ほか : Atlanto axial rotatory fixation について. *臨整外* 18 : 439-447, 1983.
- 8) Lebowitz NH, Eismont FJ : Cervical spine injuries in children. In *The Pediatric Spine* (Weinstein SL ed), Raven Press, New York : 725-741, 1994.
- 9) Mihara H, Onari K et al : Follow up study of conservative treatment for atlantoaxial rotatory displacement. *J Spinal Disorders* 14 : 494-499, 2001.
- 10) Phillips WA, Hensinger RN : The management of rotatory atlantoaxial subluxation in children. *J Bone Joint Surg* 71-A : 664-668, 1989.
- 11) 坂本吉弘ほか : 当科で経験した AARF 難治性症例についての検討. *整形外科と災害外科* 50(1) : 73-77, 2001.
- 12) Scapinelli R : Three dimensional computed tomography in infantile atlantoaxial rotatory fixation. *J Bone Joint Surg* 76 B : 367-370, 1994.
- 13) 塩川浩規, 徳山 満ほか : 環軸椎回旋位固定の治療経験. *中部日本整形外科災害外科学会雑誌* 45(3) : 463-464, 2002.
- 14) Subach BR, McLaughlin MR et al : Current management of pediatric atlantoaxial rotatory subluxation. *Spine* 23 : 2174-2179, 1998.
- 15) 山口耕史, 林 信宏 : 保存治療が奏功した陳旧性環軸椎回旋亜脱臼. *日本パラプレジア医学会雑誌* 13 : 102-104, 2000.

Abstract

Two Cases of Atlantoaxial Rotatory Fixation Manipulated under General Anesthesia

Kazuhiro Masuda, M. D., et al.

Department of Pediatric Orthopaedics, Shizuoka Children's Hospital

We report on two children with long standing atlantoaxial rotatory fixation, in whom halter traction failed and manipulation under general anesthesia was successful. Patient 1 was a 5 year old boy whose neck was fixed rotated to the right and tilted to the left for no apparent cause. Although the patient was treated by halter traction for two weeks, the dislocation was not reduced. Twelve weeks later, manipulation was done under general anesthesia. After reduction, a Minerva cast was applied for four weeks and a soft neck collar was worn for another two weeks. Patient 2 was a 6 year old girl whose neck was fixed rotated to the left and tilted to the right following cervical lymphadenitis. Halter traction failed, so manipulation was done under general anesthesia ten weeks after the onset. After reduction, a halo vest was used for eight weeks, followed by four weeks of Philadelphia collar fixation. These two cases were type II according to the Fielding and Hawkins classification.