

石灰化病変により環軸椎回旋位固定をきたした1例

筑波メディカルセンター病院整形外科

須藤光敏・上杉雅文・栗田和宏
斉藤佳子・金子正剛

要旨 石灰化病変により環軸椎回旋位固定をきたす例は極めて稀である。症例は11歳男児。学校の階段より頭から転落し受傷した。2週後、母親が斜頸位に気づき当科を受診した。頸椎はCock Robin position を呈し可動域制限を認めた。単純X線では歯突起の左方偏位を認め、CTではO/C1からC1/2レベルにかけて歯突起右側に径12mm大の石灰化病変を認めた。同日より環軸椎回旋位固定の診断にて入院臥床安静とグリソン牽引を開始した。入院3日目に斜頸位は改善、7日目には頸部痛も消失したため、頸椎カラー装着にて退院となった。退院後6週の外来時には症状はなく、画像上病変の縮小を認めた。環軸椎回旋位固定の病態は散見されるが本症例の場合、画像所見にて石灰化病変を認め、これにより回旋位固定を来していた点が特徴であり、転落という他動的外力により環軸関節周囲の血管の破綻が起き血腫が形成され石灰化し、それにより環椎の回旋が生じた可能性が示唆された。

はじめに

環軸関節が回旋した位置で固定され、斜頸位を呈しているものは1977年 Fielding³⁾らが提唱して以来、atlanto-axial rotatory fixation と呼ばれており、整形外科外来診療においても時折遭遇するものである。今回我々は石灰化病変により環軸椎回旋位固定をきたした極めて稀な1例を経験したので報告する。

症例

症例：11歳、男児

主訴：頸部痛・斜頸

家族歴・既往歴：特記すべきことなし

現病歴：2003年6月26日、学校の階段6段の高さより転落し受傷した。一過性の意識消失があ

図1.

初診時
cock robin position を
呈している。



り受傷の状態は不明であった。直後より頸部痛が出現し接骨院にて加療するも症状軽快がなかった。2週間後の7月9日、母親が斜頸位に気づき当科を初診した。

初診時所見：頸椎は右屈曲、左軽度回旋位いわゆるCock Robin position を呈し、右側頸部に圧

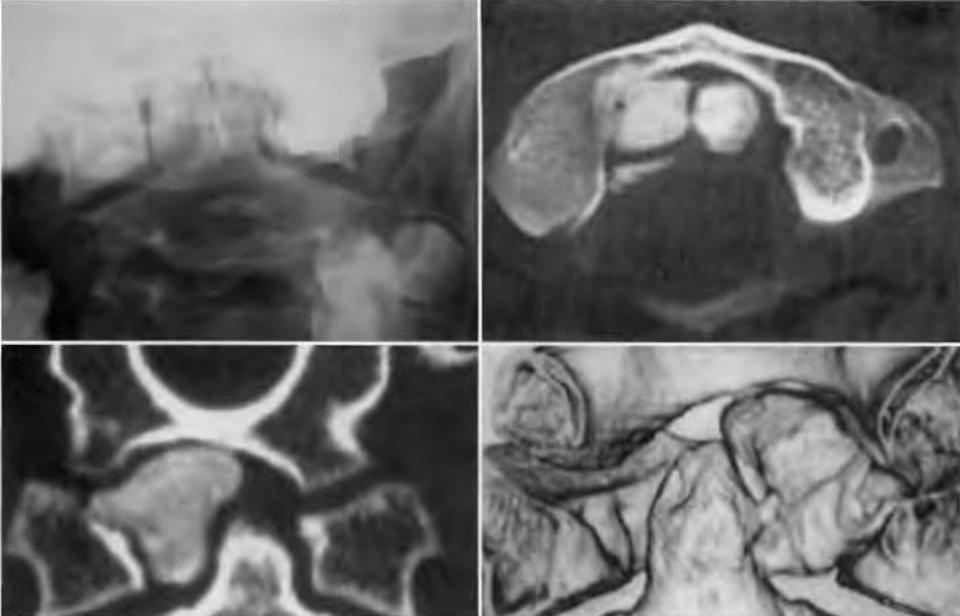
Key words : calcification (石灰化), atlantoaxial rotatory fixation (環軸椎回旋位固定)

連絡先：〒311-3516 茨城県行方郡玉造町井上藤井98-8 なめがた地域総合病院整形外科

須藤光敏

電話(0299)56-0600

受付日：平成17年2月28日



$$\frac{a|b}{c|d}$$

図 2.
初診時画像所見
歯突起右側の石灰化病変を認め、歯突起は左方へ偏位していた。

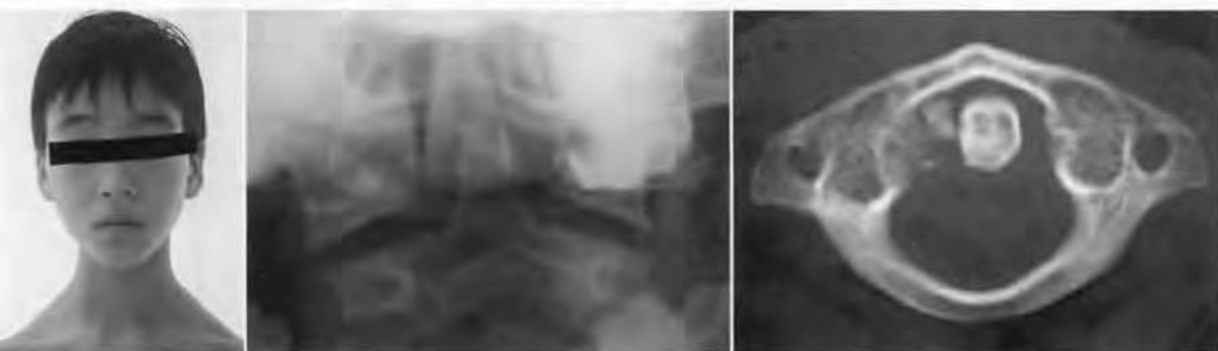


図 3. 斜頸位は改善し、画像上にも歯突起の偏位の改善と石灰化病変の縮小を認めた。

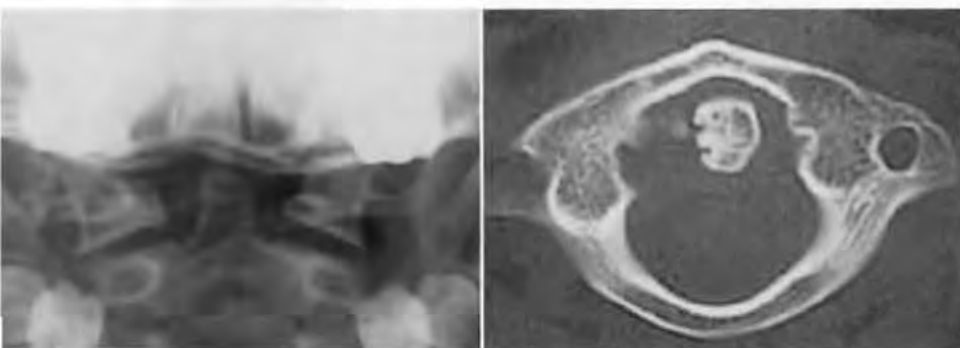


図 4.
退院後6週
病変のさらなる縮小を認めた。

痛があった。頰椎の運動時痛を認め、可動域は屈曲伸展 20°回旋は右 10°左 20°と制限を認めた。神経学的異常所見は認めなかった(図 1)。

初診時画像所見：単純 X 線正面像、側面像にて椎間板に石灰化は認めなかった。開口位では歯突起は環椎側塊間での左方偏位を認めた。CT にて歯突起環椎間、O/C1 から C 1/2 レベルにかけて歯突起右側に直径 12 mm 大の石灰化病変を認め

歯突起は左方へ偏位していた。3D CT にても同様の石灰化病変を認めた(図 2)。MRI では同部位に T1 強調像、T2 強調像ともに低信号域を認めた。

経過：以上の所見より環軸椎回旋位固定と診断し、入院臥床安静とグリソン牽引を行った。入院 3 日目に斜頸位は改善し、7 日目には頰部痛も消失したため、頰椎カラー装着にて退院となった。

表 1. 環軸椎回旋位固定の発症原因

1: 外傷によるもの
A) 他動的外力による
B) 自動的運動(自己による回旋固定)
2: 明らかな外傷の既往がないもの
A) 先行する上気道炎などの感染歴があるもの
B) "idiopathic" 特発性と考えられるもの

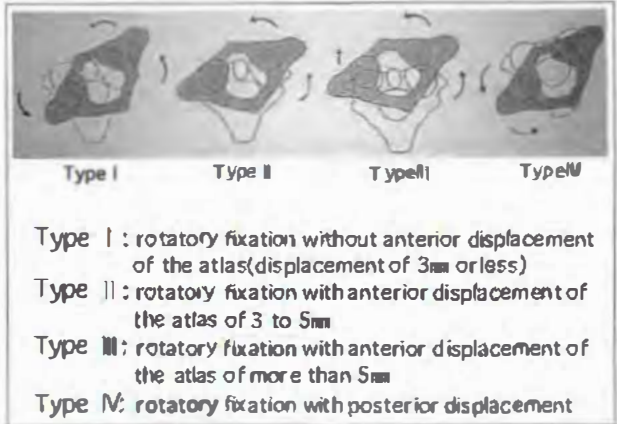
退院時の画像所見では、単純 X 線開口位にて齒突起と環椎側塊との距離はほぼ左右対称となり、CT, MRI にて石灰化病変の縮小を認めた。退院後 6 週の外來受診時には症状はまったくなく、CT にて病変のさらなる縮小を認めた(図 3, 4)。

考 察

頸椎回旋位固定は、1968 年 Wortzman と Dewar⁶⁾が環軸関節が回旋変形の位置で固定され、斜頸位を呈している状態に rotatory fixation の用語を用いたのが始まりである。この原因には外傷があるもの⁷⁾と、外傷の既往が明らかでないもの⁸⁾とがあり、後者には先行する上気道炎などの感染があるものと、そのような既往もない idiopathic というべき症例もある(表 1)。

1977 年、Fielding と Hawkins⁹⁾は atlan toaxial rotatory fixation と呼称し 4 型に分類している。Type I は環椎の前方への脱臼を伴わないもの。Type II は 3 mm から 5 mm 未満の脱臼を伴うもの。Type III は 5 mm 以上の脱臼をとともなうもの。Type IV は環椎の後方への脱臼を伴うものと定義している。本症例では環椎の前方への脱臼は伴ってはおらず type I と考えられた(図 5)。

病態に関して Fielding⁹⁾は環軸関節の関節包や滑膜組織の腫脹とそれに続く筋肉のスパズムによるとしている。Wortzman⁶⁾は関節包の狭傾によるもので骨折や靭帯の損傷は伴わなくてよいとしている。また山本¹⁰⁾らは alaru ligament の損傷が回旋の主因と述べている。ここで本症例の場合、階段よりの転落という外傷があり、Cock Robin position を呈していた。これは環軸椎回旋位固定の一般的な特徴であるが、画像所見にて石灰化病変を認めこれにより回旋位固定を来していた点は特徴といえる。我々の検索した限りでは同様の症例はなく、極めて稀な病態であるといえる。



Type I: rotatory fixation without anterior displacement of the atlas(displacement of 3mm or less)
 Type II: rotatory fixation with anterior displacement of the atlas of 3 to 5mm
 Type III: rotatory fixation with anterior displacement of the atlas of more than 5mm
 Type IV: rotatory fixation with posterior displacement

図 5. Fielding & Hawkins 分類

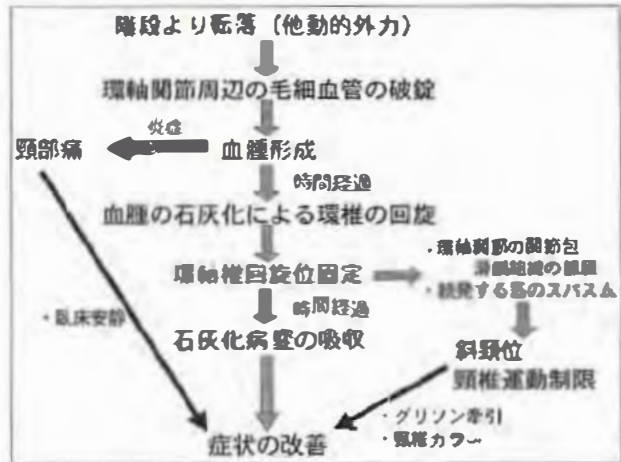


図 6. 本疾患の病態

また本症例は石灰化を伴っており鑑別診断として、小児頸椎椎間板石灰化症¹¹⁾が挙げられた。これは比較的稀な疾患であり 1964 年 Eyring¹²⁾は局所の疼痛が関連痛、脊椎運動制限、炎症の存在、椎間板の石灰化、小児のみ、予後良好の 6 つの徴候をもつ症候群であるとしている。類似点が認められるが、本疾患の罹患部位は環軸関節であり、画像所見にて椎間板の石灰化はなく、解剖学的に環軸間には椎間板がないことから、この疾患は否定的であるといえる。

そこで本疾患の病態をまとめると、階段より転落という他動的外力により環軸関節周辺の毛細血管の破綻が起き血腫が形成される。時間の経過と共に血腫は石灰化しそれにより環椎の回旋が生じた可能性が示唆された。頸部痛、斜頸位、頸椎運動制限が生じたが時間の経過と共に石灰化病変が吸収され、また臥床安静、グリソン牽引、頸椎カ

ラーの装着にて症状の改善をみたと推察された (図 6).

文 献

- 1) Coutts MB : Atlanto-epistropheal subluxations. Arch Surg **29** : 297-311, 1934.
- 2) Eyring EJ, Peterson CA, Bjornson DR et al : Intervertebral disc calcification in childhood. J Bone Joint Surg **46 A** : 1432-1441, 1964.
- 3) Fielding JW, Hawkins RJ : Atlanto-axial rotatory fixation. J Bone Joint Surg **59-A** : 37-44, 1977.
- 4) 小林慶二, 渡辺 良, 丸山徹雄ほか : Atlanto-

axial rotatory fixation について. 臨整外 **18** : 439-447, 1983.

- 5) Lyon E : Kalkablagerungen in der Zwischenwirbelschibe im Kindesalter. Ztsche Kinderh **53** : 570-574, 1932.
- 6) Wortzman G, Dewar FP : Rotatory fixation of the atlantoaxial joint : Rotational atlantoaxial subluxation. Radiology **90** : 479-487, 1968.
- 7) 山本正紀 : 環軸関節回転性脱臼について, 臨床のおよび実験的研究. 奈医誌 **28** : 547-567, 1977.

Abstract

Atlanto axial Rotatory Fixation with Calcification : A Case Report

Mitsutoshi Suto, M. D., et al.

Department of Orthopaedic Surgery, Tsukuba Medical Center Hospital

We report a rare case in which a calcified lesion caused atlanto axial rotatory fixation. The patient was a male at 11 years old. He fell headlong down stairs at school and was injured. At two weeks later, his mother noticed torticollis, and the boy visited our department.

The cervical spine presented a Cock Robin position, with restricted range of motion. A plain roentgenography showed the dens of the axis deviated to the left. CT showed a calcified lesion with a diameter of 12 mm on the right side of the dens of the axis at the level from O/C 1 to C 1/2. He was diagnosed as having atlanto-axial rotatory fixation, and hospitalized on the same day. He was made to rest in bed, and Glisson's traction treatment was started. The torticollis was improved on day 3. The cervical pain was eliminated on day 7. He was discharged on day 8 with a cervical collar. He showed no symptoms when he visited at six weeks after the discharge. At follow-up, the lesion was reduced on CT. Atlanto-axial rotatory fixation is only occasionally observed. This case was characterized by a calcified lesion causing the rotatory fixation. Findings suggested that the blood vessels around the atlanto-axial joint had been damaged by the trauma resulting in the formation of a hematoma, and this became calcified causing the atlanto-axial rotation.