当科で経験した AARF 難治性症例についての検討

熊本大学 整形外科

坂 本 吉 弘・中 村 孝 文
池 田 天 史・菊 池 太 朗
高 木 克 公

A Report of Difficult case of Atlanto-Axial Rotatory Fixation

Yoshihiro Sakamoto, Takafumi Nakamura, Takashi Ikeda,
Taro Kikuchi, and Katsumasa Takagi

Department of Orthopaedic Surgery, Kumamoto University School of Medicine, Kumamoto, Japan.

Atlanto-axial rotatory fixation is often seen in childhood. We experienced two difficult cases of children's atlanto-axial rotatory fixation.

The first case was a 9-year-old girl who developed torticollis after experiencing pain in the right side of her neck and a fever. 3 months later, she visited our hospital and was admitted. CT scan revealed atlanto-axial rotatory fixation.

She was put on neck traction for 3 weeks (Grissom type), but reduction was not complete. The treatment was therefore changed to skull traction. Her deformity was corrected. However torticollis recurred, and she was put on Halo-vest for 3 months.

The second case was a 6-year-old girl who had been treated with Juvenile Rheumatoid Arthritis since she was 5. She generally developed neck pain. Subsequently trismus and torticollis appeared before 3 months before she visited our hospital. Atlanto-axial rotatory fixation was confirmed in CT scan and plain radiograph. Torticollis was corrected easily by skull traction, but deformity recurred soon after. Neck deformity improved by increasing aspirin dosage, however torticollis remained slightly.

Key words : Atlanto-Axial Rotatory Fixation (環軸推回旋位固定), Grisel syndrome (グリーゼル症候群), JRA (若年性関節リウマチ)

はじめに

Atlanto-axial rotatory fixation (以下 AARF) は特に小児でしばしばみられる疾患である。基本的には予後良好な疾患であるが、時に治療に抵抗し難治性となる症例もある。当科において最近経験した難治性の小児 AARF 2 症例を若干の文献的考察を加え報告する。

症 例

【症例 1】

9 才, 女性。

〔主訴〕 頸部痛, 斜頸。

〔現病歴〕 平成 8 年 11 月, 右側頸部痛と共に, 斜頸を呈し同時に同部の腫脹, 39 度台の熱発が出現した。近医で抗生物質等の投与を受け, 解熱, 腫脹も消退したが, 斜頸, 頸部の可動域制限が持続した。12 月,

近医受診し、炎症性斜頸の診断のもとポリネックによる治療を受けた。しかし斜頸が持続するため平成9年1月、発症後3ヶ月し、当科入院となった。

〔出生歴〕 特記すべきことなし。

〔既往歴〕 特記すべきことなし。

〔現症〕 顔面の非対称はなく、頸部の左回旋、右側屈位のいわゆる cock robin position を呈していた。右への著明な回旋制限を認め、右頸部の圧痛を認めた。(図1) 明らかな神経脱落症状はなかった。

図1 症例1

頸部の左回旋、右側屈位の cock robin position を呈した。

〔画像所見〕

- ・単純レントゲン：側面にて環椎の tilting, 環椎, 軸椎の椎弓間距離の拡大が見られる。(図2)
- ・単純CT：軸椎に対して環椎, 頭部は左に回旋している。(図2)
- ・3D-CT：左へ37°の回旋を示している。(図3)

〔経過〕 入院の上、約3週間のグリソン牽引を行ったが、十分な整備が得られず、全身麻酔下のハローリング装着後、頭蓋直達牽引を約2週間施行した。可動域

図3 症例1の3d-CT

3D-CT：左へ37°の回旋を示している。

(a)

(b)

図2 症例1の初診時単純レントゲン写真(a)およびCT(b)。

- (a) 側面にて環椎の tilting, 環椎, 軸椎の椎弓間距離の拡大が見られる。
 (b) 軸椎に対して環椎, 頭部は左に回旋している。

もほぼ良好となり、CT 上も回旋の消失を見たため、ハロー除去、フィラデルフィア装具による外固定に変

図 4 症例 2

右回旋，左側屈の cock robin position を認めた。

更した。ところが，4 日で再び頸椎可動域の減少，回旋の兆候が出現した。難治例と判断し，再びハローリング装着の上，ハローベスト固定とした。CT 上も環椎の回旋は消失したが，3 カ月の長期の固定が必要であった。

【症例 2】

6 才，女性。

〔主訴〕斜頸。

〔現病歴〕5 歳時発症の若年性関節リウマチにてアスピリンを投与されていた。平成 11 年 3 月頸部痛，開口障害などが出現し，同時に頸椎が右に回旋したまま動かなくなった。外用剤のみで約 2 カ月間以上経過観察されたが，症状不変なため発症後 3 ケ月経過し，6 月当科入院となった。

〔出生歴〕特記すべきことなし。

〔既往歴〕5 歳時発症の若年性関節リウマチ，アスピリン投与中。

〔現症〕右回旋，左側屈の cock robin position を認めた。（図 4）明らかな神経学的所見はなかったが，入院時，薬剤性と考えられる肝機能障害を認めた。

〔画像所見〕

(a)

(b)

図 5 症例 2 の初診時単純レントゲン写真。(a) 前屈，(b) 後屈伸。
前屈時に AD17mm と環軸椎不安定性を認め，環椎の tilting を認める。

図6 症例2の単純CT.
環椎の10°の右回旋を認める。

・単純レントゲン：前屈時に ADI7mm と環軸椎不安定性を認め、環椎の tilting を認める。(図5)
・単純 CT：環椎の10度の右回旋を認める。(図6)
〔経過〕入院後、約3週間のハローリングによる頭蓋直達牽引を施行、CT上環椎の回旋の解除、頸椎の全可動域の再獲得に至ったため、直達牽引を除去し、フィラデルフィア固定とした。しかし数日のうちに再び頸椎の回旋傾向、可動域の減少が出現した。引き続き在宅でのグリソン牽引の続行、アスピリンの増量などによって経過観察しているが、可動域障害、頸部痛は軽度残存している。

考 察

しばしば小児でみられる AARF の多くは、軽度で、短期間に疼痛の消失、整復位が得られるが、まれに、難治性となる例が報告されている。1968年に wortzman と dewar ら¹⁾によって AARF の概念が示唆された。1977年、fielding ら²⁾は抵抗性の斜頸を示し、環椎のレントゲン上の固定を伴うものと AARF を定義し、4つのタイプに分類している。今回提示した症例はCT上症例1が type I、症例2が type II の AARF であった。AARF の原因として、主に minor trauma による外傷性のもの、及び炎症によるものがある。若年性関節リウマチ (JRA) は AARF を伴うものも多い。近年では、seronegative spondyloarthropathy にも合併例が報告されている⁴⁾。古くから耳鼻咽喉斜頸として知られる Grisel syndrome は上気道炎に引き続く斜頸を呈する疾患で、AARF の合併頻度が高い⁸⁾。

今回提示した2症例の病態を考えると、症例1は、

頸部、咽頭部のなんらかの感染から発生した Grisel syndrome による AARF、症例2は、JRA による環軸椎関節の炎症の増悪による AARF と考えられる。両者とも、滑膜の増生による横靭帯、関節包の弛緩、不安定性に引き続く環椎の回旋位固定が生じているものと考えられる。

診断のポイントは、既往歴、現病歴に対する注意が必要であり、頸部は、特徴的な cock robin position と言われる斜頸位をとり、弾発性固定となる。開口位撮影、機能写、等で診断を行うが小児の場合、単純レントゲンで鮮明な画像は得られ難いこともある。診断を確実にし、治療効果を判定するうえでも CT の活用を考えるべきであろう。

AARF が小児に多い理由として、関節包が緩く、環軸椎関節面が水平であることなどが上げられている。また、手術報告例から、組織学的に関節面の介在物や環軸椎間の骨性連結、強い瘢痕組織が確認されている¹⁾³⁾。

本2症例はいずれも2カ月以上に及ぶ保存療法によっても回旋位固定の解除が得られず、結果的に難治例に移行したものである。1例に関しては、保存療法で整復位を獲得できたが、もう1例については、原疾患の JRA の増悪がしばしばみられ、再発がみられている。AARF の治療開始時期は、Schwarz ら¹⁰⁾によると、外傷の場合は8日以内、その他の場合は、30日以内の治療開始、それ以上の場合は難治例や手術例に移行する可能性があるとしている。不幸にして、保存療法で治療不可能な場合は、前方解離や、後方固定術で治療は可能であるが、頸椎の回旋機能の損失が起る。

結 語

1. 最近経験した2例の AARF 難治症例について報告した。
2. 2例に対し保存的加療を行い、1例は整復が得られたが、他の1例については、回旋位固定の再発がみられている。
3. AARF は、早期の診断治療、また原疾患の治療が重要と考える

参 考 文 献

- 1) Crockard, H A. : Open Reduction of Traumatic Atlanto-Axial Rotatory Dislocation with Use of the Extreme Lateral Approach. A Report of Two Cases J

- Bone and Joint Surg., 78-A : 431-436, 1996.
- 2) Fielding J. W. Hawkins RJ : Atlanto-Axial Rotatory Fixation. J Bone and Joint Surg., 59-A : 37-44, 1977.
 - 3) Goto S. et al. : Transoral Joint Release of the Dislocated Atlantoaxial Joints Combined with Posterior Reduction and Fusion for a Late Infantile Atlantoaxial Rotatory Fixation. A Case Report Spine., 23 : 1485-1489, 1998.
 - 4) Haasbeek J F. Lessard, J. A. : Isolated Atrantoaxial Rotatory Fixation in a Child with Seronegative Spondyloarthropathy Presenting with Torticollis. J Rheumatol., 25 : 169-172, 1998.
 - 5) 蓮江文男ほか : 後側方到達法により矯正を得た陳旧性環軸椎回旋位固定の1例. 臨整外., 34 : 229-232, 1999.
 - 6) 五十嵐一郎, 富田勝郎 : Spontaneous atranto-axial rotatory fixation の1治験例. 整形外科., 31 : 1002-1006, 1980.
 - 7) 片山直樹ほか. : 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.
 - 8) Lopes D K. Li V. : Midcervical Postinfectious Ligamentous Instability : A Variant of Grisel's Syndrome. Pediatr Neurosurg., 29 : 133-137, 1998.
 - 9) Kawabe, N Hirotani H. Tanaka O. Pathomechanism of Atolantoaxial Rotatory Fixation in Children. J Pediatr Orthop., 9 : 569-574, 1989.
 - 10) Schwarz N. : The fate of missed atlanto-axial rotatory subluxation in children. Acta Orthop trauma Surg., 117 : 288-289, 1998.
 - 11) Wortzman G., and Dewar F. P : Rotary Fixation of the Atlantoaxial Joint : Rotational Atlantoaxial Subluxation. Radiology, 90 : 479-487, 1968.
 - 12) Uziel Y. et, al. : Torticollis as the Solo Initial Presenting Sign of Systemic Onset Juvenile Rheumatoid Arthritis. J Rheumatol., 25 : 166-168, 1998.