

当院で経験した環軸椎回旋位固定 18 例の臨床的検討

京都第二赤十字病院 小児科¹⁾, 千葉大学大学院医学研究院 小児病態学²⁾

加藤 大吾^{1,2)} 長村 敏生¹⁾ 齋藤 多恵子¹⁾
東道 公人¹⁾ 小林 奈歩¹⁾ 藤井 法子¹⁾
大前 禎毅¹⁾

要旨：2013～16年に有痛性斜頸を主訴に当院へ来院し、環軸椎回旋位固定と診断した18例（入院11例、外来7例）の臨床的特徴を後方視的に検討した。年齢は3～13歳（中央値6歳）で、先行エピソードを13例（炎症性疾患7例、外傷5例、手術後1例）に認めた。外傷例は性差がなく、5例中4例（80.0%）は整形外科を初回受診し、全例当院初診日に治療が開始された。炎症性疾患および誘因なし例はそれぞれ男女比0.17, 0.25と女児に多く、12例中10例（83.3%）が小児科を初回受診し、炎症性疾患7例中4例は当院初診から治療開始までに5～8日を要していた。頸椎3D-CTが13例（72.2%）で施行されたが、椎間関節の立体的評価が可能のため診断に有用であった。追跡し得た15例に後遺症例は認めなかった。炎症性疾患（特に女児）や誘因なし例では小児科を初診することが多く、有痛性斜頸を認める場合は本症の可能性を考えて整形外科紹介と頸椎3D-CTによる早期診断が重要と思われた。

Key words：小児、環軸椎回旋位固定（Atlantoaxial rotatory fixation : AARF）、有痛性斜頸、頸椎3D-CT、先行エピソード

はじめに

環軸椎回旋位固定（Atlantoaxial rotatory fixation : AARF）は環軸関節が回旋変形した位置で固定されて有痛性斜頸を呈する疾患である¹⁾。本症の正確な発症頻度は不明であるが、有痛性斜頸を主訴とする小児患者の中でも比較的まれな疾患とされている²⁾。

AARFは軽微な外傷や頭頸部の手術、上気道感染など頸部の炎症を契機に発症することが知られているが、原因が不明であることも少なくない³⁾。診断には頸椎CT、特に3D-CTが有用とされる^{4,5,6)}が、診断および治療開始の遅れや、保存的治療が不十分だった場合には難治化して手術を要した例や再発を繰り返した例もあり、早期診断が重要である^{7,8)}。

今回、我々はAARFの早期診断・治療を行うに際しての臨床的問題点を明らかにするために、当院で経験したAARF 18例（入院治療11例、外来治療7例）の臨床的特徴を電子カルテより後方視的に検討したので報告する。

対象と方法

2013年1月1日～2016年12月31日の4年間に当院で経験したAARF 18例（入院治療11例、外来治療7例）を対象とした。臨床記録を基に、性別、年齢、先行エピソード、初診科、頸椎画像検査所見、臨床経過、治療内容などを後方視的に検討した。なお、AARFに至る先行疾患に対し小児科的に入院加療が必要な場合、またはAARFに対し整形外科的に牽引治療が必要と判断した場合に入院適応とし、両者とも不要である場合外来加療適応とした。

初診科は有痛性斜頸出現後当院で最初に受診した診療科である。AARF病日は有痛性斜頸出現日を0日として算出した。入院治療症例の当院初診病日に関して、入院後にAARFを発症した場合はマイナス病日として記載した。また、後遺症の有無は2018年9月時点における評価である。

結 果

18例の性別は男児5例（27.8%）、女児13例

(72.2%)と女児に多く(図1), 年齢分布は3~13歳(中央値6歳5か月)であった。18例中13例(72.2%)に先行エピソードを認め, その内訳は炎症性疾患7例(53.8%), 外傷5例(38.5%), 手術後1例(7.7%)であった(表1)。治療は全例整形外科で行われており, 11例(61.1%)が入院, 7例(38.9%)が外来で開始されていた。前医からの紹介受診は「あり」が8例(44.4%:内訳は小児科4例, 整形外科3例, 内科1例), 「なし」が10例(55.6%)で, 当院の初診科は小児科11例(61.1%), 整形外科4例(22.2%), 救急科2例(11.1%), 耳鼻科1例(5.6%)であった。

頸椎画像検査は単純X線が16例(88.9%), 単純CTが16例(88.9%), 3D-CTが13例(72.2%)で施行されていた。当院初診日は-3日~約1週(中央値0.5病日), 治療開始日は0日~約1週(中央値1.5病日)であった。他院へ転院した入院例1例, 外来再診がなかった外来例2例を除く15例はいずれも観察期間中に後遺症を認めなかった。

1. 入院治療症例11例のまとめ(表2)

性別は男児2例(18.2%), 女児9例(81.8%)と女児に多く, 年齢分布は3歳~8歳(中央値6歳6か月)であった。症例3を除く11例中10例(90.9%)に先行エピソードを認め, その内訳は頸部の炎症7例(頸部リンパ節炎5例, 川崎病2

例), 外傷2例(マッサージチェアから転落, 体育授業中の後転後), 扁桃腺摘出術後1例であった。頸部の炎症性疾患に対しては小児科的に点滴加療(抗生剤またはガンマグロブリンの点滴投与)が必要であること, 外傷例に対しては整形外科の診察で頸部痛が強く頸椎カラー保持の困難が予想され牽引療法が必要であること, 扁桃腺摘出術後例は既に耳鼻咽喉科入院中で牽引療法への移行に同意が得られたことから, 入院治療適応と判断された。

11例中6例(54.5%)は当院を直接受診して同日入院となっていたが, 当院の初診科は3例が小児科, 2例が救急科, 1例が耳鼻科であった。他方, 5例(45.5%)は前医受診後の紹介入院であり, 紹介元が小児科の4例は当院小児科へ, 紹介元が整形外科の1例は当院整形外科へ紹介されていた。これらを合計すると入院例11例の当院初

表1 AARF 18例の先行エピソード

先行エピソード	例数(構成比)	
なし	5(27.8%)	
あり	13(72.2%)	
計	18(100.0%)	
「あり」の内訳	炎症性疾患	7(53.8%)
	外傷	5(38.5%)
	手術	1(7.7%)
	小計	13(100.0%)

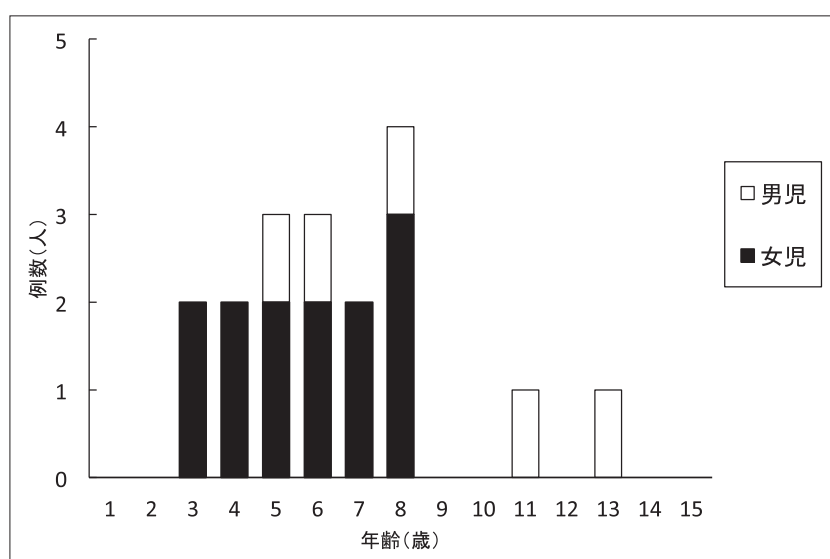


図1 AARF 18例の年齢分布と性別

表 2 AARF 入院治療症例 11 例のまとめ

症例	入院年	性別	年齢(歳)	先行エピソード	紹介元診療科	当院初診科	当院初診病日*	頚椎画像検査				治療開始病日	整形外科での治療	Glisson 牽引期間(日)	後遺症の有無
								X 線	単純 CT	3D-CT	CT 施行病日				
1	2013	女	6	川崎病	無	小児科	-2	+	+	+	15	6	頚椎カラー →Glisson 牽引	14	なし
2	2013	男	5	頸部リンパ節炎	小児科	小児科	-3	+	+	+	2	3	Glisson 牽引	8	なし
3	2014	男	8	なし	無	救急科	0	+	+	+	0	0	Glisson 牽引 →頚椎カラー	10	なし
4	2014	女	4	川崎病	小児科	小児科	0	-	+	-	7	7	Glisson 牽引 →タオルカラー	5	なし
5	2015	女	7	頸部リンパ節炎	無	小児科	3	+	+	+	3	3	Glisson 牽引 →不明	29	なし
6	2015	女	5	頸部リンパ節炎	無	小児科	0	+	+	+	5	5	Glisson 牽引 →頚椎カラー	6	なし
7	2015	女	3	頸部リンパ節炎	小児科	小児科	3	-	+	+	3	3	Glisson 牽引 →頚椎カラー	15	なし
8	2015	女	8	外傷 (マッサージ チェアから転落)	無	救急科	0	+	+	+	0	0	Glisson 牽引 →不明	不明	不明
9	2016	女	8	扁桃腺摘出術後	無	耳鼻科	0	+	+	+	0	0	Glisson 牽引 →頚椎カラー	2	なし
10	2016	女	5	頸部リンパ節炎	小児科	小児科	2	+	+	+	2	2	Glisson 牽引 →頚椎カラー	8	なし
11	2016	女	8	外傷 (体育授業中 の後転後)	整形外科	整形外科	1	+	+	+	1	1	Glisson 牽引 →頚椎カラー	3	なし

中央値
6歳6か月
(3~8歳)

病日は有痛性斜頸出現日を0日として算出した
*:入院後にAARFを発症した場合はマイナス病日とした

診科は小児科7例(63.6%)が最も多く、他に救急科が2例、耳鼻咽喉科、整形外科が各1例で、入院例の当院初診病日は-3~3日(中央値0日)であった。

頚椎画像検査はX線が11例中9例(81.8%)、単純CTは11例全例(100%)で施行されており、頚椎CTの施行病日は0~15日(中央値2日)であった。また、単純CTを施行した11例中10例(90.9%)は3D-CTも同時に撮影されており、3D-CTは立体的な評価が可能なことからX線および単純CTに比較して椎間関節の状態を確認しやすかった(図2, 3)。なお、画像検査指示の内容は全例整形外科医により決定されていた。画像検査としては単純X線が未施行の2例(症例4, 7)は整形外科対診時の担当医の指示に従い、頸部CTのみを実施した。

有痛性斜頸出現から整形外科での治療開始(症例1のみ頚椎カラー固定、残りの9例はGlisson牽引)までの期間は0~7日(中央値3日)であった。症例1は6病日にX線撮影後頚椎カラー

固定が開始されたが、9日後にも有痛性斜頸は改善せず、15病日の頚椎CT(単純CT, 3D-CT)によりAARFを確認してGlisson牽引が14日間施行されていた。症例2は頸部リンパ節炎で入院となった3日後に有痛性斜頸が出現し、リンパ節炎の炎症が改善した入院5日後(2病日)に頚椎CT・3D-CTが施行されて診断が確定し、翌日(3病日)よりGlisson牽引が開始された。前述の2例を除く9例中3例は0病日、6例は1~7病日に頚椎CTが施行されるとともに同日よりGlisson牽引が開始となった。なお、症例8のみは当院初診時に画像検査を行い、同日中に患者の希望で他院へ転院してGlisson牽引が開始されたため以後の経過については詳細不明である。

症例8を除く10例のGlisson牽引の施行期間は2~29日(中央値8日)であった。10例ともにGlisson牽引により有痛性斜頸が改善し、可動域制限の消失を確認された時点で牽引は中止となり、7例はGlisson牽引中止後に頚椎カラーまたはタオルカラーが施行されていたが、後遺症を残

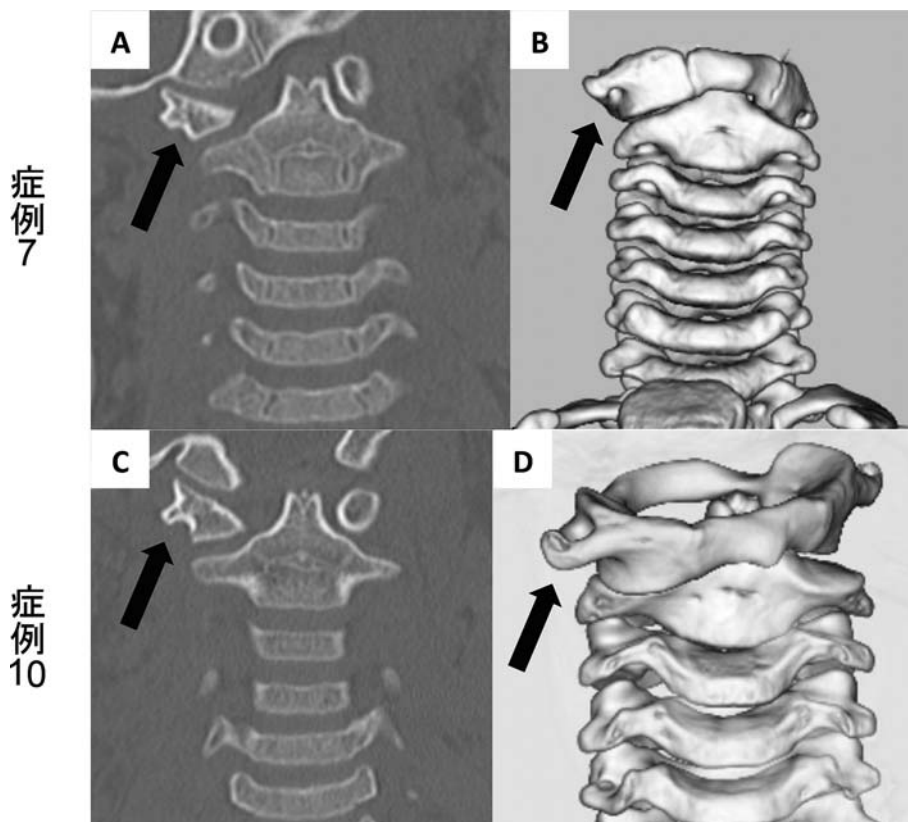


図2 頸椎単純CTと3D-CTの冠状断における比較（入院治療症例7, 10）

入院治療症例7及び10の頸椎単純CT（それぞれA, C）、頸椎3D-CT（それぞれB, D）を示す。両者とも左回旋位で環椎右外側塊が前下方へ転位（矢印）していたことからAARFと診断した。冠状断を比較すると、3D-CTは単純CTよりも立体的な評価が可能で、診断に有用であった。

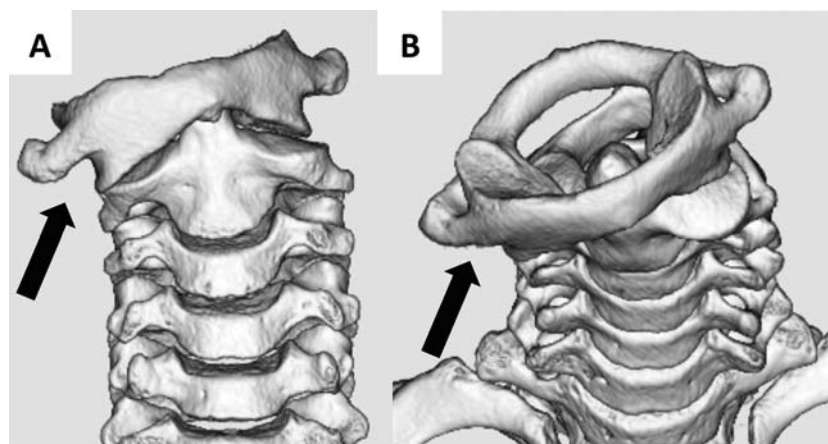


図3 頸椎3D-CTによる椎間関節の立体的観察（入院治療症例9）

入院治療症例9の頸椎3D-CTでは左回旋位で環椎右外側塊が前下方へ転位（矢印）していた。3D-CTは自在な視点変更が可能で、冠状断（A）や水平断寄り（B）で環軸椎を立体的に観察できるため、単純CTと比較して正確な椎間関節の状態を確認することができた。

した例はなかった。

2. 外来治療症例7例のまとめ（表3）

性別は男児3例（42.9%）、女児4例（57.1%）と明らかな性差はなく、年齢分布は3歳～13歳

（中央値6歳4か月）であった。7例中4例（57.1%）は先行エピソードを認めず、残り3例（42.9%）はいずれも外傷後の発症であった。なお、外傷の内容はそれぞれ柔道の受身、二段ベッドからの転落、滑り台からの転落であった。

表 3 AARF 外来治療症例 7 例のまとめ

症例	受診年	性別	年齢(歳)	先行エピソード	紹介元診療科	当院初診科	当院初診日	頸椎画像検査				治療開始病日	外来での治療内容	治療期間(日)	後遺症の有無
								X線	単純CT	3D-CT	CT施行病日				
1	2013	女	7	なし	無	小児科	3	+	+	+	3	3	鎮痛剤内服	20	なし
2	2013	男	13	外傷(柔道の受け身)	整形外科	整形外科	1	+	+	+	1	1	頸椎カラー	10	なし
3	2014	男	11	外傷(二段ベッドから転落)	無	整形外科	1	+	+	-	1	1	タオルカラー	8	なし
4	2015	女	6	なし	無	小児科	0	+	+	+	1	1	頸椎カラー	8	なし
5	2015	女	3	なし	無	小児科	1	+	-	-	-	1	タオルカラー	再診なし	不明
6	2015	男	6	外傷(滑り台から転落)	整形外科	整形外科	約1週	+	-	-	-	約1週	鎮痛剤内服	再診なし	不明
7	2016	女	4	なし	内科	小児科	0	+	+	-	0	0	頸椎カラー	12	なし

中央値
6歳4か月
(3~13歳)

病日は有痛性斜頸出現日を0日として算出した

7例中4例(57.1%)は当院を直接受診しており、その受診科は小児科3例、整形外科が1例であった。一方、7例中3例(42.9%)は前医受診後の紹介受診で、紹介元診療科は2例が整形外科、1例が内科で、当院の初診科は整形外科からの2例は整形外科、内科からの1例は小児科であった。以上を総計すると、7例の当院初診科は小児科が4例(57.1%)、整形外科が3例(42.9%)であった。また、先行エピソードのない4例の当院初診科は全例小児科で、外傷後の3例の当院初診科は全例整形外科であった。外来例の当院初診病日は0日~約1週(中央値1日)であった。

頸椎画像検査はX線が7例全例(100%)、単純CTが7例中5例(71.4%)で施行されており、単純CTの施行病日は0~3日(中央値1日)で、5例中3例(60.0%)は3D-CTも撮影されていた。なお、初診科が小児科の4例は全例同日に整形外科に院内紹介されており、画像検査指示の内容は入院治療症例と同様に全例整形外科医により決定されていた。4例(症例1~3, 7)は初診日にCTが施行されて同日より治療開始となっていた。一方、症例5, 6はX線のみが施行されて同日より治療開始となっていた。症例4は初診日に小児科を受診し、同日当院整形外科へ院内紹介されたが帰宅となり、翌日整形外科再診時にCTが施行されて同日より治療開始となっていた。

治療内容は頸椎カラー固定が3例(42.8%)、タオルカラー固定、鎮痛剤内服が各2例(28.6

%)であった。再診指示にもかかわらず再受診をしなかった2例(症例5, 6)を除く5例の治療期間は8~20日(中央値10日)で、観察期間中に後遺症を残した例はなかった。

3. 先行エピソード別にみたAARF 18例の比較(図4, 5)

先行エピソードが炎症性疾患の7例は全例が入院例で、女児が圧倒的に多く(男児1例, 女児6例)、年齢分布は3歳~7歳であった。紹介元は小児科4例、紹介なし3例であったが、当院初診科は全例小児科であった。当院初診から治療開始までの期間は4例が5~8日、3例が0日であったが、7例中5例(71.4%)はCT施行と治療開始が同日で、1例はCT施行の翌日に治療が開始され、1例は治療開始の9日後にCTが施行されていた。

先行エピソードが外傷の5例は入院例2例(いずれも女児)、外来例3例(いずれも男児)で明らかな性差はなく、年齢分布は6歳~13歳であった。紹介元は整形外科3例、紹介なし2例で、整形外科を紹介元とする3例は全例当院整形外科へ紹介されていたが、紹介なしの2例の当院初診科は1例が整形外科、他の1例が救急科であった。5例中4例は当院初診日にCT施行後同日より治療が開始となったが、残りの1例は当院初診日にX線施行後にCTは未施行のまま治療開始となっていた。

先行エピソード	治療場所	紹介元診療科	当院初診科	当院初診～ CT施行まで(日)	当院初診～ 治療開始まで(日)	CT施行～ 治療開始まで(日)		
炎症性疾患 7例 (男/女=1/6)	入院 7例 (男/女=1/6)	小児科 4例	小児科 4例	5	6	1		
				7	7	0		
		紹介なし 3例	小児科 3例	0	0	0		
				0	0	0		
						17	8	-9
						0	0	0
				5	5	0		
外傷 5例 (男/女=3/2)	入院 2例 (男/女=0/2)	整形外科 1例	整形外科 1例	0	0	0		
		紹介なし 1例	救急科 1例	0	0	0		
	外来 3例 (男/女=3/0)	整形外科 2例	整形外科 2例	0	0	0		
		紹介なし 1例	整形外科 1例	—	0	—		
					0	0	0	
					0	0	0	
				0	0	0		
エピソードなし 5例 (男/女=1/4)	入院 1例 (男/女=1/0)	紹介なし 1例	救急科 1例	0	0	0		
		内科 1例	小児科 1例	0	0	0		
	外来 4例 (男/女=0/4)	紹介なし 3例	小児科 3例	0	0	0		
				1	1	0		
					—	0	—	
手術後 1例 (男/女=0/1)	入院 1例 (男/女=0/1)	紹介なし 1例	耳鼻科 1例	0	0	0		

図 4 先行エピソード別にみた AARF 18 例の比較

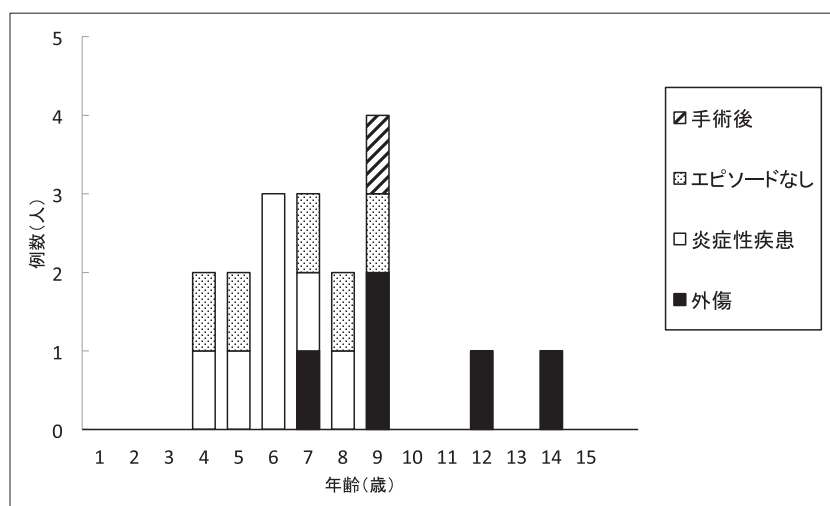


図 5 先行エピソード別にみた AARF 18 例の年齢分布

先行エピソードなし群の 5 例は入院例 1 例 (男児), 外来例 4 例 (いずれも女児) で女児が多く, 年齢分布は 3 歳～8 歳であった. 5 例中 4 例は紹介元なしで, その当院初診科は入院となった 1 例が救急科, 外来治療の 3 例はいずれも小児科であった. 一方, 内科を紹介元とする 1 例の当院初診

科は小児科であった. 5 例中 4 例は CT 施行と治療開始が同日であったが, 1 例は当院初診日に X 線施行後に CT は未施行で治療が開始されていた. また, 5 例中 4 例は当院初診日より, 1 例は翌日整形外科外来再診後に治療開始となっていた. 頭頸部手術 (扁桃腺摘出術) 後の 1 例 (女

児, 8 歳) は耳鼻科入院中の 0 病日に CT 施行後速やかに治療が開始されていた。

なお, 先行エピソード別に年齢分布を比較してみると, 外傷後に AARF を発症した例 (中央値 8 歳: 6~13 歳) は他の群 (中央値 5.5 歳: 3~8 歳) に比べて年齢がやや高い傾向がみられた (図 5)。

考 察

AARF は 5~15 歳の小児に好発する³⁾とされ, 小児に好発する理由としては, ①小児は環軸関節の骨性支持が少ない, ②関節包が緩く, 回旋角度が大きい, ③関節面の水平化が強い, ④環軸関節の中で軟部組織の占める役割が大きく, 炎症が容易に波及しやすいことなどが指摘されている⁸⁾。今回の 18 例についても年齢分布は 3 歳 8 か月~13 歳 9 か月で, 中央値は入院例 (6 歳 6 か月) と外来例 (6 歳 4 か月) を比較しても差はなかった。また, 18 例全例に有痛性斜頸を認めた。AARF は有痛性斜頸の原因の中では比較的稀であるものの小児に好発しやすいことから, 小児の有痛性斜頸 (特に年長児に関して) を認めた場合に本症の可能性を念頭に置き, 早期診断・早期治療を心がける必要があると考えられた。

AARF の病因としては関節包や靭帯の弛緩・陥入・断裂が関与する関節内因子説^{9,10)}, 炎症に続発する頸部周囲筋の過緊張や靭帯の弛緩が関与する関節外因子説^{11,12)}, それらの複合因子説¹⁾などが提唱されている。今回の検討でも先行エピソードを 13 例 (72.2% : 炎症性疾患 7 例, 外傷 5 例, 手術後 1 例) に認めた。そこで, 先行エピソード別に性差, 紹介元診療科, 当院初診科, 年齢分布を比較した。外傷後 AARF (外傷群) は性差がなく, 入院となった 1 例が救急科であった以外は紹介の有無を問わず最初に受診した医療機関の診療科は整形外科であった。また, 全例が当院初診日に治療が開始されていた。これに対して, 炎症性疾患後の AARF (炎症群) と先行エピソードなし群は女児が圧倒的に多く, 紹介の有無を問わず最初に受診した医療機関の診療科は炎症群が 7 例全例小児科, エピソードなし群は 5 例中 3 例が小児科で, 救急科, 内科が各 1 例で, 小児科が多かった。なお, 年齢分布は外傷群で 6 歳~13 歳 (中

央値 8 歳), 非外傷群で 3 歳~8 歳 (中央値 5.5 歳) であり, 外傷群において年齢分布がやや高い傾向がみられた。

井上ら¹³⁾は小児 AARF 23 例が診断に至るまでの過程を検討した結果, 初療医での診断率は 35% に過ぎず, 整形外科を受診した症例は初診で 43%, 全体でも 53% に留まったことから, 整形外科以外の医師 (特に小児科医) への本疾患の啓蒙が重要であることを指摘している。整形外科領域では AARF の診断は cock robin position や弾発性固定と呼ばれる特徴的な身体的所見から診断は比較的容易とされている¹⁴⁾。今回の検討は全例で cock robin position と弾発性固定を認めており, 外傷群以外 (特に炎症群とエピソードなし群) では整形外科を受診している症例は皆無で, 患者が最初に受診する診療科は小児科が圧倒的に多かった結果から有痛性斜頸 (特に年長児に関して) を認めた場合に本症の可能性を念頭に置くことの重要性を痛感した。

さらに, 篠塚ら¹⁵⁾は頸部の炎症性疾患を先行エピソードとした小児 AARF 入院例 16 例 (頸部リンパ節炎 7 例, 上気道炎 4 例, 川崎病 3 例, 急性中耳炎 1 例, 流行性耳下腺炎 1 例) の性別は男児 4 例, 女児 12 例 (男女比 0.33) であったと報告しており, 久保ら¹⁶⁾も川崎病に合併した AARF 11 例の性別は男児 4 例, 女児 7 例 (男女比 0.57) で女児が多かったと述べている。炎症群に女児が多い理由は不明だが, 今回の検討でも外傷群は性差がなかったのに対して, 炎症群と先行エピソードなし群は女児が圧倒的に多く, 特に炎症群の男女比は 0.17 と過去の報告より低かった。また, 当院初診から CT 施行までの期間, 治療開始までの期間は外傷群, エピソードなし群がほとんど 0 日であったのに比較して, 炎症群では 7 例中 4 例が当院初診から診断・治療開始に 5 日以上を要していた。この結果は先行する炎症性疾患の治療を優先せざるを得ない上, 痛みのため詳細な診察も困難で, 結果的に炎症が鎮静化しているにもかかわらず有痛性斜頸が残存することが診断のきっかけになるという経過を反映していると思われた。炎症群の治療場所は全例が入院例であったが, 特に女児例においては本症の見逃しがないように注意深く観察する必要があると思われた。

頸部単純 CT 及び 3D-CT は単純 X 線に比べ被曝量が多く、特に小児疾患では被曝に対するリスク・ベネフィットに十分配慮した上で施行の是非を決定する必要があるのは言うまでもない。実際、今回の対象における画像検査指示の内容は入院、外来治療症例を問わず全例が整形外科医により決定されており、外来症例 2 例は単純 X 線のみで診断されていた。残りの 16 例で CT・3D-CT 撮像が整形外科医師の指示により施行されていた。従来、AARF の画像診断は頸椎 X 線開口位における環椎外側塊-歯突起間距離の非対称や外側環軸椎関節裂隙の不均衡により行われてきたが、本症は幼少児に好発し、有痛性斜頸を呈しているため正確な撮影評価が困難であることが指摘されていた⁴⁾。これに対して、頸椎単純 CT では環軸椎の水平方向の回旋の程度や前後方向への転位が観察できるため X 線よりも診断に有用とされている⁵⁾。加えて、頸椎 3D-CT はさらに自由度の高い視点変更が可能で環軸椎を立体的に観察できるため、垂直方向の転位を含めた椎間関節の状態がより詳細に把握できると報告されている^{5,6)}。今回の検討では 3D-CT は 18 例中 13 例 (72.2%) で施行されていたが、特に小児科医にとって 3D-CT は本症の診断に際して頸椎単純 CT に比べてより有用であると考えられた。

古矢ら⁸⁾は AARF で手術を必要とする割合は発症 1 か月以内の急性例では 1% 以下、発症 1~3 か月の亜急性例では 31%、発症 3 か月以降の慢性例では 78% になることから早期治療介入の重要性を強調している。今回の検討では全例が発症から約 1 週間以内に治療を開始され、診断翌日に治療を開始された入院症例 2 を除く 17 例は診断と治療開始が同日で、経過を追跡できた 15 例の中で後遺症を認めた例は 1 例もなかった。今回の検討を通じて、頸部の自発痛と可動域制限を伴うような有痛性斜頸を認めた場合には、速やかに整形外科にコンサルトするとともに、頸椎単純 CT、特に 3D-CT を早急に実施して AARF の早期診断・治療を心がけることが重要であると再認識した。

結 論

AARF は頸部の炎症性疾患が先行する症例 (特

に女児) や明らかな誘因のない症例は整形外科ではなく小児科を受診することが多く、発症から診断、治療開始までの期間が予後に影響するため、有痛性斜頸を認めた際は本症の可能性を念頭に置いて可及的早期に整形外科に紹介し、頸椎単純 CT (特に 3D-CT) 等による診断を行う必要がある。

本検討に利益相反はない。なお、本論文の要旨は第 31 回日本小児救急医学会学術集会 (東京) において報告した。

引 用 文 献

- 1) Fielding JW, Hawkins RJ. Atlanto-axial rotatory fixation. *J Bone Joint Surg Am* 1977; **59**(1): 37-44
- 2) Yi-Fen Wang, Michael Mu-Huo Teng, Ying-Chou Sun, et al. Torticollis due to atlantoaxial rotatory fixation. *J Clin Neurosci* 2008; **15**(3): 316-318
- 3) 岡田文, 黒瀬眞之輔, 齊藤太一, 他. 小児の環軸椎回旋位固定に対する治療経験. *整外と災外* 2003; **52**(3): 549-552
- 4) 滝川一晴. 環軸椎回旋位固定. *関節外科* 2013; **32**: 148-149
- 5) 村角恭一, 川内義久, 鮫島浩司, 他. 環軸椎回旋位固定における 3-DCT の有用性. *整外と災外* 2000; **49**(3): 982-984
- 6) 松元征徳, 田島直也, 平川俊一, 他. Atlanto-Axial-Rotatory Fixation の 3-DCT による評価. *整外と災外* 1997; **46**(2): 453-455
- 7) 山田圭, 佐藤公昭, 脇岡徹, 他. 小児の環軸椎回旋位固定の保存的治療アルゴリズムの検討. *整外と災外* 2014; **63**(3): 501-504
- 8) 古矢丈雄, 山崎正志, 大河昭彦, 他. 環軸椎回旋位固定の病態と治療. *千葉医学* 2009; **85**(2): 61-69
- 9) G Wortzman, FP Dewar. Rotatory fixation of atlantoaxial joint: rotational atlantoaxial subluxation. *Radiology* 1968; **90**(3): 479-487
- 10) Hosono N, Yonenobu K, Tada K, et al. Lateral atlantoaxial joint arthrography in atlantoaxial rotatory fixation. *J Spinal Disord Tech* 2003; **16**(2): 216-220
- 11) Grisel P. Eucleation de l'atlas et toricollis nasopharyngien. *Presse Med* 1930; **38**: 50-53
- 12) 川部直巳, 藤新重治, 西川梅雄, 他. 小児環軸椎回旋脱臼の病態と発症機序. *整形外科* 1986; **37**(4): 433-440
- 13) 井上三四郎, 菊池直士, 宮崎幸政, 他. 環軸椎回

- 旋位固定の患児はどのようにして診断されているのか？. 整外と災外 2013; **62**(4): 710-712
- 14) 古矢丈雄, 山崎正志. 環軸椎回旋位固定. 整外と災外. 2012; **55**(5): 443-449
- 15) 篠塚俊介, 津留智彦, 平本龍吾, 他. 環軸椎回旋位固定 26 症例 30 機会の検討. 小児臨 2012; **65**(8): 1907-1913
- 16) 久保裕, 松尾憲典, 伊藤育世, 他. 環軸椎回旋位固定を合併した川崎病の 7 歳男児例. 小児科 2018; **59**(3): 331-335

Clinical case series of atlantoaxial rotatory fixation in 18 patients

Department of Pediatrics, Japanese Red Cross Kyoto Daini Hospital¹⁾

Department of Pediatrics, Chiba University Graduate School of Medicine²⁾

Daigo Kato^{1, 2)}, Toshio Osamura¹⁾, Taeko Saito¹⁾, Kimito Todo¹⁾,
Naho Kobayashi¹⁾, Noriko Fujii¹⁾, Tadaki Omae¹⁾

Abstract

We performed a retrospective study to describe the clinical characteristics of atlantoaxial rotatory fixation (AARF). A total of 18 patients (11 inpatients and 7 outpatients) who were treated at our hospital between 2013 and 2016 were included. Patients were aged between 3 and 13 with a median age of 6. A total of 13 patients had conditions that were attributable to AARF, including inflammatory diseases (n = 7), trauma (n = 5), and surgery (n = 1). There was no significant difference in the proportion of trauma cases in male and female patients, and 4 of 5 patients (80.0%) were initially seen by an orthopedic surgeon and were put on treatment on the day of their initial clinical visit. Majority of the patients who had inflammatory diseases or no prior disease attributable to AARF (n = 12) were females. Ten of those patients (83.3%) were initially seen by a pediatrician, and 4 of 7 patients with inflammatory disease were treated 5-8 days after the initial visit. Cervical 3D Computed Tomography (CT) was performed in 13 patients (72.2%). It enabled 3D evaluation of the intervertebral joint, which facilitated the diagnostic process. Among the 15 patients who were followed up, none developed subsequent complications. Our findings demonstrated that many of the patients with inflammatory disease or no prior disease attributable to AARF were female and were initially seen by pediatricians. When these patients present with painful torticollis, they should be referred to orthopedic surgeons. In addition, 3D-CT should be performed to enable early diagnosis of AARF.

Key words : children, atlantoaxial rotatory fixation (AARF), painful torticollis, cervical 3D-CT, prior disease