

川崎病に続発した環軸椎回旋位固定の検討

さいたま市立病院 整形外科

立山 宏一・福岡 昌利

要旨 川崎病に続発した環軸椎回旋位固定 (Atlantoaxial Rotatory Fixation : 以下, AARF) の報告は散見するが, まとまった報告は少ない. 本研究では, 川崎病患者における AARF 発生頻度, 治療までの期間, 治療方法について検討した. 【方法】当院で川崎病と診断された 209 例を対象とし, AARF の診断は, 開口位による単純 X 線と CT を撮影し行った. 初期治療は診断後, 速やかに頸椎装具による固定もしくは Glisson 係蹄による牽引を行った. 【結果】209 例中 12 例に AARF を認めた. 治療開始までの期間は, 平均約 6.5 日であった. 11 例は治療開始後, 速やかに頸部症状の改善が認められたが, 精神発育遅滞があり Glisson 係蹄による牽引が困難であった 1 例において, ハローベストによる牽引が必要となった. 【考察】川崎病は, AARF を合併する頻度が高いことが分かった. 治療開始までの期間が遅くなる原因としては, 川崎病での AARF の発生が小児科医の念頭にないことが原因と考えた. 治療は頸椎固定装具, 牽引により良好な治療成績が得られた.

目 的

環軸椎回旋位固定 (Atlantoaxial Rotatory Fixation : 以下, AARF) は, 小児に多くみられる頸椎疾患で, 症状として頸椎可動域制限, 頸部痛, 斜頸を認める. 一般に小児における上気道感染, または, 軽度もしくは重度の外傷の後に発生することが多い. 過去に川崎病に続発した AARF についての報告も散見されている³⁾⁴⁾が, まとまった報告は渉猟し得た範囲でなかった. 今回, 我々は当院で治療を行った川崎病に続発した AARF を調査し, 発生頻度, 治療について検討を行った.

方 法

2013 年 1 月から 2016 年 6 月までに当院小児科を受診し, 川崎病と診断された 209 例を対象とした. 年齢は 0 歳から 14 歳 (平均年齢 2.68 歳) で, 性別は男児 123 例, 女児 86 例であった.

全例で頸部痛, 斜頸の有無を調べた. 強い頸部痛があり, 頸椎可動域制限, 斜頸の症状を認める症例は, 単純 X 線, CT を用いて環軸椎の評価を行い, AARF の有無および Fielding 分類で評価を行った.

AARF と診断した患者に対して, 治療は診断後すぐに保存加療 (ベッド上安静, 頸椎装具による固定, Glisson 係蹄による牽引) で開始した. 保存治療は頸椎装具による固定, Glisson 係蹄による牽引を考慮したが, 頸部リンパ節の疼痛が強く装具, 牽引が困難な症例は, ベッド上で安静のみとした. 治療開始後の評価は自覚症状としての頸部痛の有無, 頸椎可動域の改善, 単純 X 線による環軸椎の所見により行った. 症状が遷延する症例に対しては再度 CT を用いて椎間関節の評価を追加し, アライメントの改善まで加療を継続した.

また, 発熱を認めた期間, 症状が出現してから治療開始までの期間, 治療を開始してから症状改

Key words : Kawasaki disease (川崎病), atlantoaxial rotatory fixation (環軸椎回旋位固定), torticollis (斜頸), cervical lymphadenitis (頸部リンパ節炎), Glisson sling (グリソン係蹄)

連絡先 : 〒 336-8522 埼玉県さいたま市緑区三室 2460 さいたま市立病院 整形外科 立山宏一 電話 (048)873-4111
受付日 : 2017 年 1 月 20 日

善までの期間を調査した。また、それぞれの期間を R version 3.3.2 を用い、Pearson の積率相関係数を求め、 $p < 0.05$ を有意差とし、相関を調べた。

結果

川崎病患者 209 例中 57 例に頸部痛を、20 例に斜頸を認め、12 例で AARF と診断した。12 例中では男児 5 例、女児 7 例、発症時年齢は 3~7 歳(平均 5.5 歳)、Fielding 分類は Type1 が 5 例、Type2 が 7 例、経過観察期間は 2 週~21 か月(平均 6.3 か月)であった。

AARF と診断した症例の初期治療は、ベッド上安静は 1 例(Type1 : 1 例)、頸椎装具による固定は 2 例(Type1 : 1 例、Type2 : 1 例)、Glisson 係蹄による牽引は 9 例(Type1 : 3 例、Type2 : 6 例)で開始した。

有熱期間は 4~9 日間(平均 3.25 日)、治療開始までの期間は 0~8 日間(平均 6.5 日)、頸部症状の改善までの期間は 3~45 日(平均値 11 日)であった。

12 例中 11 例は早期に症状の改善が認められたが、1 例は精神発育遅滞の合併があり、グリソン牽引を継続的に行うことが困難であったため治療に難渋し、ハローベストによる牽引が必要となった。4 週間のハローベスト牽引を行い、その後、可動域制限は改善した。

症状改善までの期間と発熱期間の間には、有意な相関関係は認められなかった($r = -0.0418$, p -value = 0.9027, 図 1)。

症状開始までの期間と治療開始までの期間の間には弱い正相関が認められたが、有意差は認められなかった($r = 0.362$, $p = 0.273$, 図 2)。

考察

AARF は一般に小児における上気道感染、または、軽度もしくは重度の外傷の後に起こる。病因について Fielding ら¹⁾は初期には関節包の腫脹、滑膜・筋の攣縮が起こり、長期間持続することで靭帯や関節包が拘縮し、回旋位で固定されるとしている。また、関節内に由来するもの、関節

発熱期間と症状改善までの期間の相関

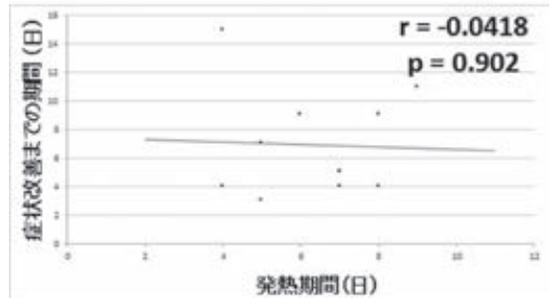


図 1. 発熱期間と症状改善までの期間の相関
有意な相関関係は認められなかった($r = -0.0418$, $p = 0.9027$)

治療開始までの期間と症状改善までの期間の相関

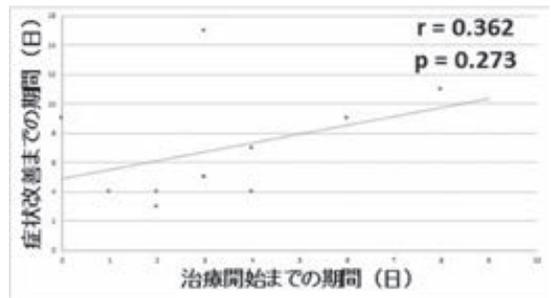


図 2. 治療開始までの期間と症状改善までの期間の相関
弱い正の相関が認められたが、有意差は認められなかった($r = 0.362$, $p = 0.273$)

外に由来するもの、関節内外に由来するものと諸説報告されているが、いまだ解明されていない²⁾。

小児に好発する原因として、小児は環軸関節の骨性支持が少なく、靭帯・関節包が緩く回旋角度が大きく、環軸関節が水平に近いこと、環軸関節の中で軟部組織の占める割合が大きく炎症が容易に波及しやすいことなどが考えられる。本研究において川崎病患者の 5.7% に AARF の合併が認められた。児玉⁴⁾による人口 10 万人当たりの AARF 患者は 14.8 人と推測されるという報告と比べ、きわめて多くの患者に AARF の合併が認められたことになる。川崎病は、頸部リンパ節炎を来す疾患であるため、環軸関節内の軟部組織に炎症が容易に波及し、充血や浮腫、壊死などによる靭帯の機能障害が起こり、AARF が合併しや

すいと考えられる。

発熱期間と治療に必要であった期間には、相関は認められなかった。原因として、調査母数が少なかった可能性も挙げられるが、川崎病の重症度とAARFの相関はない⁵⁾との報告もあり、さらなる調査が必要であると考えられる。

症状が出現してから治療開始まで期間と、症状が改善するまでの期間発症の間には弱い正の相関が認められたが、有意差は認められなかった。診断治療までの時間経過により治療が難渋するとの過去の報告⁶⁾や自験例でも適切な牽引治療が困難であった症例において治療に難渋したことから、早期に外固定、牽引での治療が重要であると考えられた。

本研究において、治療開始までの期間は平均で6.5日を要した。この原因として小児科医がAARFの存在を知らないこと、川崎病の治療が優先となることが考えられる。川崎病は、初診で整形外科を受診することは皆無であり、発熱を主訴に小児科をまず受診する。川崎病に合併したAARFは、原疾患の治療が落ち着いたのちに、頸部症状が残存することで整形外科をようやく受診し発見されることもある。小児科医にも川崎病にAARFが合併することが多いことを認知してもらい、早期に相談してもらえ環境を整えてい

くことがこれからの課題と考えられる。

結 語

我々は、川崎病に併発したAARFについて調査した。川崎病患者の5.7%と多くの患者にAARFの合併が認められた。早期からベッド上安静、頸椎装具による固定、Glisson係蹄による牽引といった適切な治療をすることが重要である。

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* 85 : 61-69, 2009.
- 3) 保坂泰介, 石井紘介, 寺口正之ほか : 川崎病罹患時に環軸椎回旋位固定を合併した5歳女児例. *Progress in Medicine* 33 : 1454-1457, 2013.
- 4) 児玉貴光 : 環軸椎回旋位固定14症例の臨床的検討. *月刊地域医学* 29 : 898-901, 2015.
- 5) 小田優子, 二瓶浩一, 上村泰子ほか : 川崎病急性期に環軸椎回旋位固定を合併した2例. *小児科臨床* 62 : 2095-2099, 2009.
- 6) Roche CJ, Maller MO, Dorgan JL et al : A Pictorial Review of Atlanto-axial Rotatory Fixation : Key points for the Radiologist. *Clinical Radiology* 56 : 947-958, 2001.