

環軸関節回旋位固定に対する持続牽引治療

日下部 浩¹⁾・内 川 伸 一²⁾

1) いなぎ整形外科内科

2) 国立研究開発法人国立成育医療センター 整形外科

要 旨 環軸関節回旋位固定 (Atlantoaxial Rotatory Fixation : 以下, AARF) の持続牽引による治療成績を検討した。2006 年 5 月～2017 年 6 月に国立成育医療研究センター病院, ふれあい町田ホスピタルおよび藤田保健衛生大学坂文種報徳會病院の 3 施設で治療された AARF 症例 24 (男 7, 女 17) 例を対象とした。重症度評価には Pang の分類を用い, 牽引治療開始から整復位確認までの期間, 回旋方向の変化と治療後の症状の再発の有無を評価した。全例に整復位が得られ, 牽引治療開始から整復位確認までの期間は Pang 分類 Type III, II, I でそれぞれ平均 2.5 日, 9.9 日, 9.8 日であった。回旋方向の変化は 6 例 (25%), 治療後の症状の再発は 2 例に見られた。AARF に対する持続牽引治療は重症例に対しても有用であった。AARF では治療中回旋方向が変化することや, いったん整復位が得られても症状が再発することがあり, 環軸関節が不安定な期間を認めることがある。

はじめに

環軸関節回旋位固定 (Atlantoaxial Rotatory fixation : 以下, AARF) は急性に頸部痛と斜頸位を呈する疾患である。斜頸位とともに反対側への回旋位を伴う頭位が特徴的で, この頭位は cock robin deformity と呼ばれる⁶⁾。その病態は環軸関節の回旋位での locking であり⁶⁾、自然経過とともに症状が軽快する軽症例では問題になることはないが、治療に難渋する重症例に対しては頭蓋輪牽引や椎間固定などの侵襲的な治療についての報告が多い^{1)~3)5)9)}。我々は重症の AARF に対しても持続牽引によって治療を行っている⁴⁾。今回、我々は持続牽引により治療された AARF 症例の症状経過および治療成績について検討を行った。

方 法

我々の AARF に対する牽引治療は、ベッドの

頭側を 10.5° 挙上し, その傾斜を利用して患児の頭部をグリソン帯にてつり下げるもので, 清拭, 排泄もすべてベッド上にて行い, 24 時間持続して行っている (図 1)⁴⁾。

対象症例は 2006 年 5 月～2017 年 6 月に国立成育医療研究センター病院, ふれあい町田ホスピタルおよび藤田保健衛生大学坂文種報徳會病院の 3 施設で治療された 24 (男 7, 女 17) 例である。発症時年齢は 3.0～12.2 (平均 7.5) 歳, 観察期間は 2 か月～7 年 6 か月 (平均 2 年 4 か月) であった。

重症度評価には Pang の分類を用いた⁶⁾。Pang の分類は環椎の軸椎に対しての回旋位での locking の程度を動的 CT に基づく重症度の降順に Type III, II, I に分類するとともに, 治療前罹病期間から acute, subacute, chronic として分類する⁷⁾。

牽引治療開始から整復位確認までの期間, 回旋方向の変化と治療後急性期 (牽引中止後 2 週間以

Key words : atlantoaxial rotatory fixation (環軸関節回旋位固定), AARF (AARF), continuous traction (持続牽引), traction by Glisson sling (グリソン牽引)

連絡先 : 〒182-0002 東京都調布市仙川町 3-2-4 ウィステリア仙川 1 階 A 仙川整形外科 日下部浩 電話 (03) 3305-0088
受付日 : 2018 年 6 月 1 日

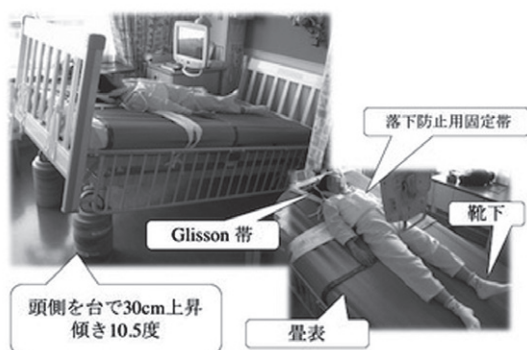


図1. 牽引方法

ベッドの頭側を挙上し、その傾斜を利用して患児の頭部をグリソン帯にてつり下げるもので、24時間持続して行っている。靴下を装着させ、マットレス表面には畳表を敷いて摩擦を軽減している。

表1. Pang 分類

	Type III	Type II	Type I
acute	3	5	2
subacute	1	8	0
chronic	0	3	2

内とした)の症状の再発の有無について検討を行った。

結 果

治療前の Pang 分類は治療前罹病期間別に見ると acute では Type III が3例, Type II が5例, Type I が2例, subacute では Type III が1例, Type II が8例, chronic では Type II が3例, Type I が2例であった(表1)。

全例に整復位が得られた。牽引治療開始から整復位確認までの期間は Pang 分類 Type III, II, I でそれぞれ平均2.5日, 9.9日, 9.8日であった(図2)。回旋方向の変化は6例(25%), 治療後の症状の再発は2例に見られた(表2)。

症状の再発が認められた2例は Type II, subacute で発症から牽引まで46日であった症例と, Type II, chronic で発症から牽引までの期間が102日であった症例であり, この症例は回旋方向の変化も認めている(表3)。再発の対処として1例目は臥位安静5日間, 2例目は再牽引37日間が行われ, 2例ともその後経過は良好である。

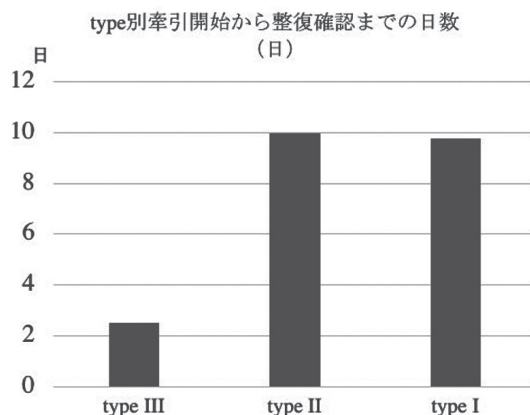


図2. 牽引開始から整復確認までの日数

表2. 回旋方向の変化

	Type III	Type II	Type I
acute	0	2	1
subacute	0	1	
chronic		2	0

表3. 急性期の再発

	Type III	Type II	Type I
acute	0	0	0
subacute	0	1	
chronic		1	0

症例1: 典型例. 7歳10か月(発症時), 女児. 右斜頸位, 左回旋位, Type II, acute. 発症から牽引開始までの期間は19日であった。牽引2日目に整復位が確認された。牽引22日にて牽引を中止し, カラー装用とした。以後1年症状の再発を認めていない。牽引前および牽引終了時の回旋運動曲線を示す(図3)。

症例2: 回旋方向転換例. 7歳4か月(発症時), 女児. 右斜頸位, 左回旋位, Type II, chronic. 発症から牽引開始までの期間は102日であった。牽引開始同日に整復位が確認されている。牽引3日目に反対方向(右)への斜頸位および回旋位が出現したが牽引4日目には整復位が確認された。初診時のMRI, 脂肪抑制 T2 強調像にて C1/2 左椎間関節部および右 C2 椎体関節下に高輝度所見を認め, 炎症または水腫などの存在が示唆された(図4)。牽引38日に動的 CT にて normal dy-

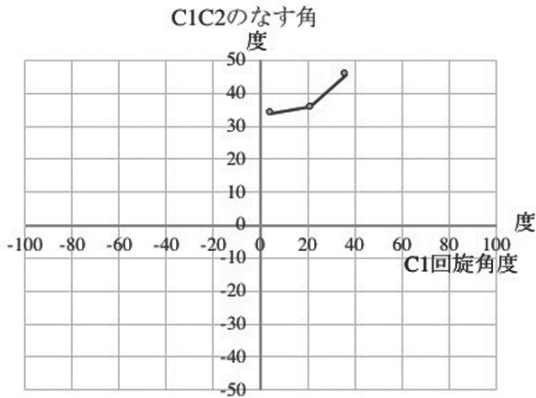


図 3-a. 回旋運動曲線(牽引前)

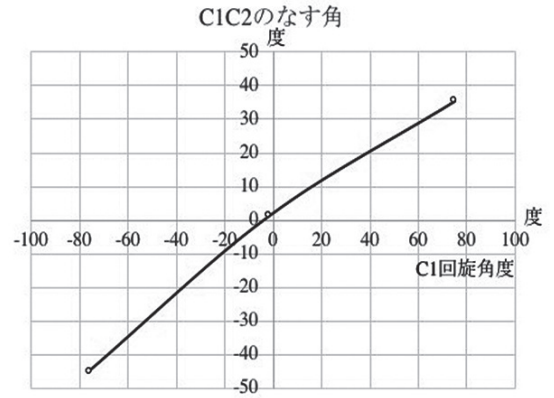


図 3-b. 回旋運動曲線(牽引終了時)

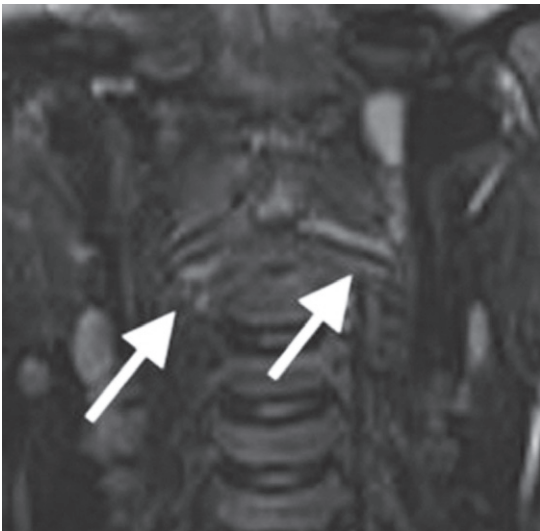


図 4. 症例 2 の MRI, 脂肪抑制 T2 強調像. 矢印: 高輝度部位

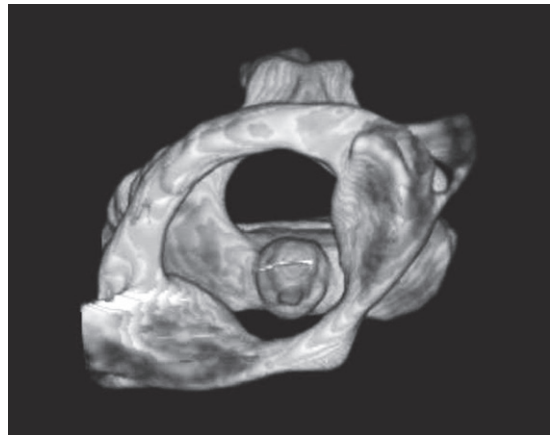


図 5. 初診時の頸椎頭尾方向三次元再構築 CT 画像



図 6. 症例 3 の MRI, 脂肪抑制 T2 強調像. 矢印: 高輝度部位

namics であることが確認され、牽引中止とした。

症例 3: 症状再発例。8 歳 5 か月(発症時)、男児。右斜頸位、左回旋位、Type II, subacute。初診時の頸椎頭尾方向三次元再構築 CT 画像を示す(図 5)。発症から牽引開始までの期間は 46 日であった。牽引を開始した翌日に整復位が確認された。21 日後に牽引を中止しカラー装着とした。その 5 日後、右斜頸位が再発した。症状再発時の MRI, 脂肪抑制 T2 強調像において、歯突起の右側に高輝度所見を認め、炎症または水腫などの存在が示唆された(図 6)。再発した斜頸位は臥位安静 5 日間で軽快した。

考 察

Pang の分類は I, II, III の三つの Type と

acute, subacute, chronic という症状発現から治療開始までの三つの期間によって構成されている。これらは環椎の軸椎に対しての回旋位での locking の程度を動的 CT に基づく重症度の降順に Type I, II, III に分類するとともに, 治療前罹病期間から acute, subacute, chronic として分類している。Pang の勧める治療法は軽症から中等度の症例では介達牽引が基本であるが, locking の程度が高く治療前罹病期間が長いとき, 再発時などの治療抵抗性が高い状況下では頭蓋牽引, 頭蓋輪牽引としている⁷⁾。また, これら難治例に対する治療法としては頭蓋輪牽引や手術治療によるものの報告が多く^{1)~3)5)9)}, 牽引治療など保存的療法の効果の報告例は少ない⁴⁾⁸⁾。しかしながら, 今回の研究では AARF に対する持続牽引治療は重症例に対しても有用であった。

AARF では治療中回旋方向が変化することや¹⁰⁾, いったん整復位が得られても症状が再発することがあり, 環軸関節が不安定な期間を認めることがある。こうした症例では MRI 脂肪抑制 T2 強調画像で歯突起近傍に高輝度部位を認め, 腫脹, 周囲浮腫の存在が示唆される。歯突起や椎間関節, 周囲の腫脹, 浮腫は環軸関節を不安定化させるものと思われる。このような所見のある期間中は回旋方向が変化することや牽引終了後に症状が再発しやすい環境にあるものと思われる。

牽引中に回旋方向が変化した症例はその翌日には整復位となり, 以後経過良好であった。牽引中止後に症状が再発した 2 症例の治療としては Type II, subacute の症例では臥位安静 5 日間, Type II, chronic の症例では再牽引 37 日間が行われた。双方とも整復位が得られ以後経過良好である。

今回の調査では, 牽引中に回旋方向が変化した症例や牽引中止後に症状が再発した症例でも持続牽引治療は有効であった。この結果から, 回旋方向の変化はそのまま牽引を継続し, 牽引中止後に再発した場合は再牽引を行うことが望ましいと思われる。牽引期間中の回旋方向変化例など環軸関節に不安定な期間を認め, 注意を要する症例を含めて持続牽引治療は有用な治療法と思われる。

結 論

AARF に対する持続牽引治療は重症例に対しても有用であった。AARF では治療中回旋方向が変化することや, いったん整復位が得られても症状が再発することがあり, 環軸関節が不安定な期間を認めることがある。

文献

- 1) Crossman JE, David K, Hayward R et al : Open reduction of pediatric atlantoaxial rotatory fixation : long-term outcome study with functional measurements. *J Neurosurg* **100**(3 Suppl Spine) : 235-240, 2004.
- 2) Crossman JE, Thompson D, Hayward RD et al : Recurrent atlantoaxial rotatory fixation in children : a rare complication of a rare condition. Report of four cases. *J Neurosurg* **100**(3 Suppl Spine) : 307-311, 2004.
- 3) Ishii K, Toyama Y, Nakamura M et al : Management of chronic atlantoaxial rotatory fixation. *Spine* **37** : E278-285, 2012.
- 4) 日下部浩 : 環軸関節回旋位固定に対する牽引治療. 別冊整形外科 **64** : 56-62, 2013.
- 5) Lavelle WF, Palomino K, Badve SA et al : Chronic C1-C2 Rotatory Subluxation Reduced by C1 Lateral Mass Screws and C2 Translaminar Screws : A Case Report. *J Pediatr Orthop* **37** : e174-e177, 2017.
- 6) Li V, Pang D : Atlanto-axial rotatory fixation. In : Pang D, ed. *Disorders of the Pediatric Spine*. New York, Raven Press, 9th ed., 531-553, 1995.
- 7) Pang D : Atlantoaxial Rotatory Fixation. *Neurosurgery* **66** : A161-A183, 2010.
- 8) Subach BR, McLaughlin MR, Albright AL, et al : Current Management of Pediatric Atlantoaxial Rotatory Subluxation. *Spine* **23** : 2174-2179, 1998.
- 9) Tauchi R, Imagama S, Kanemura T et al : The treatment of refractory atlanto-axial rotatory fixation using a halo vest : results of a case series involving seven children. *J Bone Joint Surg* **93-B** : 1084-1087, 2011.
- 10) 鷺崎郁之, 大城義竹, 六角高祥ほか : 左右に環軸椎回旋位固定を生じたダウン症児の 1 例. 整形外科 **65** : 791-795, 2016.