

原 著

びまん性特発性骨増殖症に合併した 頸椎骨折の6例

高橋 秀¹⁾ 大下 優介^{*2)} 江 守 永²⁾
川崎 恵吉²⁾ 神崎 浩二¹⁾

抄録：びまん性特発性骨増殖症（diffuse idiopathic skeletal hyperostosis：DISH）は脊椎強直をきたすことが知られており、軽微な外傷でも骨折を引き起こしやすい。骨折後は偽関節のリスクも高いため臨床的に問題となっている。今回、DISHに合併した頸椎骨折を6症例経験したのでその臨床経過を報告する。2009年4月～2018年3月の間にDISHに合併した頸椎骨折を認めた6症例を対象とした。平均年齢は72歳（50歳～81歳）で、6症例中5症例が男性であった。受傷起点は軽微な外傷が4症例、交通事故が1症例、階段からの転落が1症例であった。前方成分の骨折部位は下位頸椎に多く、骨折部位は全症例で椎体中央～終板部であった。骨折部位は全症例で椎体前方に中央6症例中4症例は一時的にハローベスト固定を行った後に手術にて後方固定を行い、2症例は全身状態不良のためハローベストを使用した保存加療を余儀なくされた。術前に神経症状を認めた4症例は術後も神経症状が残存した。DISHや強直性脊椎炎は、脊椎前縦靱帯を中心とした骨化により脊椎強直に至る疾患である。DISHの病因や発生機序は不明な点も多いが、年齢や糖尿病などの生活習慣病との関連が指摘されている。DISHに伴う頸椎骨折は、その他の頸椎骨折と比較し、比較的軽微な外傷で発生しやすいと言われており、Extension-distraction型の損傷形態が多い。われわれの症例でも6症例全てが伸展損傷によるreverse Chance型の骨折であった。長いLever armのために骨折部は不安定性が強いため偽関節を生じやすく、遅発性麻痺等の神経症状をきたす可能性が高い。保存療法は頸椎後方組織の損傷を認めない場合や神経症状を認めない場合に考慮されるが、現実的には3-column損傷が多く手術加療を要する症例が多い。そのためDISHに伴う頸椎骨折に対しては、早期の手術加療が推奨されている。しかし実際には、患者の全身状態が悪く緊急手術が困難であったり、インプラントの発注等に時間を要すると考えられ、同日の緊急手術による内固定は困難なケースも多い。それに比べて、ハローベストの装着には全身麻酔は不要であり、器具さえあれば簡便に装着可能である。われわれは同日の緊急手術での内固定は施行せず、ハローベストの装着が困難であった1症例を除く5症例で初診日にハローベストを装着した。全例に神経症状の悪化や遅発性麻痺の出現は認めなかった。われわれも最終的には手術による内固定を目指しているが、早期のハローベスト固定により、十分な全身検索が可能となり、綿密な手術計画を立てる時間も確保することができた。DISHに伴う頸椎骨折に対して、早期にハローベストを使用した一期的固定を行うことは、遅発性麻痺の出現や神経症状の悪化を防ぐために有用であると考えられた。

キーワード：頸椎骨折、伸展伸張損傷、びまん性特発性骨増殖症、ハローベスト、後縦靱帯骨化症

¹⁾ 昭和大学藤が丘病院整形外科

²⁾ 昭和大学横浜市北部病院整形外科

* 責任著者

〔特別掲載（査読修正後受理）〕

緒 言

びまん性特発性骨増殖症 (diffuse idiopathic skeletal hyperostosis : DISH) は脊椎や末梢腱、靱帯付着部に骨化が生じる疾患であり、特に脊椎強直をきたすことが知られている^{1,2)}。弾性や関節可動性の低下した脊椎は、比較的軽微な外傷でも骨折を引き起こしやすく、椎体骨折を起こした場合は偽関節のリスクが高いことも報告されており、臨床的に問題となっている³⁻⁵⁾。

今回、DISH に合併した頸椎骨折を 6 症例経験したので報告する。

研究 方法

2009 年 4 月～2018 年 3 月の間で、当院で治療を行った DISH に伴う頸椎骨折患者 6 人を検討対象とし、カルテによる後方視的研究を行った。平均年齢は 72 歳 (50 歳～81 歳) で、6 症例中 5 症例が男性、1 症例が女性であった。調査項目は既往歴、合併症、受傷起点、受傷高位、OPLL の合併の有無、治療方法、神経症状とした (表 1)。また、骨折部位について、椎体前面・前縦靱帯骨化部に着目し、CT-MPR 画像より椎体中央部、椎体終板、椎間板の 3 群に分けた。神経症状については、Frankel grade を用いて初診時と最終観察における神経症状

の改善について検討した。

結 果

6 症例全てが DISH の診断は受けておらず、初診時のレントゲンと CT で DISH と診断した。既往歴として 1 症例に糖尿病の合併を認め、他の 1 症例は受傷以前から骨粗鬆症を指摘されていた。受傷起点は軽微な外傷 (立位からの転倒) が 4 症例、交通事故が 1 症例、階段からの転落が 1 症例であった。骨折部位は全て C5～C7 と下位頸椎であり、第 6 頸椎骨折が 4 症例と最も多かった。頸椎椎体前面・前縦靱帯骨化部における骨折部位は、全症例で椎体中央～終板部であった。また、3 症例は後縦靱帯骨化症 (ossification of posterior longitudinal ligament : OPLL) を併発していた。6 症例中、4 症例は一期的にハローベスト固定を行った後に、手術にて後方固定を行った。1 症例はアルコール依存症の離脱症状と胆石発作で手術を行うことができず、受傷当日に装着したハローベストを利用して保存加療を行った。また、もう 1 症例は多発外傷の患者で、外傷性くも膜下出血、血気胸、第 11, 12 胸椎椎体骨折を認めており、頸椎に関しては固定術も検討されたが、全身状態不良のためハローベストを使用した保存加療を余儀なくされた。初診時の神経症状については、手術加療を選択した 2 症例と保存療法を選択

表 1 DISH に合併した頸椎骨折の症例一覧

症例	年齢	性別	既往	合併症	受傷起点	高位	OPLL の合併	治療方法	神経症状 (Frankel) 初診時→最終観察時
1	81	男性	アルコール依存症 胆石 高血圧	外傷性 SAH*	転倒	C6 椎体終板	あり	保存 ハローベスト	gradeD → gradeD
2	64	男性	糖尿病 高血圧	後頭部挫創	転倒	C6 椎体	あり	手術 ハローベスト→後方固定	gradeC → gradeC
3	80	男性	特記事項なし	外傷性 SAH* 外傷性血胸 肺挫傷 Th11.12 椎体骨折	交通事故	C7 椎体	あり	保存 ハローベスト	gradeB → gradeB
4	79	女性	大動脈弁狭窄症 骨粗鬆症	右手挫創	転倒	C5 椎体終板	なし	手術 ハローベスト→後方固定	gradeD → gradeD
5	50	男性	めまい症	顔面挫創	転倒	C6 椎体	なし	手術 ハローベスト→後方固定	神経症状なし
6	78	男性	脳梗塞 高血圧 大腸癌	顔面挫創 肋骨骨折	階段から 転落	C6 椎体終板	なし	手術 ハローベスト→後方固定	神経症状なし

* : SAH (subarachnoid hemorrhage : くも膜下出血)

した 2 症例において神経症状を認め、それぞれ Frankel grade C と D が 1 症例、Frankel grade B と D が 1 症例であった。最終観察時においても神経症状は残存しており、すべての症例において Frankel grade の改善や悪化は認めなかった。

代表的症例 1 <表 1. 症例 1>

81 歳，男性。

主訴：頭痛，頸部痛。

既往歴：アルコール依存症，胆石症，高血圧。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：アルコール大量摂取後に転倒し受傷した。公園で寝ているところを発見され近医受診となり，頸椎骨折の診断で当院に紹介となった。

来院時所見および放射線学的所見：酩酊状態であり，精神科医師と連携して診察を行い，Frankel grade D の神経症状を認めた。レントゲン，CT 検査にて頸椎椎体前方骨性癒合と第 6 頸椎終板での椎体骨折，第 5 頸椎の椎弓骨折を認めた。また，OPLL の合併を認めた。MRI では少量の椎体前面の血腫を認めたが，脊柱管の狭窄は軽度であった（図 1）。

入院後経過：入院後も不穏が強く，鎮静下管理とした。入院当日にハローベストにて固定を行った。固定手術を考慮していたが，アルコール離脱症状が強く，経過中に胆石発作も併発し，本人の希望もありハローベスト固定での保存加療の方針とした。神

経症状は最終観察時にも残存し，Frankel grade D と入院時から改善は認めなかった。回復期リハビリテーション病院に転院し，受傷後 3 か月の CT 検査にて骨癒合を確認され，ハローベスト抜去し転院先退院となった。

代表的症例 2 <表 1. 症例 5>

50 歳，男性。

主訴：後頸部～背部痛。

既往歴：めまい症。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：明け方に自宅のトイレに行こうとしてふらつき転倒し受傷した。

来院時所見および放射線学的所見：意識レベルは問題なく，顔面挫創を認めたが，神経症状は認めなかった。レントゲン，CT 検査にて第 2 頸椎から第 11 胸椎にかけての椎体前方骨性癒合と第 6 頸椎の椎体骨折，第 5，6 頸椎の棘突起骨折を認めた。OPLL の合併は認めなかった。MRI では軽度の脊柱管の狭窄を認めた（図 2）。

入院後経過：Three columns 損傷であり，骨折部の不安定性が強いと判断し，入院当日にハローベストにて一期的に固定した。明らかな遅発性麻痺の出現は認めず，二期的に頸椎後方固定術を施行した。

手術：頸椎後方固定術（C3～Th2）。

術後経過：術後も神経症状は認めず，頸椎体幹装具を使用し離床を開始した。術後 1 週間で歩行器も

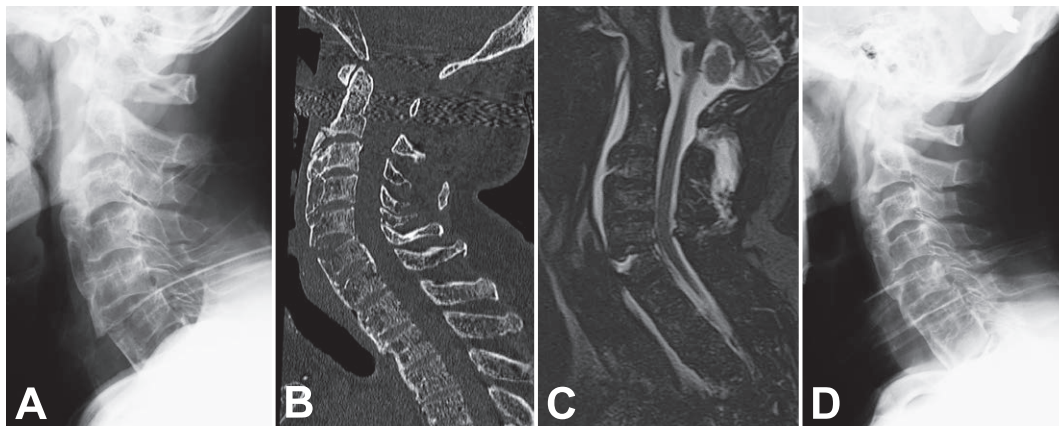


図 1 症例 1

- A：来院時側面レントゲン。椎体前方骨性癒合と C6 骨折を認める。
 B：来院時 CT。C6 椎体終板での骨折，C5 椎弓骨折，OPLL を認める。
 C：来院時 MRI。後方成分の損傷，椎体前面の血腫を認める。
 D：ハローベスト装着後レントゲン。整復位は良好であった。

不要となり、術後3週間で自宅退院となった。また、入院中に骨密度を測定し、YAM値が腰椎64%、股関節78%と低下していたため、続発性骨粗鬆症の検査を施行し、原発性と診断して退院後よりテリパラチドによる治療を開始した。やや骨癒合は遷延したが、術後5か月で骨癒合を確認した。現在、外来にて経過観察中である。

代表的症例3 <表1. 症例6>

78歳、男性。

主訴：後頸部痛。

既往歴：高血圧、脳梗塞、大腸癌。

家族歴：特記事項なし。

現病歴：自宅の階段で転落受傷し、救急車にて当院搬送となった。

来院時所見および放射線学的所見：顔面挫創、肋骨骨折を合併していたが、神経症状は認めなかった。レントゲン、CT検査にて椎体前方骨性癒合と第6頸椎の椎体終板での骨折を認め、MRIにてC5/6棘間靱帯の損傷も認めたことからThree columns損傷と考えられた。OPLLの合併は認めなかった(図3)。

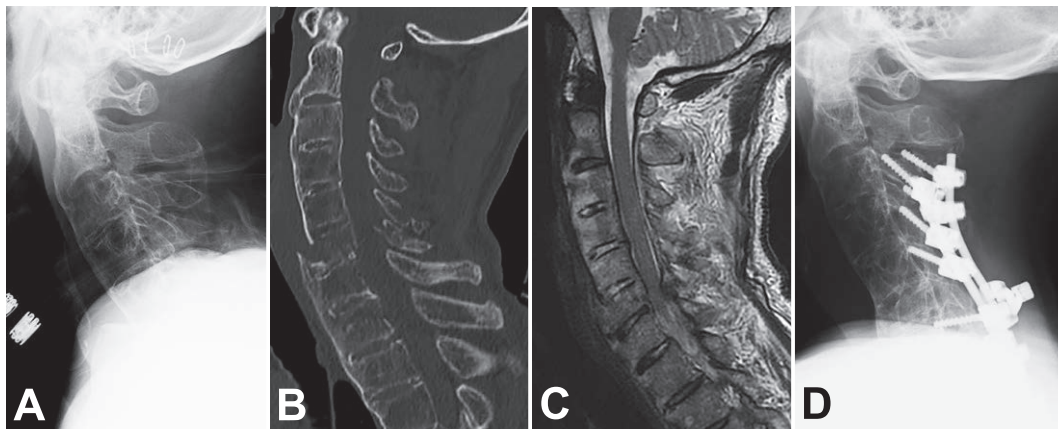


図2 症例2

- A：来院時側面レントゲン。椎体前方骨性癒合とC6骨折を認める。
B：来院時CT。C6椎体骨折、C5、6棘突起骨折を認める。OPLLは認めない。
C：来院時MRI。後方成分の損傷、軽度の脊柱管狭窄を認める。
D：術後側面レントゲン。頸椎後方固定術後（C3～Th2）。

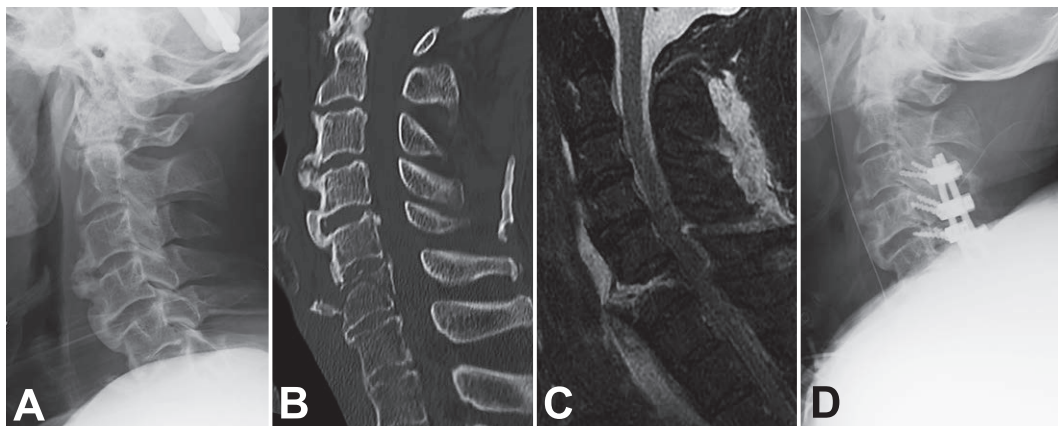


図3 症例3

- A：来院時側面レントゲン。椎体前方骨性癒合とC6骨折を認める。
B：来院時CT。C6椎体終板での骨折を認める。OPLLは認めない。
C：来院時MRI。C5/6棘間靱帯の損傷を認める。
D：術後側面レントゲン。頸椎後方固定術後（C3-Th1）。

入院後経過：骨折部の不安定性が強いと判断し、入院当日にハローベストにて一期的に固定した。明らかな遅発性麻痺の出現は認めなかった。抗血栓薬を内服していたため、休薬後に手術を行った。

手術：頸椎後方固定術（C3-Th1）。

術後経過：術後も明らかな神経症状は認めなかった。せん妄の合併もあり、リハビリテーションは思うように進まず、誤嚥性肺炎を繰り返すことから気管切開を施行した。入院後 2 か月で回復期リハビリテーション病院に転院となった。

考 察

強直性脊椎を認める疾患としては、DISH の他に強直性脊椎炎（ankylosing spondylitis：AS）が挙げられるが、いずれも脊椎においては脊椎前縦靱帯を中心に広範な骨化をきたし、脊椎強直にいたる疾患である。われわれは Resnick らが提唱した DISH の診断基準を用いて、初診時のレントゲンと CT にて ① 4 椎体以上の連続した前側方の骨化を認めること、② 椎間板腔が比較的保たれていること、③ 椎間関節の強直や仙腸関節の骨癒合・硬化性変化がないことを確認し、DISH と診断した⁶⁾。DISH の病因や発生機序は明らかになっていない部分も多いが、骨形成障害が主体であると考えられ、代謝障害や遺伝要素、解剖学的要因などとの関連が指摘されている^{1,2)}。他にも年齢、肥満、糖尿病との関連も指摘されており、生活習慣病の増加、高齢化に伴い近年増加傾向となっている^{7,8)}。

DISH に伴う頸椎椎体骨折は、その他の頸椎骨折と比較し、比較的軽微な外傷で発生しやすいと言われている⁷⁾。強直した脊椎は弾性や関節可動性が低下しているため、一部分に力が集中し骨折が発生しやすく、骨折後は長い Lever arm のために不安定性が強くなり偽関節を生じやすい。DISH に伴う強腰椎移行部の椎体骨折には伸展損傷が多く、reverse Chance といわれる extension-distraction 型の損傷形態が典型的であるとの報告もある⁹⁾。われわれの経験した 6 症例の頸椎骨折も reverse Chance 型の骨折であり、頸椎伸展による損傷と考えられた。また、最近では DISH と OPLL の併存についても議論されており、DISH と診断された患者のうち 18% に頸椎 OPLL を併存していたと報告もある¹⁰⁾。今回の研究では、6 症例中 3 症例（50%）に OPLL の

併存を認め、3 症例全てが OPLL 不連続部、もしくは断端部で骨折していた。OPLL を合併した DISH の頸椎骨折は、OPLL の不連続部や断端部に応力が集中し、骨折をきたしやすいと考えられた。

骨折の高位については、過去の報告と同様に、われわれの症例でも全症例で C5～C7 の下位頸椎の骨折であった^{11,12)}。骨折部位に着目すると、DISH に合併する腰椎、胸椎レベルでの骨折では、椎間板や椎体終板と比較し椎体中央部での骨折が多く、頸椎レベルでは経椎間板骨折が多いと報告されている^{4,13-15)}。その理由として、骨化癒合部の椎間板レベルにおける可動性の残存が指摘されているが、詳しい理由はわかっていない。われわれの症例では全て椎体中央部か椎体終板での骨折であり、過去の研究とは異なる結果となった。前縦靱帯は深層部の短い繊維が椎間板を架橋するように椎体の上下端に付着し、浅層部の長い繊維が 2～5 つの椎体をまたいで椎体上下端と椎体中央に付着している。そのため DISH における外傷時には、骨化した前縦靱帯の椎体付着部に応力が集中しやすい。また、Paley らは骨粗鬆症が椎体における骨折のリスクを上昇させる可能性を指摘している¹³⁾。今回の研究では骨密度の計測は 4 症例でのみ施行されていたが、いずれも骨量低下を認めていた。過去の研究において骨粗鬆症と骨折部位に関して検討を行った報告は渉猟できず、骨脆弱性により椎体部での骨折の頻度が高くなる可能性が考えられた。

治療に関しては、保存療法、手術療法が選択肢として挙げられる。ハローベストを使用した保存療法は、頸椎後方組織の損傷を認めない場合や神経症状を認めない場合に治療法のひとつとして考慮されるが、現実的には 3-column 損傷が多く手術加療を要する症例が多い。また、保存加療は手術と比較し偽関節率が高く、長期のハローベストによる固定は肺炎等の内科合併症のリスクも高いと報告されている^{16,17)}。頸椎の安定性を得るためには頸椎の制動が必要であるが、固定により嚥下が障害されることもあり誤嚥性肺炎に注意する必要がある¹⁸⁾。われわれの症例でも 1 例で誤嚥性肺炎を合併し、治療に難渋した。また、DISH に伴う頸椎骨折は遅発性麻痺を呈するリスクが高いとされている。体位変換による神経症状増悪のリスクや内科合併症等も考慮し、DISH に伴う脊椎骨折に対しては早期の手術加療が

推奨されている^{4, 5, 19, 20)}。最近の研究では、受傷後8時間以内の早期外科的手術により神経症状の改善が期待できるという報告もある²¹⁾。しかし実際には、患者の全身状態が悪く緊急手術が困難であったり、インプラントの発注や人員の確保にも時間を要すると考えられ、同日の手術による内固定は困難なケースが多いと推測される。それと比較すると、ハローベストの装着には全身麻酔は不要であり、器具さえあれば簡便に装着可能である。われわれは同日の緊急手術での内固定は施行せず、全身管理のためにハローベストの装着が困難であった1症例を除く5症例で初診日にハローベストを装着した。全例に神経症状の悪化や遅発性麻痺の出現は認めず、ハローベスト装着後は体動を許可することができるため、患者のストレスも軽減した。われわれも最終的には手術による内固定を目指しているが、早期のハローベスト固定により、十分な全身検索が可能となり、綿密な手術計画を立てる時間も確保することができた。受傷早期、できれば当日にハローベストにて頸椎の安定化を図り、全身検索の後に手術による内固定を目指すことは有用であると考えられた。

結 語

今回われわれはDISHに合併した頸椎骨折を6症例経験した。DISHに伴う頸椎骨折に対して、早期にハローベストを使用した一期的固定を行うことは、遅発性麻痺の出現や神経症状の悪化を防ぐために有用であると考えられた。

利益相反

本報告に対して開示すべき利益相反はありません。

文 献

- Mader R, Verlaan JJ, Buskila D. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis: clinical features and pathogenic mechanisms. *Nat Rev Rheumatol*. 2013;9:741-750.
- 上井 浩. DISHの定義, 分類, 病因. 脊椎脊髄ジャーナル. 2019;32:648-652.
- Westerveld LA, van Bommel JC, Dhert WJ, *et al*. Clinical outcome after traumatic spinal fractures in patients with ankylosing spinal disorders compared with control patients. *Spine J*. 2014;14:729-740.
- Westerveld LA, Verlaan JJ, Oner FC. Spinal fractures in patients with ankylosing spinal disorders: a systematic review of the literature on treatment, neurological status and complications. *Eur Spine J*. 2009;18:145-156.
- 岡田英次朗. びまん性特発性骨増殖症に対する脊椎固定術. 脊椎脊髄ジャーナル. 2016;29:575-579.
- Resnick D, Niwayama G. Radiographic and pathologic features of spinal involvement in diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH). *Radiology*. 1976;119:559-568.
- Caron T, Bransford R, Nguyen Q, *et al*. Spine fractures in patients with ankylosing spinal disorders. *Spine (Phila Pa 1976)*. 2010;35:E458-E464.
- 田中真弘, 加藤裕幸, 檜山明彦, ほか. DISH合併の頸椎損傷. 脊椎脊髄ジャーナル. 2019;32:673-678.
- 河野 修, 芝啓一郎. 強直性脊椎の脊椎損傷. 脊椎脊髄ジャーナル. 2016;29:421-430.
- Fujimori T, Watabe T, Iwamoto Y, *et al*. Prevalence, concomitance, and distribution of ossification of the spinal ligaments: results of whole spine CT scans in 1500 Japanese patients. *Spine (Phila Pa 1976)*. 2016;41:1668-1676.
- Fox MW, Onofrio BM, Kilgore JE. Neurological complications of ankylosing spondylitis. *J Neurosurg*. 1993;78:871-878.
- 坂本 圭, 藤本 徹, 谷脇琢也, ほか. 強直性脊椎炎に生じた頸椎椎体骨折の一例. 整外と災外. 2016;65:783-785.
- Paley D, Schwartz M, Cooper P, *et al*. Fractures of the spine in diffuse idiopathic skeletal hyperostosis. *Clin Orthop Relat Res*. 1991;267:22-32.
- Bransford RJ, Koller H, Caron T, *et al*. Cervical spine trauma in diffuse idiopathic skeletal hyperostosis: injury characteristics and outcome with surgical treatment. *Spine (Phila Pa 1976)*. 2012;37:1923-1932.
- 本田 淳, 三橋成行, 堀 武生, ほか. 全身性特発性骨増殖症 (DISH) 患者に発生した頸椎骨折の検討. 整・災外. 2011;54:293-297.
- Hendrix RW, Melany M, Miller F, *et al*. Fracture of the spine in patients with ankylosis due to diffuse skeletal hyperostosis: clinical and imaging findings. *AJR Am J Roentgenol*. 1994;162:899-904.
- Meyer PR Jr. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis in the cervical spine. *Clin Orthop Relat Res*. 1999;359:49-57.
- 河村一郎, 富永博之, 谷口 昇. 頸椎部前縦靱帯骨化による嚥下障害と頸部可動域制限. 脊椎脊髄ジャーナル. 2019;32:667-671.
- Whang PG, Goldberg G, Lawrence JP, *et al*. The management of spinal injuries in patients

- with ankylosing spondylitis or diffuse idiopathic skeletal hyperostosis: a comparison of treatment methods and clinical outcomes. *J Spinal Disord Tech*. 2009;22:77-85.
- 20) 楠川智之, 圓尾圭史, 橘 俊哉, ほか. 保存的加療で転位を生じた強直性脊椎炎に伴う頸椎椎

- 体骨折の 1 例. 中部整災誌. 2019;62:477-478.
- 21) Tsuji O, Suda K, Takahata M, *et al*. Early surgical intervention may facilitate recovery of cervical spinal cord injury in DISH. *J Orthop Surg (Hong Kong)*. 2019;27:1-6.

SIX CASES OF CERVICAL SPINE FRACTURE IN PATIENTS WITH DIFFUSE IDIOPATHIC SKELETAL HYPEROSTOSIS

Shu TAKAHASHI¹⁾, Yusuke OSHITA^{*2)}, Haruka EMORI²⁾,
Keikichi KAWASAKI²⁾ and Koji KANZAKI¹⁾

Abstract — Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH) is known to cause spinal tonic, and minor trauma can easily cause fracture in patients with DISH. Moreover, the high risk of false joints in patients with DISH is a clinical problem. A retrospective analysis was performed in six patients with DISH who had a cervical spinal fracture treated in our hospital between April 2009 and March 2017. The mean age was 72 years (range, 50-81 years); five were male and one was female. The mechanism of injury was a slip in four patients, a fall in one, and a traffic accident in one. The vertebral fractures occurred at the level of the lower cervical spine in all cases, and the fracture lines were the vertebral body and end plate. Four patients underwent a surgical procedure with posterior fusion after temporary fixation using a halo vest, and two patients were treated with a halo vest because of their poor general conditions. Owing to neurological deficit, the treatment outcome was “no change” in three patients who had a neuropathy preoperatively. Cervical spinal fracture with DISH is more likely to occur with a relatively minor trauma than other cervical spinal fractures. Fractures with DISH are prone to false joints due to severe instability, and surgical treatment is often selected because of the high possibility of delayed neurological deficit. We performed a two-stage treatment. First, we temporarily fixed the cervical fracture using a halo vest, and when the patient's general condition allowed, a secondary surgery was performed for stable fixation of the spine and early ambulation. Early diagnosis and treatment are considered necessary to prevent delayed neurological deficit.

Key words: cervical spine fracture, chance fracture, diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH), halo vest, ossification of posterior longitudinal ligament (OPLL)

[The publication of this paper was given a priority date]

¹⁾ Department of Orthopaedic Surgery, Showa University Fujigaoka Hospital

²⁾ Department of Orthopaedic Surgery, Showa University Northern Yokohama Hospital

* To whom corresponding should be addressed