

TABLE 1
Height and weight of patients with Down syndrome and control individuals by age*

| Age (yrs), Sex | Height (cm) | | Weight (kg) | |
|-------------------|------------------------------|------------------------|------------------------------|------------------------|
| | Patients w/ Down Syndrome | Control Individuals | Patients w/ Down Syndrome | Control Individuals |
| 10, M | 134.8 ± 2.7 | 135.3 ± 2.9 | 34.6 ± 2.7 | 34.3 ± 2.2 |
| 10, F | 135.9 ± 4.5 | 136.3 ± 3.1 | 33.7 ± 4.4 | 33.3 ± 3.9 |
| 11, M | 141.7 ± 4.2 | 141.8 ± 2.7 | 38.7 ± 4.8 | 38.8 ± 2.8 |
| 11, F | 141.8 ± 3.4 | 142.3 ± 3.9 | 37.8 ± 3.5 | 37.2 ± 3.7 |
| 12, M | 152.9 ± 4.4 | 153.1 ± 3.3 | 43.4 ± 4.4 | 43.1 ± 3.6 |
| 12, F | 150.1 ± 3.9 | 150.7 ± 4.2 | 44.1 ± 3.1 | 43.7 ± 4.9 |
| 13, M | 157.4 ± 4.2 | 157.9 ± 3.8 | 47.2 ± 3.2 | 46.9 ± 3.1 |
| 13, F | 154.0 ± 3.2 | 154.2 ± 4.4 | 46.5 ± 3.8 | 46.2 ± 4.1 |
| 14, M | 160.8 ± 4.1 | 161.2 ± 4.7 | 56.8 ± 3.1 | 56.3 ± 4.0 |
| 14, F | 156.1 ± 3.3 | 156.4 ± 4.8 | 50.9 ± 3.9 | 50.2 ± 3.1 |
| 15, M | 165.8 ± 4.1 | 166.2 ± 4.7 | 58.8 ± 3.7 | 58.2 ± 4.2 |
| 15, F | 157.8 ± 4.1 | 157.9 ± 3.6 | 53.3 ± 3.1 | 52.9 ± 4.1 |

* Values are presented as the mean ± standard deviation. The probability values of age- and weight-matched patients were not significant.

from a cross-sectional CT image of the atlas. The cross-sectional area was divided into small grid cells and analyzed with a computer by using an integration method. All the measurements were completed at the first examination. We obtained the informed consent from the individuals and their parents prior to the examination and obtaining radiographs and CT scans. The parents were fully aware that the data from the cases and controls would be submitted for publication, and the approval was also obtained from our institutional review board.

Statistical Analysis

Parametric statistical analysis was performed using Student t-test with a 95% confidence interval.

Results

Eight children with Down syndrome (three boys and five girls, age range 10–13 years) were identified with atlantoaxial subluxation (Table 2); an incidence of 6.7% (4.3% in boys and 15.7% in girls). Two of the eight children had fixed atlantoaxial subluxation and the remaining six children had reducible atlantoaxial subluxation. The condition of four patients was complicated by os odontoideum. All patients with atlantoaxial subluxation exhibited spastic gait, hyperreflexia, pathological reflex, and disturbance of finger movement. We recommended surgery to the eight patients,

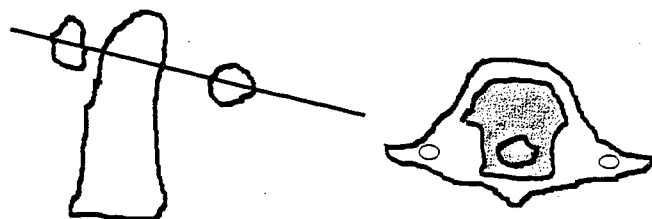


FIG. 1. Illustrations showing the method of measurement of the C-1 cross-sectional area on the CT scans. Left: The line indicates the slice level of the atlas that will be used for the CT scan. Right: The shaded area indicates the cross-sectional area of C-1.

TABLE 2
Characteristics of patients who exhibit atlantoaxial subluxation*

| Case No. | Age (yrs), Sex | ADI (mm) | Os Odontoideum | Hyperreflexia | Spastic Gait |
|----------|-------------------|----------|----------------|---------------|--------------|
| 1 | 10, M | 6 | — | + | + |
| 2 | 10, F | 8 | + | + | + |
| 3 | 11, M | 7 | + | + | + |
| 4 | 10, F | 6 | — | + | + |
| 5 | 11, F | 7 | + | + | + |
| 6 | 12, F | 8 | + | + | + |
| 7 | 12, F | 8 | — | + | + |
| 8 | 13, M | 9 | — | + | + |

* + = present, — = absent.

but we could not obtain agreement. The ADI ranged from 6 to 9 mm among the patients who exhibited atlantoaxial subluxation, and all patients exhibited hypoplasia of atlas. The mean (± standard deviation) ADI was 2.5 ± 1.0 mm in all children with Down syndrome and 2.2 ± 1.0 mm in healthy children. The difference between the two groups was not statistically significant in boys or girls. The average AP diameters of the atlas were significantly smaller in patients with Down syndrome than in controls. The results were the same in boys and girls (Table 3). The cross-sectional area of the atlas was significantly smaller in children with Down syndrome than in the control group (Table 4). Figure 2 provides an example of CT images of a patient with Down syndrome and a healthy male control of the same age. The AP diameter and cross-sectional area of the atlas were smaller in the patient with Down syndrome.

Discussion

Atlantoaxial dislocation in patients with Down syndrome was reported by Tishler and Martel¹⁰ in 1965 and by Dzenitis³ in 1966. Since then, many articles^{2,4,5,7-9,11,12} have appeared in the literature detailing imaging-documented atlantoaxial instability in children with Down syndrome.

The present study suggests that occult spinal canal steno-

TABLE 3
Anteroposterior diameter of C-1 on plain lateral x-ray images

| Sex | AP Diameter in mm (no. of children) | | p Value* |
|-------|-------------------------------------|---------------------|----------|
| | Patients w/ Down Syndrome | Control Individuals | |
| boy | 16.1 ± 2.5 (70) | 21.3 ± 2.1 (110) | <0.005 |
| girl | 15.3 ± 2.9 (32) | 19.4 ± 2.3 (66) | <0.005 |
| total | 15.8 ± 2.7 (102) | 20.3 ± 2.2 (176) | <0.005 |

* Values are statistically significant.

TABLE 4
Cross-sectional area of C-1 on CT scanning

| Sex | Area in mm ² (no. of children) | | p Value* |
|-------|---|---------------------|----------|
| | Patients w/ Down Syndrome | Control Individuals | |
| boy | 523.7 ± 52.3 (70) | 615.9 ± 51.1 (110) | <0.005 |
| girl | 498.3 ± 49.6 (32) | 589.8 ± 51.9 (66) | <0.005 |
| total | 505.6 ± 51.9 (102) | 602.7 ± 51.6 (176) | <0.005 |

* Values are statistically significant.

Occult spinal canal stenosis in children with Down syndrome

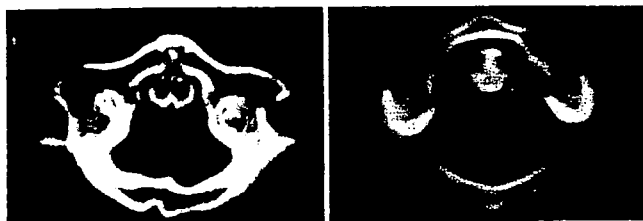


FIG. 2. Computed tomography scans obtained in a 10-year-old patient with Down syndrome (left) and a 10-year-old healthy individual (right). The cross-sectional area of C-1 was 512 mm² in the patient and 690 mm² in the control.

sis exists in patients with Down syndrome. To our knowledge, this is the first matched-comparison study that has examined occult spinal canal stenosis due to hypoplasia of the C-1 posterior arch in patients with Down syndrome. In 1992, Martich et al.⁶ reported hypoplastic posterior arch of atlas in children with Down syndrome; however, that study was not a matched comparison, and the children were younger (2–3 years old). In our study, the hypoplasia of C-1 in children with Down syndrome was statistically significant. The pathomechanism of myelopathy in patients with Down syndrome has not been clarified. However, the occult spinal canal stenosis due to C-1 hypoplasia must be a risk factor of myelopathy for patients with Down syndrome. All patients with atlantoaxial subluxation in the current study exhibited myelopathy. The ADI among the patients who exhibited myelopathy was less than 9 mm, which did not indicate severe atlantoaxial subluxation.

Conclusions

When dealing with children with Down syndrome, it must be remembered that the patients may have occult spinal canal stenosis which can cause myelopathy.

References

1. Chigira M, Kaneko K, Mashio K, Watanabe H: Congenital hypo-

2. Cullen S, O'Connell E, Blake NS, Ward OC: Atlantoaxial instability in Down's syndrome: clinical and radiological screening. *Ir Med J* 82:64–65, 1989
3. Dzenitis AJ: Spontaneous atlanto-axial dislocation in a mongoloid child with spinal cord compression. Case report. *J Neurosurg* 25:458–460, 1966
4. el-Khoury GY, Clark CR, Wroble RR: Fixed atlantoaxial rotary deformity with bilateral facet dislocation. *Skeletal Radiol* 13: 217–220, 1985
5. Martel A, Uyham R, Stimson CW: Subluxation of the atlas causing spinal cord compression in a case of Down's syndrome with a "manifestation of an occipital vertebra". *Radiology* 93: 129–132, 1969
6. Martich V, Ben-Ami T, Yousefzadeh DK, Roizen NJ: Hypoplastic posterior arch of C-1 in children with Down syndrome: a double jeopardy. *Radiology* 183:125–128, 1992
7. Pueschel SM, Findley TW, Furia J, Gallagher PL, Scola FH, Pezzullo JC: Atlantoaxial instability in children with Down's syndrome: roentgenographic, neurological, and somatosensory evoked potential studies. *J Pediatr* 110:515–521, 1987
8. Pueschel SM, Herndon JH, Gelch MM, Senft KE, Scola FH, Goldberg MJ: Symptomatic atlantoaxial subluxation in persons with Down syndrome. *J Pediatr Orthop* 4:682–688, 1984
9. Semine AA, Ertel AN, Goldberg MJ, Bull MJ: Cervical spine instability in children with Down syndrome (trisomy 21). *J Bone Joint Surg Am* 60:649–652, 1978
10. Tishler JM, Martel W: Dislocation of the atlas in mongolism: preliminary report. *Radiology* 84:904–906, 1965
11. Tredwell SJ, Newman DE, Lockitch G: Instability of the upper cervical spine in Down syndrome. *J Pediatr Orthop* 10:602–606, 1990
12. Tubbs RS, Oakes WJ, Blount JP: Isolated atlantal stenosis in a patient with idiopathic growth hormone deficiency, and Klippel-Feil and Duane's syndromes. *Childs Nerv Syst* 21:421–424, 2005

Manuscript submitted May 8, 2007.

Accepted August 20, 2007.

Address correspondence to: Shunji Matsunaga, M.D., Ph.D., Department of Orthopaedic Surgery, Imakiire General Hospital, 4-16, Schimotatsuo, Kagoshima 892-8502, Japan. email: shunji@m.kufm.kagoshima-u.ac.jp.



関節リウマチにおける上位頸椎病変に対する後頭骨頸椎間固定術の治療成績*

小坏 知明** 石井 祐信** 中條 淳子**
両角 直樹** 星川 健** 小川 真司**

Occipitocervical Fusion for an Upper Cervical Rheumatoid Arthritis Lesion

Tomoaki Koakutsu, Yushin Ishii, Junko Nakajo, Naoki Morozumi, Takeshi Hoshikawa, Shinji Ogawa

臨整外 42 : 365~369, 2007

Key words : rheumatoid arthritis(関節リウマチ), upper cervical lesion(上位頸椎病変), surgical treatment(手術)

関節リウマチにおける上位頸椎病変に対して後頭骨頸椎間固定術を行った44例(手術時平均年齢65歳)の治療成績を調査した。術後累積生存率は術後5年で79.8%、死亡時平均年齢は71歳であった。術後全例に痛み・脊髄症の改善を認めた。骨癒合率は91%で、偽関節例の1例で脊髄症が増悪し再手術を要した。術後中下位頸椎病変の発生による再手術率は12.5%で、特に後弯位固定例の治療成績が不良だった。本法施行例の生命予後・機能予後は良好で、脊髄症や保存的治療に抵抗性の後頭部痛に対しては積極的に手術を行ってよい。

We evaluated 44 patients with rheumatoid arthritis(RA) who underwent occipitocervical fusion for an upper cervical lesion at Nishitaga National Hospital. The average duration of the RA was 16 years, and mean age at the time of surgery was 65 years. The survival rate 5 years postoperatively was 79.8%. The mean age at death was 71 years. The preoperative occipital pain was reduced and the myelopathy improved in every patient. The bone fusion rate was 91%. One patient required additional surgery because of pseudarthrosis, and four patients(12.5%) required additional surgery because of the development of a subaxial lesion during postoperative follow-up. The O-C2 angles were measured in all patients, and two patients with negative O-C2 angles developed retrolisthesis of the mid-cervical spine. Occipitocervical fusion for upper cervical lesions in RA is useful for reducing the occipital pain and improving the myelopathy and improving prognosis.

はじめに

関節リウマチ(以下 RA)における頸椎病変は通常、環軸関節亜脱臼(atlanto-axial subluxation, 以下 AAS)により初発し、さらに垂直性亜脱臼(vertical subluxation, 以下 VS)、軸椎下亜脱臼(subaxial subluxation, 以下 SAS)が加わることも少なくない⁴⁾。頸椎病変による後頭・頸部痛、脊髄症は RA

患者の ADL を障害するのみならず、生命予後にも影響する^{3,7)}。

一般に整復性 AAS は C1-2 固定術の適応とされるが、非整復性 AAS・VS に対しては後頭骨頸椎間固定術(以下 O-C 固定術)または後頭骨胸椎間固定術(以下 O-T 固定術)の適応とされ、初回手術後の中下位頸椎病変の発生・進行を考慮した固定範囲の決定が重要とされている^{1~4)}。われわれ

* 2006.10.6 受稿

** 国立病院機構西多賀病院整形外科(〒982-8555 仙台市太白区鉤取本町 2-11-11) Department of Orthopaedic Surgery, Nishitaga National Hospital

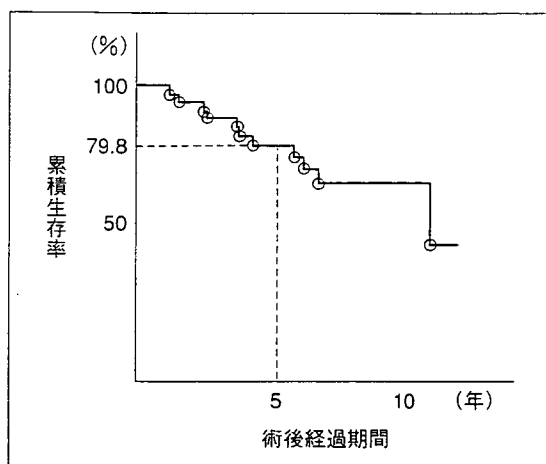


図1 Kaplan-Meier法による累積生存率
術後5年で79.8%, 術後10年で67.2%であった。

は非整復性 AAS・VS に対して、中下位頸椎病変の合併がなければ O-C 固定術を行ってきた³⁾。本法を行った症例の生命予後を含めた治療成績を報告する。

対象と方法

1. 対象

1990～2001年までに O-C 固定術を行った 44 例を対象とした。手術は原則として大後頭孔拡大と C1 後弓切除を行い、後頭骨と C2 以下の椎弓下にケーブルを通してロッドに締結した。全例に骨移植を行ったが、骨粗鬆の強い症例で 1 例に AWGC (coating AW glass ceramics), 1 例に骨セメントを併用した。後療法は、術後 3 カ月間外固定を行い、頸椎側面機能写で動きがないことを確認して除去した。

手術時年齢は 40～80 歳 (平均 65 歳)、性別は男性 15 例、女性 29 例で、RA 罹病期間は 2～36 年 (平均 16 年) であった。固定範囲は O-C3 が 38 例、O-C4 が 6 例で、手術の適応は、脊髄症が 37 例 (うち 32 例に後頭部痛を合併)、保存的治療に抵抗性の後頭部痛が 7 例であった。

術前の Steinbrocker の病期分類は Stage I が 1 例、Stage II が 2 例、Stage III が 5 例、Stage IV が 36 例で、機能分類は Class 1 が 2 例、Class 2 が 10 例、Class 3 が 24 例、Class 4 が 8 例であった。

Ranawat の評価法では、痛みは Grade 1 が 3 例、Grade 2 が 19 例、Grade 3 が 17 例で、脊髄症は Class II が 9 例、Class IIIA が 17 例、Class IIIB が 11 例であった。

術中・術後早期の合併症として、硬膜損傷が 1 例、採骨部の感染が 2 例、小脳出血 (手術との因果関係は不明) が 1 例あった。

2. 方法

全例に電話による調査を行い、生存・死亡の確認、生存例での日常生活動作の自立度、死亡例での死亡原因を調査し、Kaplan-Meier 法による累積生存率を用いて生命予後を評価した。

術後 1 年以上の直接検診による経過観察が可能であった 32 例 (調査率 73%) について、痛みと脊髄症状の改善の程度と、骨癒合・中下位頸椎病変の発生・再手術の有無を調査した。術後経過観察期間は 1 年～8 年 6 カ月 (平均 4 年 2 カ月) であった。術後の単純 X 線頸椎側面像 (中間位) での固定アライメント (O-C2 角⁸⁾) を計測し、中下位頸椎病変発生との関連を Student's *t*-test を用い検定した。

結果

1. 生命予後

電話調査時に 28 例 (64%) が生存、11 例 (25%) が死亡しており、5 例が不明であった。生存例の術後生存期間は 1 年 1 カ月～12 年 3 カ月 (平均 6 年 4 カ月)、死亡例の術後生存期間は 7 カ月～11 年 (平均 4 年 2 カ月) で、死亡時平均年齢は 71 歳であった。Kaplan-Meier 法による累積生存率は術後 5 年で 79.8%、術後 10 年で 67.2% であった (図 1)。死亡例での死亡原因は、肺炎などの呼吸器疾患が 6 例、心不全が 2 例、脳梗塞、腎不全、原因不明が各 1 例であった。

2. 日常生活自立度

生存例での日常生活動作の自立度は、Steinbrocker の機能分類で 21 例が術前レベルを維持し、7 例で低下していた。1 段階低下が 5 例、2 段階低下が 1 例、3 段階低下が 1 例であった。低

表 1 中下位頸椎病変を生じた 9 例の概要

| 症例 | 年齢/性別 | RA 罹病期間 | ムチランス型関節炎 | 中下位頸椎病変 | 再手術 | 術後経過観察期間 |
|----|-------|---------|-----------|-------------|-----|---------------|
| 1 | 60/F | 9 年 | + | 前方すべり | - | 6 年 1 カ月(生存) |
| 2 | 52/F | 16 年 | - | 前方すべり | - | 3 年 5 カ月(死亡) |
| 3 | 60/F | 15 年 | + | 前方すべり | + | 7 年 10 カ月(生存) |
| 4 | 76/F | 8 年 | - | 前方すべり | + | 11 年(死亡) |
| 5 | 68/M | 5 年 | - | 前方すべり | + | 6 年 8 カ月(生存) |
| 6 | 63/F | 31 年 | - | 前方すべり | - | 1 年 7 カ月(生存) |
| 7 | 58/F | 15 年 | + | 椎体圧潰, 後方すべり | + | 1 年 9 カ月(生存) |
| 8 | 76/M | 7 年 | - | 椎体圧潰 | - | 5 年 7 カ月(死亡) |
| 9 | 64/F | 14 年 | - | 後方すべり | - | 3 年(生存) |

下の原因は下肢関節障害が 4 例と最多で、脊髄症が 2 例、1 例が不明であった。

3. 手術成績

直接検診可能であった 32 例では、術後全例に症状の改善が認められた。Ranawat の評価法で痛みは 1 段階改善が 6 例、2 段階改善が 15 例、3 段階改善が 7 例、脊髄症は 1 段階改善が 11 例、2 段階改善が 4 例、不変(自覚症状の改善はあり)が 11 例であった。再手術を行った 1 例で、調査時に初回術前より増悪していた。

29 例(91%)が骨癒合、3 例(9%)が偽関節となり、うち脊髄症が増悪した 1 例で再手術を要した。中下位頸椎病変は 9 例(28%)に出現した。軸椎下垂脱臼が 7 例(前方すべり 6 例、後方すべり 1 例)、椎体圧潰が 2 例(うち 1 例は後方すべりを合併)であった。9 例中 3 例にムチランス型関節炎¹⁰⁾が認められた。4 例(12.5%)で再手術を要し、2 例は経過観察中に死亡、3 例は症状の増悪なく経過観察中である。中下位頸椎病変出現例の概要を示した(表 1)。

4. 固定アライメントと中下位頸椎病変出現の関連

術後の単純 X 線頸椎側面像(中間位)での固定アライメント(O-C2 角)は、中下位頸椎病変の発生のない 23 例では 7~36°(平均 19.2°)、中下位頸椎病変が出現した 9 例では -7~26°(平均 11.2°)で、両群間に有意差が認められた($p < 0.05$)。O-C2 角が負、すなわち固定アライメントが後弯であった 2 例でいずれも固定隣接椎間に後方すべりが

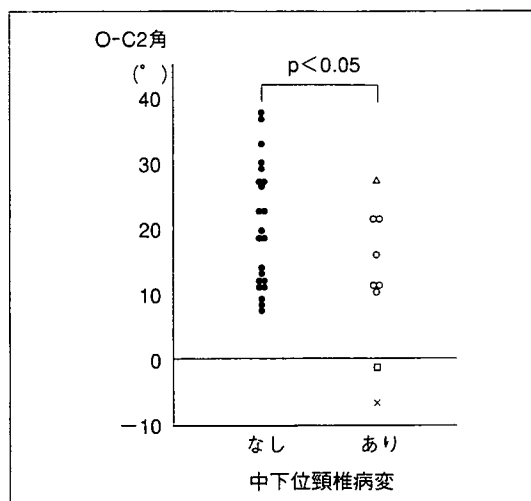


図 2 術後の中下位頸椎病変発生の有無と固定アライメント(O-C2 角)の関連

中下位頸椎病変発生例で有意に O-C2 角が小さかった(△: 椎体圧潰, ○: 椎体前方すべり, □: 椎体後方すべり, ×: 椎体後方すべり+椎体圧潰)。

生じた。前方すべりは固定アライメントが前弯であっても発生していた(図 2)。

症例呈示

症例は 58 歳の女性、ムチランス型 RA で、VS に対して O-C3 固定術を行った。O-C2 角は -7°であった(図 3)。術後 1 年 3 カ月で C4 椎体圧潰と C3 後方すべりのため脊髄症が増悪した(図 4)。C3-5 椎弓切除術・C3/4 椎間関節固定術を行い症状が改善した。

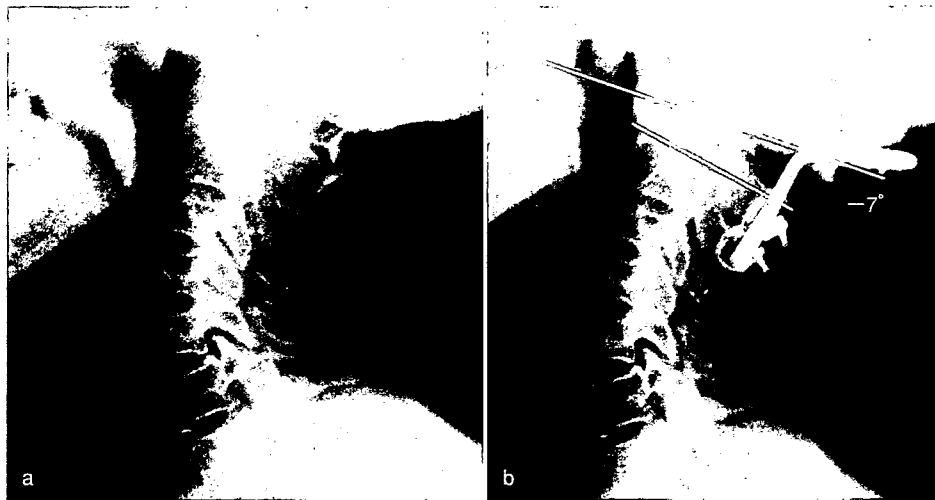


図3 初回手術前後の単純X線(症例7)
 a: 初回術前 b: 初回術後
 VS に対して O-C3 固定術を行った。O-C2 角は -7° であった。

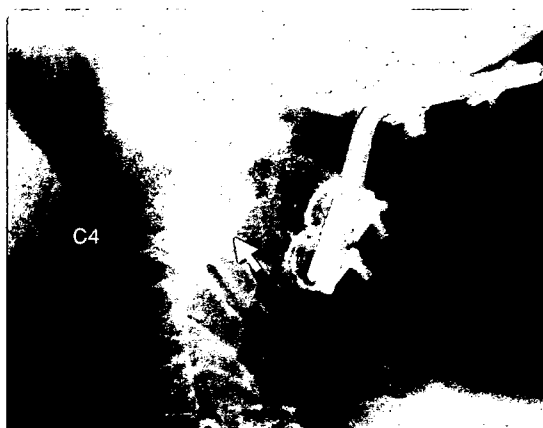


図4 再手術前の単純X線
 術後1年3カ月でC4椎体圧潰とC3後方すべりが出現し、脊髓症が増悪した。

■ 考 察

RA 患者の平均死亡年齢は約 65 歳と報告され、一般より短い¹²⁾。一方、RA 頸椎病変による脊髓症の手術例の平均死亡年齢は 66~71 歳と報告され^{5,7,11)}、自然経過とほぼ同様で、自験例では 71 歳であった。Matsunaga ら⁹⁾は非手術例と O-C 固定術を行った症例の累積生存率を比較し、非手術例では発症後 8 年以内に全例が死亡したのに対

し、手術例では術後 5 年で 84%、術後 10 年で 37%と生存率が優れていたと報告した。自験例でも累積生存率は術後 5 年で 79.8%、術後 10 年で 67.2%と良好であった。RA 患者の頸椎手術に対しては、手術侵襲・周術期合併症の観点から消極的な意見もあるが、手術例の生命予後は少なくとも自然経過に劣らない。

RA 上位頸椎病変に対する固定術後に中下位頸椎病変が発生・進行して脊髓症が再発することがあり、再手術防止の観点から中下位頸椎病変の発生を予測した固定範囲の決定が重要である^{1~4)}。われわれは整復性 AAS に対しては C1-2 固定を原則とし、非整復性 AAS・VS に対しては明らかな中下位頸椎病変の合併がなければ O-C3 固定術を原則としてきた³⁾。一方、藤原ら¹⁾は病型に基づいて固定範囲を決定するべきとし、特にムチランス型では中下位頸椎病変の発生率が高く O-T 固定術を推奨している。O-C 固定術後の中下位頸椎病変の発生・進行による再手術の頻度は、術後平均観察期間 3 年以上の諸家の報告では 8~36%^{1,2,6,11)}、自験例では 12.5%であった。

中下位頸椎病変発生危険因子として、椎間板腔の狭小化、椎体終板の不整像、椎体間の自然癒合、椎間関節・椎弓から棘突起にかけての骨侵食像などが挙げられている^{2,4,13)}。Matsunaga ら⁸⁾は固

定アライメントに着目し、O-C2角が負、すなわち後弯位で固定された症例に術後有意に多くSASが発生したと報告した。自験例でも中下位頸椎病変発生例で有意にO-C2角が小さく、後弯位で固定されていた2例でいずれも中下位頸椎に後方すべりが生じた。しかし中下位頸椎の前方すべりは前弯位に固定されていても発生しており、RAの活動性や罹病期間の影響が推測される。現時点では中下位頸椎病変発生の予測は難しく、術後経過観察による早期発見が重要と思われる。RA患者の死亡時年齢が一般対象と比較して短く、また中下位頸椎病変発生による再手術率が高くはないことから、明らかな中下位頸椎病変の合併がない場合には予防的に固定範囲を拡大する必要はない。

結語

非整復性AAS・VSなどのC1-2固定術で対応できないRA上位頸椎病変に対しては、明らかな中下位頸椎病変の合併がなければO-C固定術の適応である。術後の中下位頸椎病変発生による再手術率は高くはなく、予防的に固定範囲を拡大する必要はない。

本法を行ったRA患者の生命予後・機能予後は良好であり、脊髄症や保存的治療に抵抗性の後頭部痛に対しては積極的に手術を行ってよい。

本論文の要旨は第33回日本脊椎脊髄病学会で演述した。

文献

- 1) 藤原桂樹, 中瀬尚長: リウマチ性脊椎病変に対す

- る外科治療の適応とタイミング. *MB Orthop* 12: 21-27, 1999
- 2) 平泉 裕, 並木 脩, 高江洲 真・他: 慢性関節リウマチの頸椎手術後に発生する頸椎病変の長期的観察. *臨整外* 31: 681-688, 1996
- 3) 石井祐信, 中村 聡, 橋本 功・他: RA上位頸椎病変の手術的治療と成績. *臨整外* 38: 437-443, 2003
- 4) 伊藤達雄, 加藤義治, 三宅俊和・他: 慢性関節リウマチにおける脊椎病変の手術的治療. その問題点と対策. *整・災外* 38: 245-253, 1995
- 5) 近藤健治, 浅井富明, 塚本正美: 頸椎手術を受けた慢性関節リウマチ患者の機能予後と生命予後. *日関外誌* 18: 133-140, 1999
- 6) Kraus DR, Peppelman WC, Agarwal AK, et al: Incidence of subaxial subluxation in patients with generalized rheumatoid arthritis who have had previous occipital cervical fusions. *Spine* 16: S486-489, 1991
- 7) Matsunaga S, Ijiri K, Koga H: Results of a longer than 10-year follow-up of patients with rheumatoid arthritis treated by occipitocervical fusion. *Spine* 25: 1749-1753, 2000
- 8) Matsunaga S, Onishi T, Sakou T: Significance of occipitoaxial angle in subaxial lesion after occipitocervical fusion. *Spine* 26: 161-165, 2001
- 9) Matsunaga S, Sakou T, Onishi T, et al: Prognosis of patients with upper cervical lesions caused by rheumatoid arthritis: comparison of occipitocervical fusion between C1 laminectomy and nonsurgical management. *Spine* 28: 1581-1587, 2003
- 10) Nalebuff EA, Garrett J: Opera-glass hand in rheumatoid arthritis. *J Hand Surg* 1: 212-220, 1976
- 11) 戸山芳昭, 松本守雄, 藤村祥一・他: リウマチ性頸椎病変手術例の予後. *整形外科* 46: 1585-1591, 1995
- 12) 塚本正美, 浅井富明, 近藤健治: 発症からみた慢性関節リウマチ患者の長期予後. *別冊整形外科* 34: 15-18, 1998
- 13) 米澤孝信: リウマチ性下位頸椎病変における脊髄障害発生のX線学的予知指標. *臨整外* 29: 805-813, 1994

特 RA 頸椎病変の治療
集

RA 頸椎病変の生命予後と機能予後

松 永 俊 二* 今 給 黎 尚 典 古 賀 公 明
小 宮 節 郎** 井 尻 幸 成

要旨：頸椎病変，特に上位頸椎病変を有する関節リウマチ患者の生命予後と機能予後について，手術例と非手術例の比較検討を行った。手術は環椎椎弓切除と後頭頸椎固定術を行った症例であり，非手術例は薬物治療と頸椎装具を行った症例である。すべての患者を死亡時まで追跡した結果，非手術例では脊髄症状発症3年以内に全例起立不能となり，8年以内に全員死亡し，平均生存期間は4.7年であった。一方，手術例では脊髄症状は63%の症例で改善し，術後の平均生存期間は9.7年であった。今回の調査では，関節リウマチの頸椎病変に対する手術は生命予後や機能的予後に貢献していた。しかし，近年関節リウマチの生物学的製剤を中心とした薬物治療の進歩や手術方法の改良などがなされており，今後患者の生命予後や機能的予後については患者のQOLまでも考えた再評価が必要である。

はじめに

関節リウマチ（以下，RA）患者において，環軸椎亜脱臼や軸椎垂直亜脱臼などの上位頸椎病変，および軸椎下亜脱臼などの中下位頸椎病変が生じることはよく知られている。これらの病変は神経症状や後頭部の頑固な痛みを引き起こすことがある。これらの頸椎病変により脊髄症状を呈した患者に対しては，これまで種々の手術が選択されその手術成績が検討されてきた^{1)~7)}。一方，RAは疾患自体による生命予後が一般健常人に比べ不良である^{8)~10)}とされており，施行した手術がRA患者

の生命予後にどのような影響を及ぼすかを知ることが重要である。また機能予後についてもRAは全身性の関節病変を呈しており，頸椎病変だけを治療しても患者の最終的機能予後には影響しないのではないかということも考えられる。

本稿では，脊髄症状を呈したRA患者に対してわれわれが行ってきた後頭頸椎固定術が患者の生命予後および機能予後にどの程度貢献したかを知るために非手術例との比較を行ったので紹介する。

I. われわれの行ってきた後頭頸椎固定術⁹⁾

今回検討した手術の概要を紹介する。術前に可及的整復を得るため1~2週間の頭蓋直達牽引を行う。この際，無理な整復操作は行わない。後方正中進入にて後頭頸椎部を露出し，まず環椎の椎弓切除を施行する。次に大孔から約2cmの部位に水平に1.5cm間隔で小孔をair drillを用いて作成する。3mmのKirschner 鋼線を長方形に曲げ，後頭頸椎部の彎曲に適合させる。0.9mm

* Shunji MATSUNAGA et al, 今給黎総合病院, 整形外科

** Setsuro KOMIYA et al, 鹿児島大学大学院医歯学総合研究科, 運動機能修復学講座整形外科

Life expectancy and functional prognosis of cervical lesions due to rheumatoid arthritis

Key words : Atlanto-axial subluxation, Occipito-cervical fusion, Survival rate

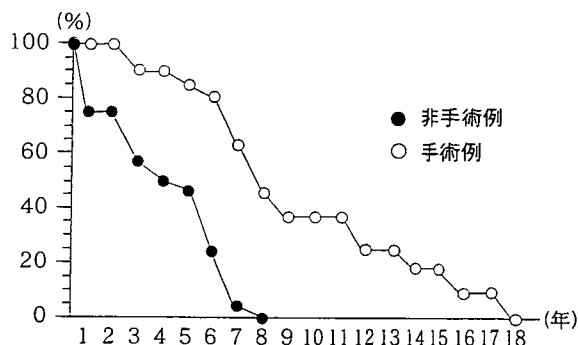


図 1 非手術例と手術例における生命予後の比較

の Luque wire を後頭骨に作成した小孔に通し、第 2 頸椎椎弓下にも wire を通して rod を締結固定する。術後は、halo 装具は必要なく、簡便な頸椎カラーを着用し、起立・歩行を許可する。骨癒合は術後 2~3 カ月で得られる。

われわれはこれまで脊髄症状を呈した RA 患者 76 名をこの術式を用いて治療してきた。これらの患者のうち、最終的追跡 (死亡時まで) ができたのは 19 例 (男性 4 例, 女性 15 例) であった。また、脊髄症状を呈した RA 患者で、合併症のため手術不能の症例を除く非手術例 25 例中、死亡時まで追跡できたのは 21 例 (男性 4 例, 女性 17 例) あり、両群の生命予後と機能予後を比較した。非手術群には全例頸椎カラーを装着し、薬物療法を行った。

RA の stage と class, 脊髄症状発症時年齢, リウマチの罹病期間, ステロイド使用の有無については、手術を施行した群と保存治療を行った群間に有意差はなかった。治療開始前の脊髄症状の程度は、保存治療群が Ranawat の評価¹¹⁾ で IIIA 16 例, IIIB 5 例であり、手術群が Ranawat IIIA 14 例, IIIB 5 例であった。軸椎垂直亜脱臼は、手術治療例の 12 例, 保存治療例の 14 例に認められた。経過観察期間は脊髄症状発症から死亡までの期間とし、最長症例は 18 年であった。以上において患者の生命予後と機能的予後を比較した。

II. 生命予後

脊髄症状発症から死亡までの期間は、非手術例

表 1 手術例と非手術例の死因

| 後頭頸椎固定術 | | 保存的治療 | |
|---------|---|-------|----|
| 心不全 | 6 | 肺炎 | 10 |
| 脳血管障害 | 4 | 心不全 | 3 |
| 悪性新生物 | 4 | 脳血管障害 | 3 |
| 肺線維症 | 2 | 悪性新生物 | 2 |
| 腎不全 | 2 | 肺線維症 | 2 |
| 交通事故 | 1 | 突然死 | 1 |

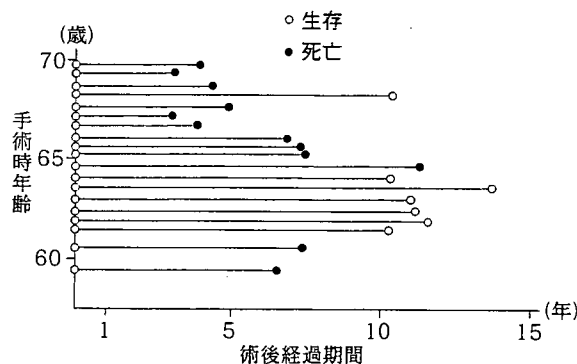


図 2 手術時年齢と術後生存の有無

は 1~8 年の平均 4.2 年であり、手術例は 3~18 年の平均 9.7 年であった (図 1)。死亡時年齢は非手術例が平均 59.8 歳であったが、手術例は平均 71.6 歳であり、両者に有意差があった。両群における死因を表 1 に示すが、非手術群では手術群に比べ肺炎が多く、また突然死も 1 例にみられた。手術時年齢が 65 歳以前であった患者は、9 例中 6 例が術後 10 年でも生存していたが、手術時年齢が 65 歳以上であった症例は 10 例中 9 名が死亡していた (図 2)。

III. 機能的予後

脊髄症状は非手術例では改善した症例はなく、初診時 Ranawat IIIA であった 16 例も全例 Ranawat IIIB に悪化していた (図 3)。一方、手術治療群では 19 例中 12 例 (63%) が改善し、不変は 6 例, 悪化は 1 例のみであった (図 4)。脊髄症状が悪化した症例は術後脊髄症状が改善したが、術後 3 年で軸椎下亜脱臼を生じ脊髄症状が再発し

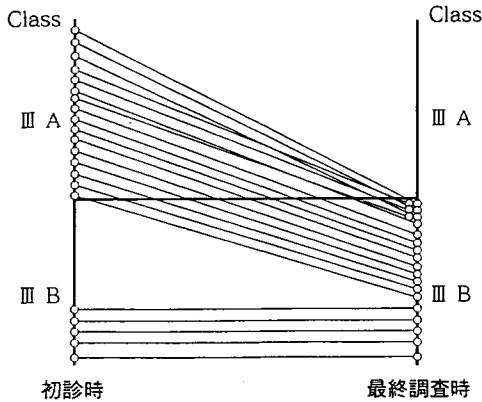


図 3 非手術例における脊髄症状の変化

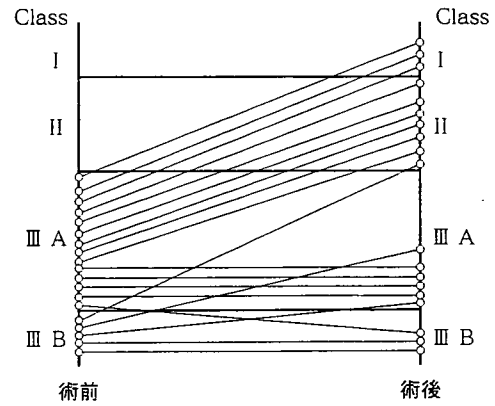


図 4 手術例における脊髄症状の変化

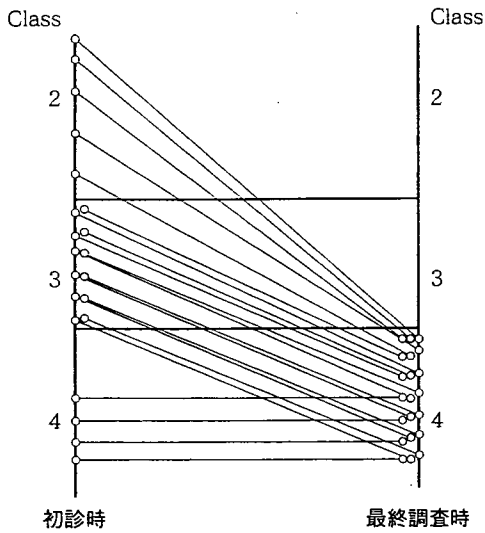


図 5 非手術例における機能障害の変化

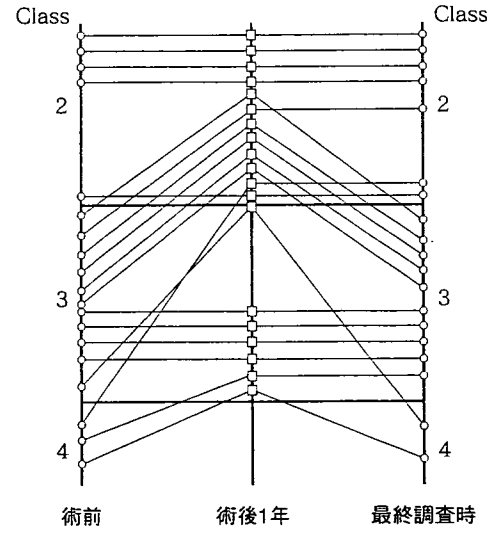


図 6 手術例における機能障害の変化

た。

患者の機能障害の変化をアメリカ リウマチ学会による機能障害の評価¹²⁾で評価すると、非手術例では、脊髄症状発症後3年以内に全例起立不能(class 4)の状態となった(図5)。手術群については脊髄症状の改善により、術後機能障害も19例中10例で改善したが、下肢関節病変の悪化により、再度悪化する症例もあった(図6)。

IV. 考 察

RAは、頸椎、特に上位頸椎に病変が出現するこ

とはよく知られており、環軸椎亜脱臼は、全RA患者の約25%^{13)~15)}、軸椎垂直亜脱臼は5~22%^{15)~17)}に認められると報告されている。軸椎垂直亜脱臼は特に重要な病変であり、突然死の要因になると報告されており^{17)~21)}、Martelら¹⁹⁾は、頑固な頸部痛と進行性の軸椎垂直亜脱臼の症例では特に、突然死の危険が高いことを報告している。今回の症例でもほとんどは軸椎垂直亜脱臼を合併していた。平泉ら²²⁾は、関節破壊の強いムチランス型では軸椎垂直亜脱臼の頻度が高く術後の死亡率が高いと報告している。

RA 患者の頸椎病変に対する手術適応と手術による機能改善については、異論が多い。一般的には、難治性の疼痛や脊髄症状が認められれば手術が選択されるが、患者の全身状態などによりその適応は一様ではない²³⁾。Fielding ら²⁴⁾は脊髄症状があり、ADI が 5 mm 以上で、しかも増加傾向にある場合を手術適応としているが、全身状態が悪く術後の合併症を危惧して手術できない場合もある。Clark ら²⁵⁾は脊髄症状を認める環軸椎脱臼の患者に手術をしても、脊髄症状の改善はわずか 27%の患者にしか得られないと報告している。また、Borden ら²⁶⁾は残余脊柱管径が 10 mm 以下の患者には、神経症状の手術による回復は期待できないとし、残余脊柱管径が 14 mm 以上の時点での予防的固定術を提唱している。Casey ら²⁷⁾は、環軸椎固定は、歩行不可能な Ranawat の IIIB の患者には適応がないとしている。

本稿では環椎椎弓形成術と後頭頸椎固定術が脊髄症状のある RA 患者に与える影響を非手術例と比較した。脊髄症状を有する RA 患者に対する手術の意義を患者予後の立場から同じ条件の非手術患者と比較検討した報告はこれまでほとんどなかった。

Marks ら²⁸⁾は、脊髄症状のある患者の 6 カ月後の治療成績として、保存的に治療した場合 18 例中 10 例 (56%) が死亡し、手術 11 例では死亡は 3 例 (27%) であったと報告している。しかし、対象患者の条件は詳細にしておらず、長期的追跡は行われていない。

われわれの研究では、脊髄症状があり、手術を行わなかった患者は脊髄症状発症後平均 4.2 年で死亡していた。一方、手術例では術後生存率は、脊髄症状発症後 7 年で 60%であったが、3~18 年の平均 9.7 年生存しており、死亡時年齢も非手術群が平均 59.8 歳であるのに対して手術群は平均 71.6 歳と有意に高く、手術は患者の生命予後に貢献していた。また機能的予後として非手術患者での脊髄症状の改善はほとんど認められず、脊髄症状発症 3 年以内に全例起立不能の状態に陥っていたが、手術例では 63%に脊髄症状の改善が認められた。膝や股関節などの四肢関節病変の進行

により、脊髄症状改善により一旦改善した機能障害が徐々に悪化する場合もあるが、手術は脊髄症状を有する RA の機能的予後にも貢献しているといえる。

最近の RA 治療に関するトピックスとして、生物学的製剤を中心とした薬物治療の飛躍的な進歩が挙げられる。この RA の薬物治療の進歩により、RA 患者の生命予後あるいは機能的予後も改善することは当然予想される。また RA 頸椎病変に対する手術的治療においても環軸椎間螺子固定など術式の進歩があり、より優れた手術成績が期待されている。本稿では比較的古典的な術式を受けた患者とステロイドや DMARD を中心とした薬物治療の患者での成績比較をしたが、今後 RA 患者の生命予後あるいは機能的予後に対する新しい手術の貢献度を検討するには、最近の RA 薬物治療による生命予後や機能的予後の成績を対照にする必要がある。さらなる成績の評価は患者の QOL まで含めた評価法を確立することが必要となる。

文 献

- 1) Brooks AL et al : Atlanto-axial arthrodesis by the wedge compression method. *J Bone Joint Surg* **60-A** : 279-284, 1978
- 2) Gallie WE : Fractures and dislocations of the cervical spine. *Am J Surg* **46** : 495-499, 1939
- 3) McGraw RW et al : Atlanto-axial arthrodesis. *J Bone Joint Surg* **55-B** : 482-489, 1973
- 4) Crockard HA et al : One-stage transoral decompression and posterior fixation in rheumatoid atlanto-axial subluxation. *J Bone Joint Surg* **72-B** : 682-685, 1990
- 5) Sakou T et al : Occipitoatlantoaxial fusion utilizing a rectangular rod. *Clin Orthop* **239** : 136-144, 1989
- 6) Grob D et al : Atlanto-axial fusion with transarticular screw fixation. *J Bone Joint Surg* **73-B** : 972-976, 1991
- 7) Magerl F et al : Stable posterior of the atlas and axis by transarticular screw fixation. *Cervical Spine* (ed by Kehr P et al), Springer, 322-327, 1986
- 8) Rasker JJ et al : The natural history of rheumatoid arthritis over 20 years ; clinical symptoms, radiological signs, treatment, mor-

- tality and prognostic significance of early features. *Clin Rheumatol* **6** : 5-11, 1987
- 9) Scott DL et al : Long-term outcome of treating rheumatoid arthritis ; results after 20 years. *Lancet* **348** : 1108-1111, 1987
 - 10) 塚本正美ほか : 発症からみた慢性関節リウマチ患者の長期予後. 別冊整形外科 No. 34 : 15-18, 1998
 - 11) Ranawat CS et al : Cervical spine fusion in rheumatoid arthritis. *J Bone Joint Surg* **61-A** : 1003-1010, 1979
 - 12) Steinbrocker O et al : Therapeutic criteria in rheumatoid arthritis. *JAMA* **140** : 659-662, 1949
 - 13) Conlon PW et al : Rheumatoid arthritis of the cervical spine ; an analysis of 333 cases. *Ann Rheum Dis* **25** : 120-126, 1966
 - 14) Fielding JW : Rheumatoid arthritis of the cervical spine. *Instr Course Lect* **32** : 114-131, 1983
 - 15) Mathews JA : Atlanto-axial subluxation in rheumatoid arthritis ; a 5-year follow-up study. *Ann Rheum Dis* **33** : 526-531, 1974
 - 16) Henderson DRF : Vertical atlanto-axial subluxation in rheumatoid arthritis. *Rheumatol Rehabil* **14** : 31-38, 1975
 - 17) Webb FWS et al : Death from vertebral artery thrombosis in rheumatoid arthritis. *Br Med J* **2** : 537-538, 1968
 - 18) Martel W et al : Fatal atlanto-axial luxation in rheumatoid arthritis. *Arthritis Rheum* **6** : 224-231, 1963
 - 19) Martel W et al : Cervical vertebral erosions and subluxations in rheumatoid arthritis and ankylosing spondylitis. *Arthritis Rheum* **3** : 546-556, 1960
 - 20) Storey G : Changes in the cervical spine in rheumatoid arthritis with compression of the cord ; with reports of four cases. *Ann Phys Med* **4** : 216-218, 1958
 - 21) Parish DC et al : Sudden death in rheumatoid arthritis from vertical subluxation of the odontoid process. *J Natl Med Assoc* **82** : 297-304, 1990
 - 22) 平泉 裕ほか : ムチランス型慢性関節リウマチの頸椎病変の管理上の留意点. 整形外科 **48** : 265-273, 1977
 - 23) 片岡 治 : リウマチの頸椎病変—その臨床病態と治療. 日脊会誌 **6** : 35-48, 1995
 - 24) Fielding JW et al : Spine fusion for atlanto-axial instability. *J Bone Joint Surg* **58-A** : 400-407, 1976
 - 25) Clark CR : Rheumatoid involvement of the cervical spine ; an overview. *Spine* **19** : 2257-2258, 1994
 - 26) Boden SD et al : Rheumatoid arthritis of the cervical spine. *J Bone Joint Surg* **75-A** : 1282-1297, 1993
 - 27) Casey ATH et al : Surgery on the rheumatoid cervical spine for the non-ambulant myelopathic patient ; too much, too late? *Lancet* **347** : 1004-1007, 1996
 - 28) Marks JS et al : Rheumatoid cervical myelopathy. *Q J Med* **199** : 307-319, 1981

* * *

* *

特集 RA 頸椎病変の治療

RA 頸椎病変の外科治療の現状

小田 剛 紀* 米 延 策 雄**

要旨：RA 頸椎病変外科治療の現状として、まず 2001 年手術例の全国調査結果を示した。その概要は、① 74 施設で 234 名 236 件の手術が実施されていたが、年間 3 件以下の施設が 74.3% を占めていたこと、② 主な手術法が後頭・頸(胸)椎固定術、環軸椎固定術であったこと、③ 手術法により術前神経症状重症度に相違があったこと、④ 自施設の RA 治療例より他施設から紹介の手術例数が上回ったこと、である。次に、1990 年代手術例の多施設調査結果を提示した。その概要は、① 周術期合併症 19.7%、② 術前脊髄症状を呈した例の術後 2 年での改善 58.8% (追跡率 69.6%)、③ Ranawat IIIb は改善 59.0%、不変・死亡 41.0% (追跡率 67.0%)、④ 術後の新たな中下位頸椎病変出現に対する手術が 4.4%、⑤ 術後生存率は 2 年 93.5%、5 年 79.0%、である。これらをもとに RA 頸椎病変外科治療の今後の課題を提示した。

はじめに

関節リウマチ (RA) による頸椎病変により脊髄症状が出現したり、強い後頸部痛が生じたりすると、四肢関節の障害を有する RA 患者には重大な日常生活動作 (ADL) の障害をもたらされる。また、脳幹や上位頸髄部の障害に起因する突然死の報告¹⁾²⁾ や、脊髄症状を生じた患者の生命予後が明らかにされる^{3)~5)} につれて、RA 頸椎病変は生命予後にも関与することが認識されてきている。

* Takenori ODA, 独立行政法人労働者健康福祉機構大阪労災病院, 整形外科

** Kazuo YONENOBU, 独立行政法人国立病院機構大阪南医療センター

The current Japanese circumstances of surgical treatments for cervical spine in rheumatoid arthritis

Key words : Rheumatoid arthritis, Cervical spine, Surgical treatment

こうした RA 頸椎病変に対して外科治療が選択肢となるが、以前は周術期死亡や術後合併症が多かったために外科治療に批判的な意見も多かった⁶⁾⁷⁾。しかし、近年の麻酔や全身管理技術の向上、脊椎の手術手技やインストゥルメンテーションの進歩は、RA 頸椎病変に対する外科治療の安全性や有効性にも寄与し、良好な成績報告が示されつつある^{8)~11)}。また、生命予後の観点からも手術治療の重要性が認識されてきており⁵⁾¹²⁾、RA における頸椎手術の機会は増加してきている印象がある。

本稿では、平成 14 年度に編成された「関節リウマチの頸椎・上肢機能再建に関する研究」班が実施した二つの調査、すなわち RA 頸椎手術症例を対象にした全国レベルの調査ならびに 1990~1999 年の RA 頸椎手術症例を対象にした 7 施設による多施設調査をもとに、本邦における RA 頸椎病変に対する外科治療の現状を示し、残されている課題や問題点を提示したい。

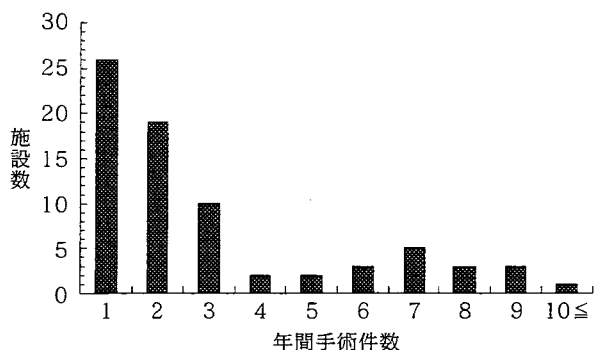


図1 各施設の年間のRA頸椎手術件数

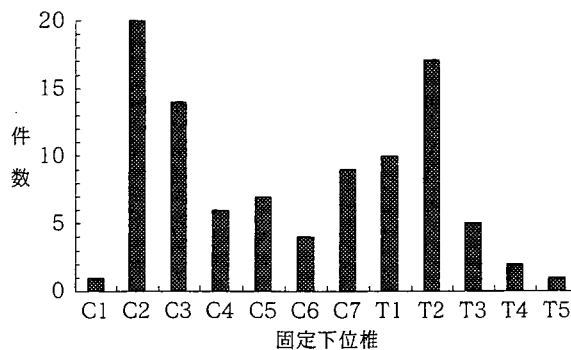


図2 後頭・頸(胸)椎固定術の固定下位椎

1. 全国調査からみた本邦におけるRA頸椎病変に対する手術の現状

平成14年度に編成された「関節リウマチの頸椎・上肢機能再建に関する研究」班では、日本脊椎脊髄病学会の協力を得て、2001年の1年間に実施されたRA頸椎手術症例を対象にした全国レベルの調査を実施しており¹³⁾、その結果を以下に示す。

1. 調査対象の概要

調査の依頼施設は313施設で、196施設より回答が得られ(回答率62.1%)、RA頸椎手術総数は236件(他疾患を含めた全頸椎手術4,267件の5.5%)、患者数は234名であった。性別は男性41名、女性190名、不明3名、手術時年齢は33~85歳(平均63.4歳)、初回手術例が218名、再手術例が16名であった。

2. 施設ごとのRA頸椎手術実施状況

RA頸椎手術を実施していた施設は74施設(回答施設の37.8%)で、大半の施設(実施施設の74.3%)が年間3件以下であり、10件以上は1施設のみであった(図1)。

3. 手術方法の内訳

手術方法を後頭・頸(胸)椎固定術、環軸椎固定術、その他の手術に分類した。後頭・頸(胸)椎固定術は96件で、固定下位椎はC1からT5に及んでいたが、主にC2~3(34件)とC7~T2(36件)の2つの部位に分かれた(図2)。本手術における使用インプラントは多種だが、ロッドあるいはプレートによる固定の際に、スクリューが使用

されたもの47件、鋼線あるいはフックが使用されたもの47件であった。環軸椎固定術は102件で、その単独例が89件、中下位頸椎の除圧術や固定術を併用した例が13件であった。固定方法はMagerl法が66件と最も多く、各種のワイヤリング法は30件であった。その他の手術は38件で、椎弓切除術あるいは椎弓形成術の単独12件、これらに後方固定術を併用したもの16件、前方固定術単独6件、前方解離術2件、前方後方固定術1件、経口除圧術1件であった。なお前方解離術の2件は、いずれも二期的に後方アプローチでの後頭骨からの固定術が実施されていた。

4. 術前神経症状の重症度

Ranawatらの評価法¹⁴⁾に基づく術前の神経症状の重症度は、class I(脊髄症状なし):30名、class II(自覚的脱力、しびれ):43名、class IIIa(他覚的脱力、索路症状・歩行可能):55名、class IIIb(他覚的脱力、索路症状・歩行不能):30名、不明:29名、回答なし:47名であった。なお不明、回答なしを除くと、後頭・頸(胸)椎固定術群はIIIa、IIIbが73.5%(68名中50名)を占めたのに対し、環軸椎固定術群はIIIa、IIIbは30.1%(73名中22名)にすぎず、むしろI、IIが69.9%(73名中51名)を占めていた(図3)。

5. 頸椎手術例のRAに対する薬物治療の状況と手術の経緯

RAに対する薬物治療の実施医は、整形外科医111例(47.4%)、内科医71例(30.3%)、その他4例、なし1例、回答なし47例であった。頸椎手

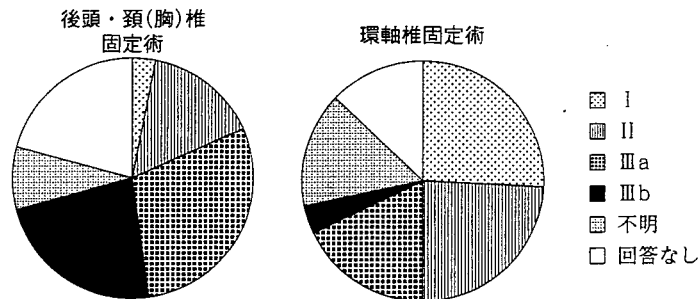


図 3 後頭・頸(胸)椎固定術と環軸椎固定術における術前の神経症状

術の経緯においては、自施設での RA 治療例 (31.6%) より他施設からの紹介例 (44.4%) が上回っていた。整形外科を経過していた例は 116 例 (49.6% : 自施設 48 例, 他施設 68 例), リウマチ科・内科を経過していた例は 62 例 (26.5% : 自施設 26 例, 他施設 36 例) であった。

II. 多施設調査による RA 頸椎病変に対する外科治療成績の現状

「関節リウマチの頸椎・上肢機能再建に関する研究」班では、1990～1999 年の RA 頸椎手術症例を対象に 7 施設による多施設調査を実施した¹⁵⁾。登録された 340 例の RA 頸椎手術症例から退院後の追跡が完全に欠落している例、術前の情報が不十分な例を除外した 295 例をもとにした解析を中心に、調査の結果を示す。

1. 対象症例の内訳

登録された 340 例から退院後の追跡が完全に欠落している例、術前情報の不十分な例を除外した 295 例の内訳は、男 72 例, 女 223 例, 手術時平均年齢 60.8 歳 (26～85 歳), RA 罹病期間は平均 15.0 年, 術前の Ranawat らの神経症状 class は, I : 65 名, II : 75 名, IIIa : 84 名, IIIb : 71 名であった。脊髄症状を呈した (神経症状 class II, IIIa, IIIb) 230 名のうち 211 名で脊髄症状出現から手術までの期間が特定可能で, 平均 1.0 年であった。手術法は, 後頭・頸(胸)椎固定術 147 例, 環軸椎固定術 118 例, その他の固定術 15 例, 除圧術のみ 15 例であった。後頭・頸(胸)椎固定術の固定下位椎は C2～3 : 94 例, C7 以下 : 40

例で, 固定方法は, 椎弓下ワイヤリングとロッドを用いた固定が 116 例 (78.9%) であった。環軸椎固定術では Magerl 法が 94 例 (79.7%) を占めた。なお手術法により術前の神経症状重症度が異なり, 後頭・頸(胸)椎固定術では IIIa, IIIb が 68.7% (147 名中 101 名) を占めたのに対し, 環軸椎固定術では I, II が 76.3% (118 名中 90 名) を占めていた。

2. 周術期合併症

術中・術後早期 (4 週間以内) の合併症の頻度は 19.7% であった。術後 4 週間以内の死亡は 1 例 (0.3%) であった。頻度の高い合併症は, 呼吸器合併症 10 例, 手術部感染 9 例, インプラント関連合併症 8 例であった。主な二つの手術法での合併症頻度は, それぞれ後頭・頸(胸)椎固定術群 27.8%, 環軸椎固定術群 7.8% であり, 両者間に統計学的な有意差を認めた。

3. 神経症状での手術成績評価

本調査では術後 2 年での状態を調査しており, 194 例 (追跡率 65.8%) で結果が得られた。術後 2 年までに死亡していたものが 16 例で, 残る 178 例の術後 2 年の神経症状 class は, I : 72 例, II : 55 例, IIIa : 39 例, IIIb : 12 例であった (表 1)。術前に脊髄症状を呈した (神経症状 class II, IIIa, IIIb) 160 例 (追跡率 69.6%) では, 術前に比べ改善 94 例 (58.8%), 不変 51 例 (31.9%), 悪化 3 例 (1.9%), 死亡 12 例 (7.5%) であった。

4. 頸椎に対する再手術, 追加手術

再手術, 追加手術は 29 例に実施されていた。8 例は初回手術の 6 ヶ月以内に実施されており, 感

表 1 Ranawat らの神経症状 class の術前, 術後 2 年の評価¹⁵⁾
(症例数)

| 術前 | 術後 2 年 | | | | | | | 全体での解析 | | 登録 |
|-------|--------|----|-------|-------|----|-----|-----|--------|----|-----|
| | I | II | III A | III B | 死亡 | 小計 | 不明 | 対象 | 除外 | 合計 |
| I | 29 | 1 | 0 | 0 | 4 | 34 | 31 | 65 | 4 | 69 |
| II | 28 | 21 | 3 | 0 | 2 | 54 | 21 | 75 | 6 | 81 |
| III A | 13 | 21 | 18 | 0 | 3 | 55 | 29 | 84 | 6 | 90 |
| III B | 2 | 12 | 18 | 12 | 7 | 51 | 20 | 71 | 20 | 91 |
| 不明 | — | — | — | — | — | — | — | — | 9 | 9 |
| 合計 | 72 | 55 | 39 | 12 | 16 | 194 | 101 | 295 | 45 | 340 |

染に対する搔爬 4 例, 除圧の追加 2 例, 固定の追加 2 例であった。21 例は初回手術 1 年以降の実施で, 新たな中下位病変の出現に対する手術は 13 例 (4.4%) であった。それ以外は偽関節に対する手術 3 例, 晩期感染に対する搔爬 1 例, インプラントの抜去 4 例であった。

5. 生命予後

追跡時に死亡が確認されたのは 75 例で, Kaplan-Meier 法による術後生存率は 2 年 93.5%, 5 年 79.0% であった (図 4)。統計学的に有意差をもって術後生存曲線に影響した因子は, 性, 手術時年齢, 術前の神経症状 class, ARAclass, 軸椎垂直性亜脱臼の有無, 軸椎下亜脱臼の有無であった。また, 術前に脊髄症状 (神経症状 class II, IIIa, IIIb) を呈した例を対象に, 脊髄症状出現から手術までの期間を 6 カ月以内と以降に分けると, 術後短期の生存率は有意差をもって 6 カ月以内が高かった。さらに, これらを対象に術後 2 年の結果を改善と不変・悪化に分けると, 術後 2 年以降の生存率は改善群が有意差をもって高かった。

6. 術前神経症状 class IIIb の成績¹⁶⁾

1 項から 5 項の全体での解析においては統計学的解析を重視したため, 術前あるいは術後の情報がかなり欠落していた一部の症例 (45 例) を除外した。だが, 結果的に術前の Ranawat らの評価法での class IIIb (脊髄症により歩行不能) における除外の割合が最も高くなった (表 1)。しかし, 術前 class IIIb の症例に対する手術適応に関しては議論の多いところであることから, これらのみ

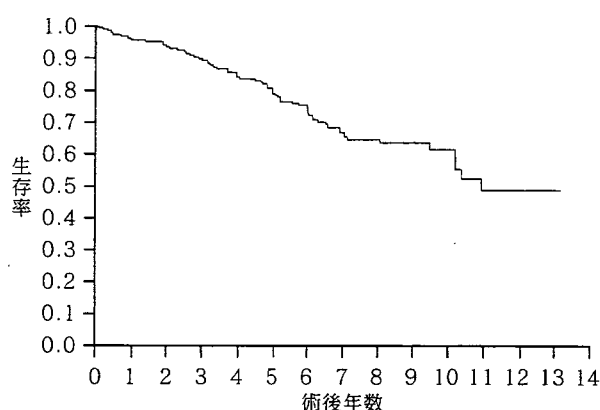


図 4 RA 頸椎手術後の生存曲線

を取り出した検討も必要であると考え, 以下の解析を実施した。登録された全 340 例のなかで, 術前の Ranawat らの評価法が class IIIb であったものは 91 例 (26.8%) であった。男 19 例, 女 72 例, 手術時平均年齢 62.2 歳, 手術法は, 後頭・頸(胸)椎固定術 57 例, 環軸椎固定術 13 例, その他の固定術 10 例, 除圧術のみ 11 例であった。

術中と術後 4 週間以内の合併症は, これら全例で結果が得られており, 合併症を認めたものは 26 例 (28.6%) であった。周術期 (術後 4 週間以内) 死亡は 1 例 (1.1%) であった。術中合併症としては, 硬膜損傷 3 例, インストゥルメンテーション関連 4 例であった。術後合併症の主なものは, 肺炎 6 例, 尿路感染 5 例, 手術部感染 4 例, 血腫 3 例であった。

術後 2 年あるいはそれ以降で生存が確認され Ranawat らの評価法での結果が得られていたも

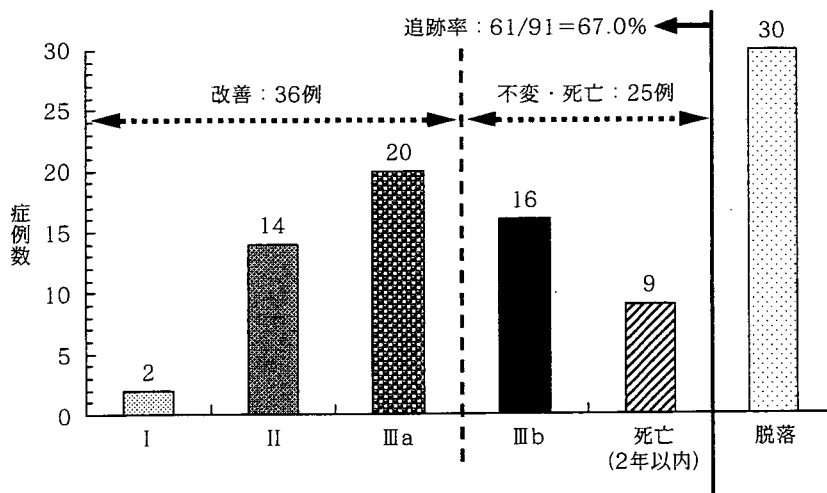


図5 Ranawat IIIb に対する術後2年以降の評価

のは52例で、そのclassの内訳はI：2例、II：14例、IIIa：20例、IIIb：16例であり、一方、術後2年以内の死亡が9例で確認された(図5)。これら61例(追跡率67.0%)についてみると、改善(I, II, IIIa)は36例(59.0%)、不変・死亡(IIIb, 死亡)は25例(41.0%)であった。これらの2群間で成績に影響する因子を分析したところ、統計学的に有意差を認めた項目は、軸椎下亜脱臼の有無、周術期合併症の有無であった。手術法については、後頭骨からC5以下の広範囲な固定術とそれ以外で分けると有意差を認めた。なお、術後2年以内死亡9例は、いずれも術後1年以内の死亡であり、しかも4例は術後6カ月以内の死亡であった。

III. RA 頸椎病変に対する外科治療の現状からみた今後の課題

RA 頸椎病変に対する外科治療は、侵襲度が高く、術後に重篤な合併症が危惧されることは否めない。これまでの比較的多数例の手術成績を示した文献^{17)~20)}での周術期死亡(術後4週から1カ月以内の死亡)は3.6~11.4%と極めて高かった。しかしながら、これについては周術期管理の進歩により減少していると考えられ、実際に本邦での今回示した調査では0.3%にすぎなかった。ただ

し、合併症の頻度は決して低いとはいえ、侵襲の大きい後頭・頸(胸)椎固定術では27.8%、術前脊髄症重症(Ranawat IIIb)では28.6%と特に高く、なかでも感染に対する十分な認識が必要で克服すべき点である。

手術の適応、タイミングも、なお課題として残されている。脊髄症状が重度になってからの外科治療では良好な成績が得られていない²¹⁾ことを主な根拠に、早期の外科治療が推奨されてきたが、どの段階で手術すべきなのか? は明確に示されていない。臨床症状の乏しい段階での、脊髄症状の出現や亜脱臼の進行に対してのいわゆる予防手術は、あまりに行き過ぎると不必要な手術を増やすことにつながりかねない。今回示したいずれの調査でも、環軸椎固定術については脊髄症状のないclass Iにもかなり実施されているという結果であった。手術適応の分析を目的とした調査ではなかったため、局所症状(頸部痛)に関する情報が十分得られていないが、これらは局所症状(頸部痛)を適応に手術が実施された可能性と神経症状出現の予防を目的に実施された可能性が考えられる。近年、頸椎病変の進行や神経症状出現に対する予防手術、早期手術の妥当性が議論され始めており、その観点からこうした症例を分析することは、手術の適切な時期を考える上でも重要

となってくる。早期の手術が頸椎病変の自然経過を変える可能性があるのか？という観点からの検討が今後必要であろうし、また将来的に臨床症状を引き起こす危険性の高い、真に手術を要するための早期の画像診断指標を提示していく方向性も必要であると考えられる。

一方で、脊髄症重症例に対する外科治療の取り組みも課題である。Ranawat IIIb に対する手術成績のまとまった報告は、1996年のCaseyらの55例からなる報告²¹⁾しかなく、術後1カ月以内の早期死亡が12.7%、6カ月以内の死亡が約1/4、Ranawatらの評価法での1段階以上改善は40%、class I, IIへの改善は20%にすぎないという成績が示されている。そのため、こうした症例に対する手術は手遅れ、過剰ではないか？という問いかけすらなされている。今回提示した調査では、周術期死亡1.1%、6カ月以内の死亡4.4%であり、また追跡率が67%という問題はあるが、1段階以上の改善は36例で認め、これらの追跡例に占める割合は59.0%、脱落例を含め全体に占める割合でも39.6%であった。Class I, IIへの良好な改善は追跡例に絞ってみても26.2%に過ぎなかったが、これらの結果はCaseyらの報告ほど悲観すべきものではない。これには、手術手技や術後管理の進歩も反映していると考えられ、決して手術は手遅れ、過剰ではなく、Ranawat IIIb であっても外科治療は推進すべきであると考えられる。しかしながら、術後比較的早期の死亡例の存在に加えて、周術期合併症が28.6%と高いことが問題であった。また、軸椎下亜脱臼の有無、合併症の有無、選択された手術の固定範囲が成績に影響する因子として挙げられたが、これらはいずれも原疾患や頸椎病変の重症度を反映した因子と考えられる。疾患の重症度が手術成績に影響を及ぼすという点では当然の結果といえるが、残された課題といえる。

手術方法選択において最も問題となるのは、固定範囲である。RA 頸椎病変は進行性要素を持っており、固定部位以外での新たな病変の出現が危惧される。初回手術の固定範囲の選択によって異なるが、上位頸椎のみの固定術での新たな下位頸

椎病変の出現による再手術の頻度は4~36%であり⁹⁾¹⁹⁾²²⁾、今回提示した結果でも4.4%であった。後頭・頸(胸)椎固定術の固定下位椎が、いずれの調査においてもC3までとC7以下の二つに分かれていたが、これらの固定範囲を分ける指標が必要である。この問題を解決するには、頸椎病変の自然経過とそれに関連する因子の検討がさらに必要である。

外科治療の進歩に伴い治療成績は改善していると言われている⁹⁾。本邦では平成16年に、厚生労働省研究班により「関節リウマチの診断のマニュアルとEBMに基づく治療ガイドライン」が出され、頸椎の手術療法についても文献のレビューがなされている²³⁾。しかし、外科治療の特性上、ケースシリーズが多く、いわゆるエビデンスレベルの高い報告がなく、成績に基づく治療選択は、いまだ確立されていない。EBMとして外科治療の有効性を明らかにしていかなければならない現状では、RA 頸椎手術の評価方法についても再検討する必要がある。現状では、Ranawatらの評価法¹⁴⁾がRA 頸椎手術における最も代表的で流用されている評価法である。しかしながら上肢機能が評価基準に含まれていないこと、下肢の関節罹患による影響が避けられない評価法であること、評価者間でのばらつきの存在やRAに伴う関節破壊重症度の影響を受けてしまうことなど、評価法としての問題点は多く、EBMの要求に応えられる評価方法とは言い難い。

全国調査の結果からみると、RA 頸椎手術は単独施設での年間症例数は限られており、経験される機会に恵まれている手術ではない。本疾患の特殊性や上記に掲げた課題を考慮すると、本手術治療に対する外科医の教育も重要な課題である。また専門性の高い手術治療として、限定した施設で実施していくという方向性も検討されるべきであると考えられる。またRAには脊椎外科医より、通常は関節外科医、あるいは内科医・リウマチ科医の関与が大きい。実際に頸椎手術は他施設からの紹介例が、自施設での治療例より多い状況であった。そうした面を踏まえると、脊椎外科医からのRA治療医に対する頸椎病変の重要性の啓蒙は今後も

必要である。そのためには、頸椎手術を必要とするための指標をさらに明確にリウマチ診療医に対して提示していく必要もある。

(本稿における第 I 項に示した調査にご協力いただきました日本脊椎脊髄病学会・脊椎手術に関する障害予防委員会、ならびに調査にご回答をいただきました諸先生方にこの場を借りて深謝いたします。また、第 I, II 項に示した調査にご協力、ご尽力いただきました「関節リウマチの頸椎・上肢機能再建に関する研究」班の研究分担者、研究協力者の諸先生方にも、この場を借りて深謝いたします。)

文 献

- 1) Davis FW et al: Rheumatoid arthritis with death from medullary compression. *Ann Intern Med* **35**: 451-454, 1951
- 2) Mikulowski P et al: Sudden death in rheumatoid arthritis with atlanto-axial dislocation. *Acta Med Scand* **198**: 445-451, 1975
- 3) Saway PA et al: Clinical characteristics affecting survival in patients with rheumatoid arthritis undergoing cervical spine surgery; a controlled study. *J Rheumatol* **16**: 890-896, 1989
- 4) Sunahara N et al: Clinical course of conservatively managed rheumatoid arthritis patients with myelopathy. *Spine* **22**: 2603-2608, 1997
- 5) Matsunaga S et al: Prognosis of patients with upper cervical lesions caused by rheumatoid arthritis; comparison of occipitocervical fusion between C1 laminectomy and nonsurgical management. *Spine* **28**: 1581-1587, 2003
- 6) Ferlic DC et al: Surgical treatment of the symptomatic unstable cervical spine in rheumatoid arthritis. *J Bone Joint Surg* **57-A**: 349-354, 1975
- 7) Meijers KAE et al: Dislocation of the cervical spine with cord compression in rheumatoid arthritis. *J Bone Joint Surg* **56-B**: 668-680, 1974
- 8) Hamilton JD et al: Improved medical and surgical management of cervical spine disease in patients with rheumatoid arthritis over 10 years. *Ann Rheum Dis* **59**: 434-438, 2000
- 9) 石井祐信ほか: RA 上位頸椎病変の手術的治療と成績. *臨整外* **38**: 437-443, 2003
- 10) 星地重都司ほか: RA 上位頸椎病変に対するコンピュータ支援手術. *臨整外* **38**: 421-426, 2003
- 11) 清水敬親ほか: RA 頸椎手術の合併症と術前・術後管理. *リウマチ科* **31**: 134-142, 2004
- 12) 中津井美佳ほか: 関節リウマチの頸椎手術例の生命予後と予後不良因子の検討. *臨整外* **38**: 445-450, 2003
- 13) 小田剛紀ほか: 関節リウマチ頸椎手術の全国調査. *臨整外* **40**: 27-32, 2005
- 14) Ranawat CS et al: Cervical spine fusion in rheumatoid arthritis. *J Bone Joint Surg* **61-A**: 1003-1010, 1979
- 15) 藤村祥一ほか: 関節リウマチ頸椎手術の多施設後ろ向き調査に関する研究. 厚生労働科学研究費補助金免疫アレルギー疾患・予防研究事業 関節リウマチの頸椎・上肢機能再建に関する研究, 平成 14~16 年度総合研究報告書, 9-14, 2005
- 16) 小田剛紀ほか: 関節リウマチ頸椎病変による脊髄症状進行例 (Ranawat IIIb) に対する手術成績. *日脊会誌* **17**: 101, 2006
- 17) Boden SD et al: Rheumatoid arthritis of the cervical spine; a long-term analysis with predictors of paralysis and recovery. *J Bone Joint Surg* **75-A**: 1282-1297, 1993
- 18) Peppelman WC et al: Cervical spine surgery in rheumatoid arthritis; improvement of neurologic deficit after cervical spine fusion. *Spine* **18**: 2375-2379, 1993
- 19) Moskovich R et al: Occipitocervical stabilization for myelopathy in patients with rheumatoid arthritis. *J Bone Joint Surg* **82-A**: 349-3650, 2000
- 20) Casey ATH et al: Vertical translocation, Part II; Outcomes after surgical treatment of rheumatoid cervical myelopathy. *J Neurosurg* **87**: 863-869, 1997
- 21) Casey ATH et al: Surgery on the rheumatoid cervical spine for the non-ambulant myelopathic patient; too much; too late? *Lancet* **347**: 1004-1007, 1996
- 22) Kraus DR et al: Incidence of subaxial subluxation in patients with generalized rheumatoid arthritis who have had previous occipital cervical fusions. *Spine* **16**: S 486-S 489, 1991
- 23) 米延策雄: 頸椎の手術療法. 関節リウマチの診療マニュアル (改訂版), 診断のマニュアルと

—整形・災害外科—

EBMに基づく治療ガイドライン（越智隆弘ほか編），財団法人日本リウマチ財団，134-142，

2004
