Chiari I 型奇形に対する大孔部減圧術後に環椎前弓骨折を生じた 1 例

Anterior Arch Fracture of the Atlas Following Foramen Magnum Decompression for Chiari Malformation

佐野 透^{*1} 磯島 晃^{*1} 橋本 啓太^{*1} 荒川 秀樹^{*1}
栃木 悟^{*2} 松本 賢芳^{*1} 村山 雄一^{*3}

Tohru Sano, M.D. ^{*1}, Akira Isoshima, M.D. ^{*1}, Keita Hashimoto, M.D. ^{*1}, Hideki Arakawa, M.D. ^{*1},
Satoru Tochigi, M.D. ^{*2}, Masayoshi Matsumoto, M.D. ^{*1}, Yuichi Murayama, M.D. ^{*3}

Abstract

Fracture of the anterior arch of the atlas is a rare complication of foramen magnum decompression (FMD) for Chiari malformation. We report a case of a fracture of the anterior arch of the atlas after FMD. A 42-year-old woman was referred to our hospital from a nearby clinic where Chiari malformation and syringomyelia were incidentally detected during head magnetic resonance imaging (MRI) examination for headache. We performed FMD and tonsillectomy for the Chiari malformation. The patient had an uneventful postoperative course and was in good condition when discharged. She developed neck pain without any preceding incident approximately 7 months after surgery. Subsequently, she experienced neck pain during flexion, extension, and sneezing. Neck computed tomography (CT) performed at a nearby clinic revealed a fracture of the anterior arch of the atlas, and she was referred to our hospital once again. Although neck radiography did not confirm an instability of the craniocervical junction, the neck pain progressed; thus, posterior atlantoaxial fusion was performed. Due to the thinning of the C2 vertebral pedicles, part of the C2 vertebral arch was removed during FMD, and pars screws were inserted into the C2 vertebra with lateral mass screws inserted into the C1 vertebra. The subsequent postoperative course was uneventful. Three cases have been reported in the literature, and the mechanism of injury (e.g., trauma) was not confirmed in all of them. Posterior fusion was used in 2 cases, external immobilization with a halo vest was used in 1 case, and fracture healing was achieved with a good prognosis in all three cases. When neck pain develops a few months after FMD, fracture of the anterior arch of the atlas should be suspected and preferably confirmed using CT.

(Received : November 18, 2019 ; accepted : February 4, 2020)

Key words

anterior arch fracture of the atlas, foramen magnum decompression, Chiari malformation

^{*1} 大森赤十字病院脳神経外科／Department of Neurosurgery, Omori Red Cross Hospital

連絡先：〒143-8527 大田区中央4-30-1 大森赤十字病院脳神経外科 佐野 透 [Address reprint requests to : Tohru Sano, M.D., Department of Neurosurgery, Omori Red Cross Hospital, 4-30-1 Chuo, Ota-ku, Tokyo 143-8527, Japan]

^{*2} 東京慈恵会医科大学附属柏病院脳神経外科／Department of Neurosurgery, Jikei University Kashiwa Hospital

^{*3} 東京慈恵会医科大学脳神経外科／Department of Neurosurgery, Jikei University School of Medicine

緒言

Chiari I 型奇形に伴う脊髄空洞症の発生原因は、小脳扁桃の下垂による大孔部での髄液流通障害と考えられ、それに対する大孔部減圧術 (foramen magnum decompression: FMD) の有用性はほぼ確立されたものといえる^{1,2)}。減圧方法としては後頭下開頭と C1 椎弓切除、硬膜形成を行うことが多いが、当院では全例で後頭下開頭と C1 椎弓切除、硬膜形成を行っている。また、小脳扁桃下垂の程度により C2 部分椎弓切除や小脳扁桃切除を追加して行っている³⁻⁵⁾。FMD 後の合併症としては髄液漏、偽性髄膜瘤、髄膜炎、創部感染症、神経障害が主である⁶⁾。われわれは 1984 年以降、関連施設を含めて 700 例以上の Chiari 奇形患者に対して FMD を施行してきたが、術後に固定術を必要とする合併症は 1 例も経験しなかった。文献上も FMD 後に環椎前弓骨折を生じた報告は少なく、非常にまれである^{7,8)}。今回われわれは、FMD 後に外傷機転なく環椎前弓骨折を生じた 1 例を経験したため報告する。

症例提示

患者：41 歳、女性

既往歴：特記すべき事項なし

現病歴：以前からの頭痛を主訴に近医を受診した。頭部 MRI 撮影を施行すると、小脳扁桃は C1 レベルまで下垂し、C2~6 レベルに脊髄空洞症を認め (Fig. 1 a)、Chiari I 型奇形の診断で当院へ紹介受診した。頭痛以外には神経学的所見に異常はなく、Chiari I 型奇形・脊髄空洞症に対して FMD を施行した。後頭下開頭と C1 椎弓切除に加えて、C2 部分椎弓切除、小脳扁桃切除を行い、硬膜は Gore-Tex を用いて硬膜形成した。術後に頭痛症状は改善し、特に問題なく経過した。術後 11 日目に独歩退院し、術後 4 カ月後の頸椎 MRI 撮影で C2~6 レベル

にみられていた脊髄空洞は縮小を認めた (Fig. 1 b)。術後 7 カ月頃に特に誘引なく頸部痛を自覚した。その 2 カ月後、頸部を後屈した際に激しい頭痛が出現し、その後は頸部の前後屈時やくしゃみ時に頸部痛を自覚するようになった。近医で頸椎 CT を施行し環椎前弓骨折を指摘されたため、当院を紹介受診した。

来院時現症および神経放射線学的検査：頸部の前後屈時の疼痛を認めるほかには、麻痺や感覚障害は認めなかった。頸椎 CT 撮影で環椎前弓骨折を認め (Fig. 2)、頸椎動態撮影では atlanto-dental interval の開大はなく、明らかな不安定性は認めなかった。まずは、頸椎カラー装着による外固定で 1 週間の経過をみたが、環椎前弓骨折の離開が進行し、頸部痛も増悪傾向であることから手術を行う方針となった。

手術：Goel Harms 法で環軸椎固定術を施行した (Fig. 3 a~c)。C1 は lateral mass screw を挿入し、C2 は椎弓根が細く、FMD 後で C2 椎弓を部分切除していたため pars screw を挿入した。その際に C2 神経根は避けて温存した。後腸骨稜より移植骨を採取し、C1、C2 の decortication を行い、移植骨を on-lay した。C1 のスクリューヘッドに transverse plate を追加し、C1/2 をロッドで締結した。

手術後の経過：頸部痛は手術後より速やかに消失し、術後 2 週間で自宅退院した。その後は外来で経過観察をしており、固定後 3 カ月の経過で環椎前弓の癒合が得られた (Fig. 3 d)。

考察

環椎骨折は軸方向への負荷によって生じ、1927 年に Jefferson が初めて報告した⁹⁾。頭蓋頸椎移行部損傷の 25%、頸椎損傷の 3~13%、全脊椎損傷の 1~3% を占め、通常は高エネルギー外傷を契機とし、おもな受傷機転は自動車での交通事故や転落などである¹⁰⁾。しかし、本症

Fig. 1

- a : Preoperative magnetic resonance imaging (MRI) confirming herniation of the amygdala extending inferiorly to the C1 vertebra and the syrinx between the C2 and C6 vertebrae.
b : MRI confirming a reduction in the size of the syrinx 4 months after surgery.

Fig. 2

- a : Preoperative neck computed tomography (CT) showing no thinning of the anterior arch of the atlas.
 b : Postoperative neck CT showing no fracture of the anterior arch of the atlas.
 c, d : Neck CT confirming a fracture of the anterior arch of the atlas 7 months after surgery.

Fig. 3

- a~c : Postoperative neck computed tomography (CT) (a, b : axial view, c : sagittal view) demonstrating appropriately inserted C1 lateral mass screws and C2 pars screws.
 d : Healed fracture of the anterior arch of the atlas 3 months after atlantoaxial fusion

Table 1 Literature review of anterior atlas fracture following FMD

Author/ year	Age (y)	Sex	Operation	Interval (months)	Symptom	C1/2 instability	Treatment	Fusion	Outcome
O'Shaughnessy/ 2004 ⁷⁾	18	F	FMD	5	Neck pain	Yes	Fixation C1 to C3	Yes	No pain
O'Shaughnessy/ 2004 ⁷⁾	49	F	FMD	6	Neck pain	No	Halo-vest	Yes	No pain
Hirano/2011 ⁸⁾	63	M	FMD	5	Neck pain	Yes	C1/2 fixation	Yes	No pain
Current case	42	F	FMD	7	Neck pain	No	C1/2 fixation	Yes	No pain

FMD : foramen magnum decompression

例では受傷機転と思われるような事象は認めなかった。

Chiari I 型奇形に対する FMD 後に環椎前弓骨折を生じた例は、われわれが渉猟したかぎりでは本症例も含めて 4 例のみであった^{7,8)} (Table 1)。FMD 術後から環椎前弓骨折を生じるまでの期間は 5~7 カ月で、いずれも頸部痛で発症し、誘引となるような外傷など受傷機転は認めなかった。また治療に関して、本症例では頸椎カラーによる外固定では頸部痛は改善せず、環椎前弓骨折の離開も進行していたため後方固定術を施行した。報告例の 2 例では C1/2 の不安定性を認めたため後方固定術を行い、1 例は不安定性を認めなかったためハローベスト装着による外固定を行った。いずれの症例も骨癒合が得られ、頸部痛も消失し予後は良好であった。

Shimizu ら¹¹⁾ は、C1 椎弓切除後の変化に関して、後弓切除により椎弓の連続性が絶たれることで、軸圧が環椎

の外側に広がる力に変換されて前弓への応力が集中すると報告している。また、正常環椎、後弓切除後環椎、横靭帯切除後環椎の 3 つのモデルに対して、軸圧が環椎前弓に負荷する相当応力の分布を、有限要素法モデルを用いて比較している。その結果、環椎後弓切除後モデルの前弓に負荷する相当応力は正常環椎モデルの最大 3.55 倍であり、特に負荷がかかりやすい頸部の姿勢は伸展と側屈であった¹¹⁾。これらのことは、低エネルギーでも環椎前弓骨折が生じる可能性を示唆している。また、術前の頸椎 CT における環椎前弓骨折のリスク因子として、冠状断での C1 inferior facet の角度が大きいことや、矢状断での C2 以下の bony ankylosis が挙げられている¹²⁾。

Chiari I 型奇形 FMD 後の症例では環椎前弓骨折時にいずれも頸部痛を認めていたが、歯突起後方偽腫瘍に対する C1 椎弓切除後の症例では無症候性に環椎前弓骨折

を生じた例も報告されている¹¹⁾。後弓切除後の前弓に対する応力の変化を考慮すると、C1 椎弓切除後の経過で無症候性に前弓骨折を生じている例は報告例以上にみられている可能性も考えられ、注意深い経過観察が必要である。

結 語

Chiari I 型奇形に対する FMD 後に環椎前弓骨折を生じた 1 例を経験した。外傷などの受傷機転がなく発症しており、椎弓切除により環椎前弓に対する相当応力が変化することが原因であると考えられた。他疾患では無症候性に環椎前弓骨折を生じた報告もあるが、FMD 後に術後数カ月の経過で出現した頸部痛に対しては環椎前弓骨折を念頭に置く必要があり、CT 検査などを行うことが望ましいと考える。

利益相反開示

本論文に関して、開示すべき COI はありません。

文 献

- 1) Heiss JD, Suffredini G, Smith R, et al : Pathophysiology of persistent syringomyelia after decompressive craniocervical surgery. Clinical article. *J Neurosurg Spine* 13 : 729-742, 2010
- 2) Heiss JD, Suffredini G, Bakhtian KD, et al : Normalization of hindbrain morphology after decompression of Chiari malformation Type 1. *J Neurosurg* 117 : 942-946, 2012
- 3) 井須豊彦, 岩崎喜信, 秋野 実, 他 : 脊髓空洞症に対する外科治療. *Neurol Med Chir* 29 : 728-734, 1989
- 4) 阿部俊昭, 長島弘泰, 村山雄一 : MRI による脊髓空洞症に対する最適手術の選択. *脊髓外科* 8 : 12-17, 1994
- 5) 谷 諭, 阿部俊昭, 長島弘泰, 他 : Chiari 奇形の外科治療. *脳外誌* 17 : 293-298, 2008
- 6) Arnautovic A, Splacski B, Boop FA, et al : Pediatric and adult Chiari malformation Type 1 surgical series 1965-2013 : a review of demographics, operative treatment, and outcomes. *J Neurosurg Pediatr* 15 : 161-177, 2015
- 7) O'Shaughnessy BA, Salehi SA, Ali S, et al : Anterior atlas fracture following suboccipital decompression for Chiari 1 malformation. Report of two cases. *J Neurosurg Spine* 1 : 137-140, 2004
- 8) Hirano Y, Sugawara A, Mizuno J, et al : Spontaneous C1 anterior arch fracture as a postoperative complication of foramen magnum decompression for Chiari malformation type 1. *Surg Neurol Int* 2 : 138, 2011
- 9) Jefferson G : Remarks on fractures of the first cervical vertebra. *Br Med J* 2 : 153-157, 1927
- 10) Kakarla UK, Chang SW, Theodore N, et al : Atlas fractures. *Neurosurgery* 66 : 60-67, 2010
- 11) Shimizu T, Otsuki B, Fujibayashi S, et al : Spontaneous anterior arch fracture of the atlas following C1 laminectomy without fusion : a report of three cases and finite element analysis. *J Orthop Sci* 21 : 306-315, 2016
- 12) Shimizu T, Otsuki B, Fujibayashi S, et al : Incidence and risk factors of anterior arch fracture of the atlas following C1 laminectomy without fusion. *Spine* 43 : 667-674, 2018