

治療に抵抗性であった環軸椎回旋位固定の臨床的特徴

静岡県立こども病院整形外科

松岡夏子・滝川一晴・矢吹さゆみ

東京大学医学系研究科 外科学専攻 感覚運動機能医学講座 リハビリテーション医学分野

芳賀信彦

要旨 当院で治療を行った環軸椎回旋位固定 (atlanto-axial rotatory fixation ; 以下, AARF) のうち治療に抵抗性で, Halo vest 固定を要した症例についてその臨床的特徴を報告する。対象は 2001 年から 2011 年までの 11 年間に当科を初診し AARF と診断した 38 名中, 内服・頸椎カラー固定・Glisson 牽引で改善せず, 全身麻酔下徒手整復・Halo vest 固定を必要とした 4 名, 男児 2 名, 女児 2 名。初診時年齢は平均 6.5 歳 (5~8 歳), 発症から初診までの期間は平均 61.5 日 (30~120 日), 初回の頸椎 CT では Fielding 分類 Type II が 3 名, Type III が 1 名であった。全例で全身麻酔下に Halo vest 固定を行なった。3 名は現在まで再発なく経過しているが, 1 名は再発し他院で環軸椎後方固定を受けた。諸家の報告の通り発症から長期間経過した AARF は難治性となることが多く, 観血的治療を要する可能性がある。

はじめに

環軸椎回旋位固定 (atlanto-axial rotatory fixation ; 以下, AARF) は環軸関節が一方向に回旋した位置で固定され有痛性斜頸を呈する疾患である。好発年齢は小児から学童期であり, 軽微な外傷や上気道感染, 口腔・咽頭の手術などを契機に発症するとされている²⁾。

AARF は牽引や装具療法といった保存療法で比較的容易に整復されることが多いが, 中には再発を繰り返すものや, 整復に時間を要するものがある。当院で治療を行った AARF のうち治療に抵抗性で, 内服・装具療法, 牽引で改善せず, 全身麻酔下徒手整復とその後の Halo vest 固定を要した症例についてその臨床的特徴について報告する。

対象・方法

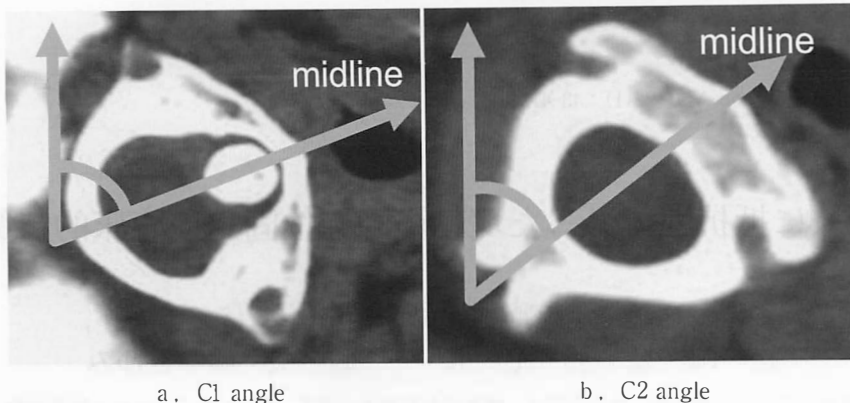
2001 年から 2011 年までの 11 年間に当科を初診し, AARF と診断した 38 名中, 内服・頸椎カラー固定・Glisson 牽引で改善せず, 全身麻酔下徒手整復・Halo vest 固定を必要とした 4 名, 男児 2 名, 女児 2 名を対象とした。

当院では通常初期治療として NSAIDs, 筋弛緩薬の内服, 頸椎カラー固定を行い, 改善しない例や発症から時間がたっている症例では Glisson 牽引を行う。牽引期間は患者背景によって短縮することもあるが, 通常 2~4 週としている。それでも改善しないものに対して全身麻酔下徒手整復とその後の Halo vest 固定を行っている。

初診時年齢, 主訴, 発症から初診までの期間, 初診時の Fielding 分類¹⁾, CT 機能撮影での cross

Key words : atlanto-axial rotatory fixation (環軸椎回旋位固定), refractory (治療抵抗性), Halo fixation (ハローベスト固定)

連絡先 : 〒 420-8660 静岡県静岡市葵区漆山 860 番地 静岡県立こども病院整形外科 松岡夏子 電話 (054) 247-6251
受付日 : 平成 24 年 2 月 22 日



a. C1 angle

b. C2 angle

図 1. 矯正位 CT

Cross over (+) : C1 angle-C2 angle が + を指す.

症例	年齢 (歳)	性別	主訴	発症から初診までの期間(日)	Fielding 分類 (Type)	初診時 Cross over の有無	Halo vest 後の再発
1	6	女	頸部痛・斜頸	30	Ⅲ	-	-
2	7	女	斜頸	46	Ⅱ	-	-
3	5	男	斜頸	50	Ⅱ	-	-
4	8	男	斜頸	120	Ⅱ	+	+

表 1. 治療抵抗性の 4 例

over の有無, 再発・手術の有無について調査した.

CT は初診時と症状改善後の 2 回実施している.

対象とした 4 名は全例に Glisson 牽引を行ったが, 1 例では精神疾患のため本人の協力が得られず, 牽引を数日且つ短時間しか行えなかった. 牽引で整復が得られない, あるいは再発を繰り返すことから, 全例, 全身麻酔下にて徒手整復後, Halo vest 固定を行った. 固定後 8 週間で Halo vest 固定を終了した. その後 2~3 か月間のフィラデルフィアカラー固定を行っている.

当院では Pang らの報告⁵⁾⁶⁾をもとに CT 機能撮影にて AARF の評価を行っている⁷⁾. 頭部を回旋制限のある方向へ抵抗のない範囲に回旋し, その位置を保持した状態で矯正位 CT を撮影した. 環椎の前方結節と後方結節の中央を結ぶ線を環椎前後軸としてそれと床面に対し垂直な線の開角を C1 angle, 軸椎の椎体中央と棘突起の中央を結ぶ線を軸椎前後軸としてそれと床面に対し垂直な線の開角を C2 angle と定義し, C1 angle から C2 angle を引いた角度がプラスであれば cross over (+) と評価している (図 1).

結 果

初診時年齢は平均 6 歳 6 か月 (5~8 歳) で, 主訴は 1 例が斜頸と頸部痛であった. 残りの 3 例は斜頸のみが主訴で初診時にすでに疼痛は消失していた. 発症から初診までの期間は平均 61.5 日 (30~120 日) であった. 本研究で対象とした 4 名のうち初回の頸椎 CT での Fielding 分類は, Type Ⅱ が 3 名, Type Ⅲ が 1 例であった. 1 例は初診までに 3 か月以上経過しており, 頸部痛はなく, C1/2 の亜脱臼はあるものの初診時から cross over (+) であった.

3 例は Halo vest 固定終了後, フィラデルフィアカラー固定として整復位は保たれており, 現在まで再発なく経過している. 1 例は Halo vest 終了後 3 週間で再転位となり, 他院で環軸椎後方固定を受けた (表 1).

症例提示 (症例 4)

患者は 8 歳男児で当院初診の 5 か月ほど前に左肩・頸部痛があり, その後疼痛は自然軽快していたが, 母親が斜頸位になっている事に気付いていた. 症状が改善しないため, 斜頸に気付いてから

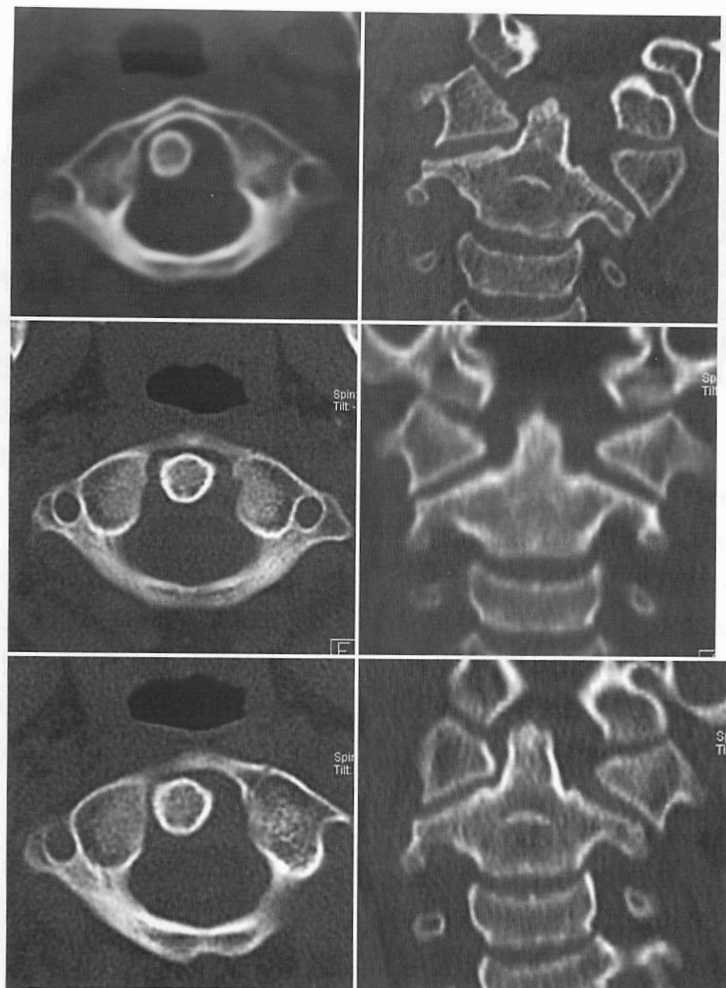


図 2. 症例 4 の CT 所見

- a : 当院治療前, C1/2 椎間関節は亜脱臼している.
- b : 牽引後, 整復位となっている.
- c : 他院手術前, C1/2 椎間関節亜脱臼となり AARF が再発している.

3 か月後に前医を受診し, AARF と診断を受けた。前医で 2 週間の牽引療法を受けたが改善せず, 当科紹介・入院となった(図 2-a)。初診時よりチック様の左方向へ頭部を傾げる不随意運動があった。入院後牽引を行い, 入院 2 週間後に一旦は整復位となった(図 2-b)。この時の頸椎 3D-CT では C1/2 椎間関節は整復されていたが, フィラデルフィアカラー(以下, カラー)固定としてからすぐに再転位した(図 3)。整復後に再転位となった経緯より強固な外固定が必要と判断し, 全身麻酔下に Halo vest 固定を行い, 8 週間の固定後にカラー固定とした。

カラー固定としてから 3 週間後に再び斜頸位と

なり亜脱臼が再発したため(図 2-c), 外固定では固定不十分であると判断し他院で手術を行った。

考 察

先行の複数の報告²⁾³⁾⁶⁾でも述べられている通り治療開始までの期間が AARF の治療の難しさに大きく関与している。当院で治療を行なった 38 名の AARF の初診から治療開始までの期間を検討すると平均 27 日であるのに対し, 対象とした 4 名は発症から初診までの期間は平均 61.5 日と, 本研究の 4 名の平均日数が長いことが分かる。やはり治療開始までの時間が長いことが治療抵抗性となる要因のひとつであると考えられる。

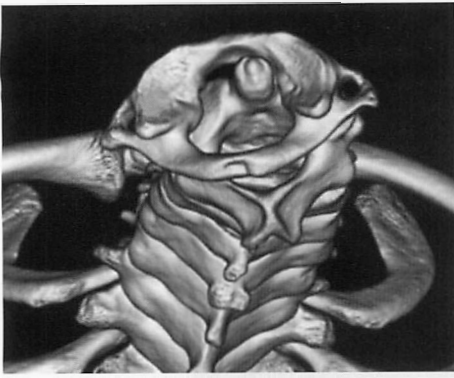


図 3. 症例 4 の再転位後の 3D-CT

4 名中 3 名は初診時の主訴が斜頸のみで疼痛は消失しており、発症から時間が経過した慢性期の AARF では強い痛みはなくなり、より受診までの期間が長くなる傾向がある。

また今回の 4 名のうち 1 名は頭部外傷後の精神障害のため牽引を効果的に行うことが困難であり、精神発達遅滞などの基礎疾患のある例では治療抵抗性となる可能性がある。

AARF では有痛性斜頸と頸部の固定位が主な症状となることが多く、このような臨床症状の改善と安静時の X 線・CT などで治療前後の評価が行われてきた。しかし安静時の画像所見のみでは評価が難しいことも多い。矯正位 CT は治療前後の評価として有効であるとの報告があり⁵⁾⁶⁾、当院でも治療体系に取り入れている⁷⁾。臨床所見の正常化と cross over(+)は概ね一致している。しかし、前述の症例 4 では初診時より cross over(+)であったが、臨床的には斜頸位が残存しており、画像上は C1/2 は亜脱臼していた。ほとんどの症例では cross over(+)であれば治療が奏効したと考える根拠として問題ないが、症例 4 のように発症から長期間経過し、椎間関節面の変形が起こっているような例においては cross over の有無だけでは治療効果を判断することは難しく矯正位 CT 以外にも評価方法が必要となる。

Ishii らは 3D-CT を用いた C1/2 椎間関節のリモデリング評価方法について報告している³⁾。AARF の患児の C1/2 椎間関節の変形がリモデリングされるのには数か月を要するとしており、症例 4 では Halo vest 前後でのリモデリング評価が十分ではなかった可能性もある。リモデリング評

価の方法についても今後検討が必要である。

これまでの報告では筋痙縮が整復の障害となるという点にはあまり着目されていないが²⁾、Lin らは、整復後の再発には胸鎖乳突筋の痙縮が関係していると述べている⁴⁾。症例 4 ではチックのような一方向へ頭部を傾ける不随意運動があり、これも再発の原因の一つと考えられる。胸鎖乳突筋の非対称な筋緊張をコントロールできれば再発予防の一助となる可能性がある。

まとめ

発症から長期間経過した AARF は難治性となることが多く、観血的治療を要する可能性がある。

また精神発達遅滞のある症例では保存療法が効果的に行えないために難治性となる場合がある。

文 献

- 1) 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.
- 2) 古矢丈雄, 山崎正志, 大河昭彦ほか : 環軸椎回旋位固定の病態と治療. 千葉医学雑誌 85(2) : 61-69, 2009.
- 3) Ishii K, Matsumoto M, Momoshima S et al : Remodeling of C2 facet deformity prevents recurrent subluxation in patients with chronic atlantoaxial rotatory fixation : a novel strategy for treatment of chronic atlantoaxial rotatory fixation. Spine 15 ; 36(4) : 256-262, 2011.
- 4) Lin CH, Chen CJ, Chen CM et al : Treatment of atlantoaxial rotatory fixation with botulinum toxin muscle block and manipulation. J Chin Med Assoc 73(4) : 222-224, 2010.
- 5) Pang D, Li V : Atlantoaxial rotatory fixation : part 2-new diagnostic paradigm and a new classification based on motion analysis using computed tomographic imaging. Neurosurgery 57(5) : 941-953, 2005.
- 6) Pang D, Li V : Atlantoaxial rotatory fixation : part 3-a prospective study of the clinical manifestation, diagnosis, management, and outcome of children with atlantoaxial rotatory

fixation. *Neurosurgery* 57 : 954-972. 2005.

7) 田中弘志, 滝川一晴, 岡田慶太ほか: 環軸椎回

旋位固定に対する鎮静下矯正位 CT を用いた評価について. *日小整会誌* 17(1):97-100, 2008.

Abstract

Refractory Atlanto-Axial Rotatory Fixation : Clinical Features

Natsuko Matsuoka, M. D., et al.

Department of Pediatric Orthopedics. Shizuoka Children's Hospital

This study evaluated clinical characteristics of refractory atlanto-axial rotatory fixation (AARF). 38 patients were treated in our department from 2001 to 2011. Here we report the clinical features of AARF in 4 children, who underwent halo fixation. The patients were 2 boys and 2 girls, with a mean age at diagnosis of 6.5 years (range from 5 to 8 years). The interval between onset and first visit was 61.5 days (range from 30 to 120 days). Three patients were Fielding Type II, and the other was Fielding Type III.

All patients required halo fixation followed by closed manipulation under general anesthesia. Three of them are kept as a good condition without recurrence. One patient had required surgery at other hospital. It is frequently reported that, AARF that passed long time from the onset are often become refractory, there is a possibility requiring invasive treatment.