症 例 報 告

著明な頸部痛と可動域制限で発症した結晶誘発性環軸関節周囲炎の1例

高橋 千晶, 福田 修, 小山 新弥, 藤原 稔泰*,
 亀田 宏, 遠藤 俊郎**

A Case of An Acute Crystal Periarthritis of The Atlanto-Axial Joint
 with Severe Neck Pain and Restricted Neck Movement

by

Chiaki Takahashi, M.D., Osamu Fukuda, M.D., Shinya Koyama, M.D., Toshiyasu Fujiwara, M.D.*,
 Hiroshi Kameda, M.D., Shunro Endo, M.D.**

from

Department of Neurosurgery, Saito Memorial Hospital
 Department of Orthopaedic Surgery, Saito Memorial Hospital*
 Department of Neurosurgery, University of Toyama**

A 54-year-old female complained progressive severe neck pain and restricted neck movement after making lots of deep bows. Her axial CT showed calcification around the atlanto-axial joint. Under a diagnosis of acute crystal-induced periarthritis, we treated her by prednisolone (15mg per day for one week). Her severe neck pain improved quickly after two days. Calcification around the atlanto-axial joint on the CT vanished after one month. So we suspected it was acute inflammatory change induced by hydroxyapatite crystal.

Acute crystal periarthritis of this portion is very rare. It is important to treat by steroid quickly, when calcification around atlanto-axial joint with severe neck pain and restricted neck movement is diagnosed by CT scan.

Key words: atlanto-axial joint, crystal induced periarthritis, calcification, hydroxyapatite

Spinal Surgery 20 (4) : 253~256, 2006

はじめに

結晶誘発性関節周囲炎は、日常臨床において遭遇する疾患であるが、環軸関節に急性発症することは極めて稀である。

頸部の前屈動作を頻回に繰り返していたところ、耐えられないほど強い頸部痛と可動域制限で入院し、CTスキャンで環軸関節周囲に石灰沈着性の病変を認め、ステロイド投与が著効した結晶誘発性環軸関節周囲炎と考えられた稀な1例を経験したので文献的考察を加え報告する。

症 例

患者：54歳の女性。

主訴：強い頸部痛と頸部可動域制限

既往歴：特記すべきものはなし。上皮小体機能異常、甲状腺機能異常、腎透析の既往はない。

現病歴：2005年7月、市町村合併により定数削減となった選挙に出馬した夫の支持者回りで、連日数百回もお辞儀を繰り返していた。7月16日早朝より左後頸部痛が出現し次第に増強したため、同日夜、当院救急外来を受診した。後頸部中心に安静時痛、全方向性の運動痛を訴えたが、神経学的異常所見はないため、非ステロイド性抗

(Received : June 16, 2006, Accepted : November 7, 2006)

齋藤記念病院 脳神経外科, 齋藤記念病院 整形外科*, 富山大学医学部 脳神経外科** (連絡先: 高橋千晶, [現籍] 〒930-0194 富山大学救急災害医学講座, 富山県富山市杉谷2630) Address reprint request to: Chiaki Takahashi, M.D., Department of Acute medicine, University of Toyama, 2630, Sugitani, Toyama city, Toyama, 930-0194 Japan

Fig. 1: Axial CT scan of upper cervical region demonstrating calcification in atlanto-axial joint before medication.

Fig. 2: We estimated nearly CT value on calcification from point A and B.

炎症剤、筋弛緩剤を処方され帰宅した。しかしその後、頸部痛と可動域制限がさらに増強し、耐えがたい痛みとなったため、7月19日精査加療目的で入院となった。
 検査所見：血液検査上、白血球数は6300と正常値であった。単純X線写真で歯突起後方に淡い石灰化像を認め、CT (Window Level 200, Width 2000) 画像では環軸関節周囲の歯突起左側に石灰沈着を認めた (Fig.1)。CT画像のA点とB点のCT値は500~1000の範囲内にあった (Fig.2)。

治療経過：結晶誘発性の環軸関節の急性関節炎を疑い、頸部の安静、頸椎装具の使用とともに、プレドニゾロン15mgを連日1週間投与した。投与開始後2日間で、速やかに症状は改善し、7月27日退院した。退院後ステロイドは漸減中止し、頸部痛と可動域制限は完全に消失した。1ヶ月後のCT画像でも同部位の石灰沈着像はほぼ消失した (Fig.3)。

考 察

今回の症例の特徴は、頸部の機械的な動きにより生じた非常に強い急性炎症で、CT画像上、CT値500~1000 (血腫ではCT値40~60) の明瞭な石灰沈着所見を認め、ステロイド投与により急激に症状が消失し、それに伴い石灰沈着も消失したことである。このような石灰沈着をともなう急性炎症は、肩関節・膝関節など大関節では日常診療上見られるものの環軸関節では報告が極めて少ない。

沈着物質および病態として、石灰沈着をともなう急性滑膜炎 (関節炎、関節周囲炎、滑液包炎など) には、(1) 尿酸による痛風、(2) ピロリン酸カルシウム (以下CPPD) による偽痛風、(3) 塩基性リン酸カルシウム (ハイドロキシアパタイト) 沈着による滑膜炎がある。尿酸による痛風に関しては単純X線写真では石灰沈着を伴うことは稀であり、今回の症例に関しては、後二者が想定される。

CPPDの結晶沈着は、膝関節では半月板や滑膜内や関節軟骨内の石灰沈着として認められ、偽痛風発作が治まっても自然に消失することはほとんどなく、経年的に石灰沈着は増強しやすい [7]。結晶沈着の原因は、高齢者の変形性関節症で見られることから、加齢に密接に関連していると考えられるが、軟骨細胞の無機ピロリン酸の代謝異常も指摘されている [8]。環軸関節部のCPPD結晶による急性炎症の報告は少なく、松橋らの環軸椎部の偽痛風2例の報告も、後環軸椎靱帯内に結晶沈着が生じ、その腫瘍による神経圧迫が症状を起こしたのが主因で、腫瘍の切除により症状は消失している [9]。よって本症例は急性発症であり、石灰沈着が速やかに改善している点でCPPDの結晶沈着とは考えにくい。

ハイドロキシアパタイトの結晶沈着は、肩峰下滑液包や肩腱板など肩関節では散見されるが、肩関節以外にも股関節、肘関節、手関節、手指などに幅広く生じると報告されている [10]。動物実験で、ハイドロキシアパタイトの結晶沈着が急性炎症反応を起こすことが証明されている [11]。結晶の沈着・吸収のメカニズムについて

Fig. 3: Axial CT scan of upper cervical region demonstrating improvement of calcification in atlanto-axial joint after 1 month from previous CTscan.

は、細胞内のオステオポンチンがその制御に関係しているという報告もあるが [11], 急性炎症が起きるかどうかを決定する要因は不明で、結晶の性状とは関連していないようである [4]. 環軸関節部の結晶沈着が慢性に経過し、次第に増大して頸部の可動域制限や神経圧迫症状を呈した症例の報告があり [2, 5, 6, 12], また、環椎横靱帯の石灰化は高齢者では散見され、頸椎CTで700例中40例に石灰化を認めたという報告もある [14]. 急性期の治療は、安静、冷却、可能であれば液状沈着結晶の穿刺吸引除去、可能であればステロイドを局所注入する。局所注入が不可能ならステロイドを全身投与し、改善が無ければ外科的除去が望ましいと報告されている [3, 13]. 我々の症例では局所注入が困難なため、ステロイドの全身投与を行い、著効したものである。本症例では組織診断がなされておらず、明確な病名は不明であるが、解剖学的に靱帯の走行とは石灰沈着が一致しておらず、環椎横靱帯の石灰化とは異なるものであり、臨床経過やステロイドに対する反応性から、ハイドロキシアパタイト結晶による結晶誘発性の環軸関節周囲炎が最も疑わしいと考えた。強い頸部痛と可動域制限を呈する症例に対しては、早期に頸椎のCTを施行し、環軸関節部に炎症性の石灰沈着を認めた場合早期にステロイドの投与を考慮する必要がある。

結 語

頸部の頻回な前屈動作が誘引となり生じた、ハイドロキシアパタイト結晶沈着をともなう結晶誘発性環軸関節周囲炎と考えられた1例を報告した。早期診断とステロイド投与が望ましいと考えた。

文 献

1. Dieppe PA, Crocker P, Huskisson EC, et al: Apatite deposition disease. A new arthropathy. *Lancet* 1: 266-269, 1976
2. Dirheimer Y, Bensimon C, Wackenheim C, et al: Symdesmo-odontoid joint and calcium pyrophosphate dihydrate deposition disease (CPPD). *Neuroradiol* 25: 319-321, 1983
3. Garcia GM, McCord GC, Kumar R: Hydroxyapatite crystal deposition disease. *Semin Musculoskelet Radiol* 7: 187-193, 2003
4. 浜田純一郎, 大野 弥, 玉井和哉: 肩石灰性腱炎における急性、慢性炎症経過は結晶の性状差で起こるか. *肩関節* 28: 301-304, 2004
5. Heldo G, Samuel M, Chou: Myeloradiculopathy secondary to pseudogout in the cervical ligamentum flavum. Case report. *Neurosurg* 25: 298-302, 1989
6. Kakitsubata Y, Boutin RD, Resnick D, et al: Calcium pyrophosphate dihydrate crystal deposition in and around the atlantoaxial joint: association with type 2 odontoid fracture in nine patients. *Radiology* 216: 213-219, 2000
7. 加藤 隆, 岩田岳志, 加藤哲司ら: CPPD結晶沈着症のX線診断. *膝* 18: 146-149, 1993
8. 益田郁子: 結晶沈着性関節症. *CONNECTIVE TISSUE* 31: 88, 1999
9. 松橋智弥, 種市 洋, 須田浩太: 環軸椎に発生したCPPD結晶沈着症 (偽痛風) の2例. *北海道整形災害外科学会雑誌* 45: 24, 2004
10. 末松典明, 菅原 修, 片山 耕: 有痛性の石灰沈着性関節周囲炎 (肩を除く) 20例の検討. *中部日本整形外科学会雑誌* 37: 1163-1169, 1994
11. 菅本一臣, 乾 浩明, 原田 拓ら: 石灰性腱炎の石灰沈着の分子制御機構. *肩関節* 25: 193-196, 2001
12. Sutro J Charles: Calcification of the anterior atlanto-axial ligament as cause for painful

swallowing and for painful neck. J Bone & Joint Surg Dec 46A: 1753, 1964

13. 上田礼子, 藤本輝世子, 菅原幸子ら: 疼痛性石灰沈着症. CONNECTIVE TISSUE 1: 38, 1969
14. Zapletal J, Hekster RE, Hermans J, et al: Association of transverse ligament calcification with anterior atlanto-odontoid osteoarthritis: CT findings. Neuroradiol 37: 667-669, 1995

Reviewer's comment : 秋野 実 (札幌麻生脳神経外科病院)

強い頸部痛頸椎可動域制限を呈する症例では、常に頭蓋頸椎移行部の病変を考えなければならない。特に小児の場合、環椎軸椎亜脱臼を念頭に入れなければならないが、本症例のように、選挙運動での日本的慣行のお辞儀がこのような強烈な頸部痛を引き起こしたことは興味深い症例である。保存療法のため結晶誘発性の関節周囲炎の病理学的証明はなされていないが、画像所見で石灰沈着とその吸収過程が明確に示されており、本論分は十分な価値を有するものと考えられる。

Reviewer's comment : 寶子丸 稔 (大津市民病院 脳神経外科)

本報告では環軸関節周囲に一過性の石灰沈着性の病変を認めた非常に稀な症例が記述してあります。CTでは病変は左側で、歯突起は若干右側へ変移しており軽度のmass effectが認められます。痛みは左側に局限していることより、病変による局所的な刺激により痛みが発生していることが示唆されます。保存的加療により症状が改善するとともに1ヶ月後のCTでは歯突起の変移は解消され正中に戻っています。手術がなされていないために実際に何が沈着したかは不明ですが、著者らは臨床像から塩基性リン酸カルシウムの沈着ではなかったかと推論しておられます。おそらくは肩関節で時々遭遇する石灰沈着性腱板炎calcific tendinitisが環軸関節に発生したものであると思われます。将来このような症例に遭遇した際に治療方針を決定する上で本報告は有用であると考えられます。