

歯突起周囲に生じる石灰化についての検討

近藤 哲矢¹⁾、江頭 玲子¹⁾、中尾 允哉²⁾、
西原 正志¹⁾、江頭 秀哲¹⁾、入江 裕之¹⁾

¹⁾ 佐賀大学医学部 放射線科
²⁾ 佐賀大学医学部 医学科 5 年次

抄録

日常診療で撮影された頭部 CT、頸部 CT および頸椎 CT 連続 1204 例のうち、撮影範囲に軸椎全体を含み、2mm 以下の thin slice で検討可能な症例 288 名を対象とし、これらの症例について、歯突起周囲の石灰化の局在や形状、厚み、歯突起自体の変化、随伴する軟部腫瘍形成の有無、頸髄圧迫の有無を CT にて後顧的に評価した。また、CT 所見と臨床情報との関連を検討した。288 名中 35 例 (12.2%) に歯突起周囲の石灰化を認め [年齢の中央値 67 歳 (23-93)、男：女 = 26：9]、うち 60 歳以上が 29 例 (82.9%) と大部分を占めた。有意な性差はなかったが ($p=0.19$)、高齢者に有意に多く認められた ($p = 0.003$)。石灰化の局在 (水平方向) は、腹側が 11 例、側方が 21 例、背側が 16 例で見られた (重複あり)。頭尾方向では、C1 椎体レベルに石灰化を認める症例が 32 例と最も多かった。形状は点状～結節状が 25 例、線状～帯状が 14 例であった (重複あり)。石灰化の厚みは 1～6mm [中央値 3mm] であった。歯突起自体の変化や随伴する軟部腫瘍形成、頸髄圧迫はいずれの症例でも認められなかった。臨床所見との関連では、有所見者の 2 例にのみ頸部痛が見られたが、石灰化の分布や形態との関連はなかった。

歯突起周囲の石灰化は大部分が無症候性であり、加齢との強い関連が認められた。頸部痛を有し、CT で歯突起周囲に石灰化を伴っていても、必ずしも CDS と診断することは出来ない。

key words | 歯突起周囲の石灰化、Crowned dens syndrome、CT

1. 背景・目的

急性発症の頸部痛を来す疾患の一つに、Crowned dens syndrome (以下 CDS) が知られている。CDS は環軸関節に生じる偽痛風であり、急性発症の頸部痛、頸椎 CT における歯突起周囲の石灰化を特徴とする症候群である。しかしながら、日常診療で撮影された CT において無症候性に

歯突起周囲の石灰化が観察されることもしばしばあり、病的意義についての判断は困難なことがある。

本研究の目的は、日常診療にて撮影された CT における歯突起周囲の石灰化の局在や形態を後顧的に評価し、頻度や臨床情報との関連を検討することである。

連絡先：〒 849-8501 佐賀県佐賀市鍋島 5-1-1
佐賀大学医学部 放射線科 近藤 哲矢
TEL：0954-34-2309

【投稿受付：令和元年 8 月 25 日】【査読完了：令和 2 年 1 月 23 日】

2. 対象

2016年4月～6月に当院で日常診療のために撮影された頭部CT、頸部CTおよび頸椎CT連続1204症例から、撮影範囲に軸椎全体を含み、2mm以下のthin sliceでの検討が可能な症例を

抽出し、検討対象とした。また、同一患者が期間内に複数回撮影されている場合は、検討対象項目を満たす最も早い時期に撮影された症例を用いており、重複症例はない。対象症例は288例(図1)で、年齢の中央値は64.5歳(0-93歳)、男女比

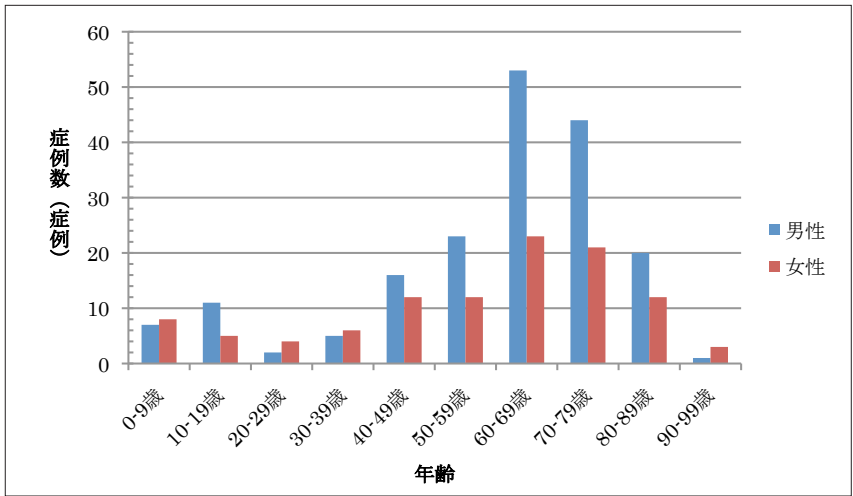


図1. 年齢別対象症例数

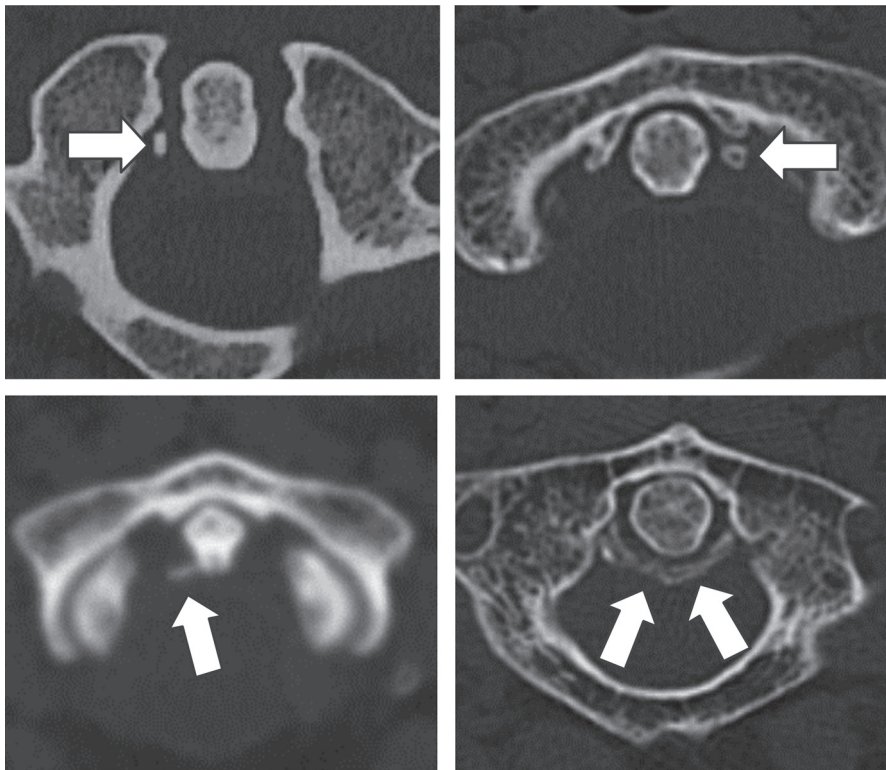


図2. 石灰化の形状

(a) 点状 (b) 結節状 (c) 線状 (d) 帯状

(a) | (b)
(c) | (d)

は 182 : 106 であった。

3. 方法・検討項目

CT 画像が撮影された装置は、Aquilion One Vision (Canon 社製 320 列, Tokyo, Japan)、SOMATOM Force (Siemens 社製 96 列 2 管球, Bayern, Germany)、Light Speed VCT Vision (GE 社製 64 列, Milwaukee, USA) のいずれかであり、検討に使用したスライス厚は 0.5-2mm であった。症例毎に撮影機種は異なるが、いずれも同一の表示・観察条件で評価しており、石灰化の描出能に影響はなかった。

対象となった症例の CT 画像を 2 名 (放射線診断専門医、学生各 1 名) で後顧的に検討し、歯突起周囲の石灰化の有無を検討した。石灰化が見られた場合には、石灰化の局在 (水平方向、頭尾方向) や形状 (図 2)、厚み、歯突起自体の変化、随伴す

る軟部腫瘤形成の有無、頸髄圧迫の有無についての検討を行った。また、臨床情報として、年齢、性別、頸部痛の有無を電子カルテの記録より抽出し、CT 所見と臨床情報との関連を検討した。統計学的解析には χ^2 乗検定、Fisher 正確検定、ロジスティック回帰分析を使用した。

4. 結果

288 名中 35 例 (12.2%) に歯突起周囲の石灰化が認められた (図 3)。年齢の中央値は 67 歳 (23-93 歳) で、男女比は 26 : 9 であった。そのうち 60 歳以上が 29 例 (82.9%) と大部分を占めた。 χ^2 乗検定では 60 歳未満と 60 歳以上の両者間に有意差がみられ ($p = 0.003$)、高齢者に有意に多く見られた (図 4)。また、Fisher 正確検定で有意な性差は見られなかった ($p = 0.19$)。

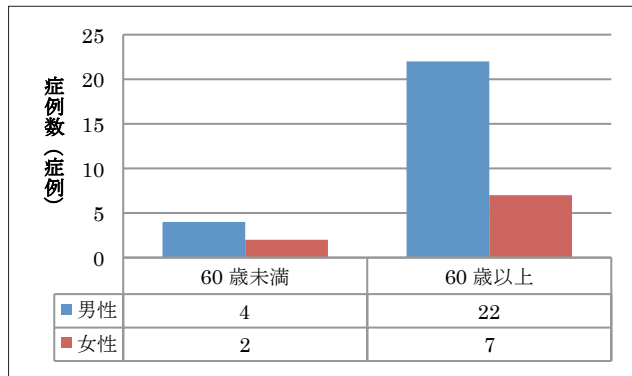


図 3. 有石灰化症例数

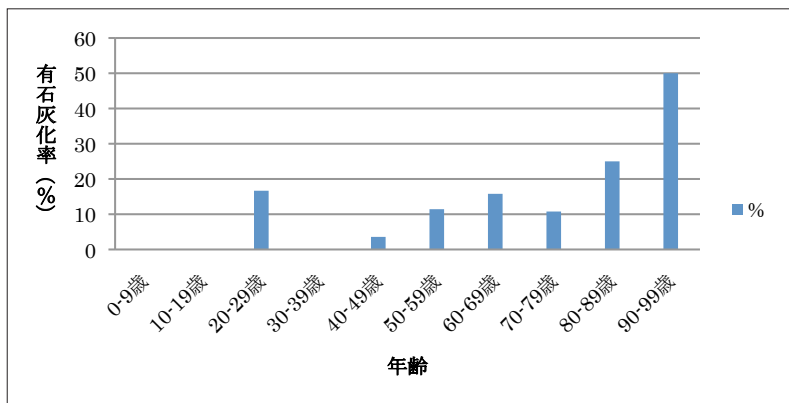


図 4. 年齢別有石灰化率

石灰化の局在(水平方向)は、腹側が11例、側方が21例、背側が16例で見られ(重複あり)、背側を含む石灰化の割合は45.8%であった。また、頭尾方向ではC1椎体レベルの範囲に石灰化を認める症例が32例と最も多く、歯突起の頭側だけに石灰化を認める症例が1例、C1レベル尾側だけに石灰化を認める症例が2例見られた。

石灰化の形態は点状もしくは結節状が26例と多く、線状や帯状のものは14例で見られた。また、環椎横靭帯に一致する石灰化(歯突起背側の線状/帯状の石灰化)の頻度は、288症例のうち13例(4.5%)であった。

石灰化の厚みは中央値3mm(1-6mm)であった。歯突起自体の変化や随伴する軟部腫瘤形成、頸髄圧迫の所見はいずれの症例でも認めなかった。

臨床所見との関連では、有所見者の2例にのみ頸部痛が見られたが、最終的にCDSと診断された症例はなかった。1例は20歳台男性で、歯突起の右側方に点状の石灰化が見られた(図5)。頸部痛は交通外傷後から出現し、頸部痛以外の症状は見られていない。また、もう1例は60歳台男性で、歯突起頭側に帯状の石灰化が見られた(図6)。舌癌終末期の患者で、頸部リンパ節転移の増大に伴って頸部症状が出現している。軸椎歯突起背側

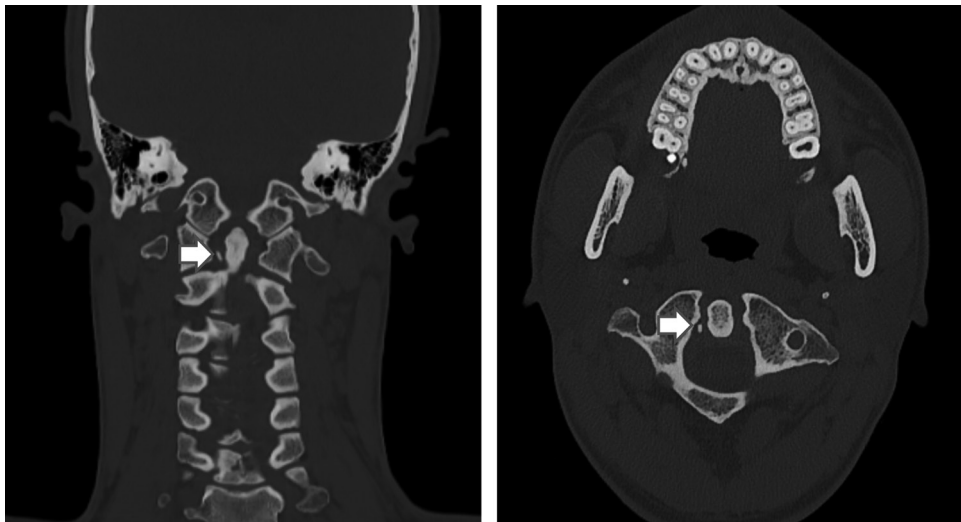


図5. 症例1 20歳台男性、歯突起右側に点状の石灰化(+)、頸部痛(+)

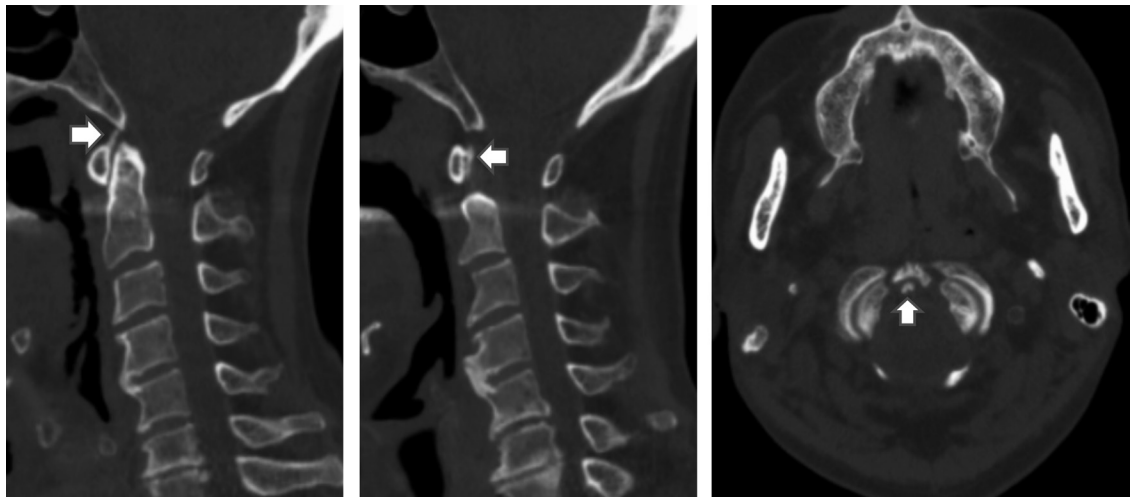


図6. 症例2 60歳台男性、歯突起頭側～背側に帯状の石灰化(+)、頸部痛(+)

に帯状の石灰化を有する症例では、頸部痛を認めなかった(図7)。

5. 考察

CDSは1985年にBouvetらにより初めて報告された疾患で¹⁾、軸椎歯突起周囲にピロリン酸カルシウム(以下CPPD)またはカルシウムヒドロキシアパタイトが沈着することで急性の頸部痛を生じる^{1,2)}。歯突起周囲の石灰化は、CDS以外の疾患(乾癆性関節炎、強直性脊椎炎、腫瘍性疾患等)でも認められるが³⁾、CDSの場合は非ステロイド抗炎症薬(NSAIDs)や副腎皮質ステロイドによって治療可能であることも知られており^{1,3,4)}、正確な診断をすることが重要である。但し、その診断基準は未だ明確に示されていない。

Changらは急性外傷で頸椎CTを撮影された513名中、64名(12.5%)に歯突起周囲のCPPD沈着が認められたとし、Zapletalらは頭部または副鼻腔CTを施行した700名中、40名(5.7%)で環椎横靭帯に石灰化が見られたと報告している^{5,6)}。

本研究における頻度はChangらのものとはほぼ同等であるが、Zapletalのものとは大きく異なる。ただし、両報告共に高齢者ほど頻度が増す傾向にあり^{5,6)}、Changらは有意な相関関係を示している。我々の検討でも高齢者ほど頻度が増す傾向が見られたが、有意な相関関係を示すには至らなかった。

また、Zapletalらは環椎横靭帯の石灰化を有する症例群と有さない症例群との比較を行い、環軸関節の変形性変化の割合が前者で有意に高いことを示している⁶⁾。CPPDの結晶沈着による石灰化と、末梢関節の変形性関節症の関連は以前より示されているが⁷⁾、Zapletalらは環軸関節でも石灰化沈着と変形性変化との関連を示唆している。但し、環軸関節の変形性変化が歯突起後部に石灰化を来す役割は明確でないと考察している。CPPDの発現には軟骨の石灰化および変形性関節症、関節外傷、術後の電解質変化、代謝性疾患などの別要因の存在が必要との仮説もあり⁷⁾、高齢者ではそれらの疾患を有する頻度が高いため、CDSの頻度が高いことが推察される。

本研究では歯突起周囲の有石灰化率に有意な性差は見られなかった。頸椎CTでCPPD沈着が見られた症例やCDSと診断された症例では、症状の有無に関わらず有意に女性の比率が高いと報告されている^{2,3,5)}。

石灰化の局在では、CPPD沈着と考えられる患者の44%に歯突起背側に石灰化が見られたとされる報告³⁾や、CDSと診断された患者40名のうち36名に歯突起背側優位の石灰化を有するとの報告⁶⁾がある。また、臨床上CDSが疑われる50歳以上の患者27名に頸椎CTを施行したところ、環椎横靭帯の石灰化が81.5%、頸長筋の石灰化が7.4%で

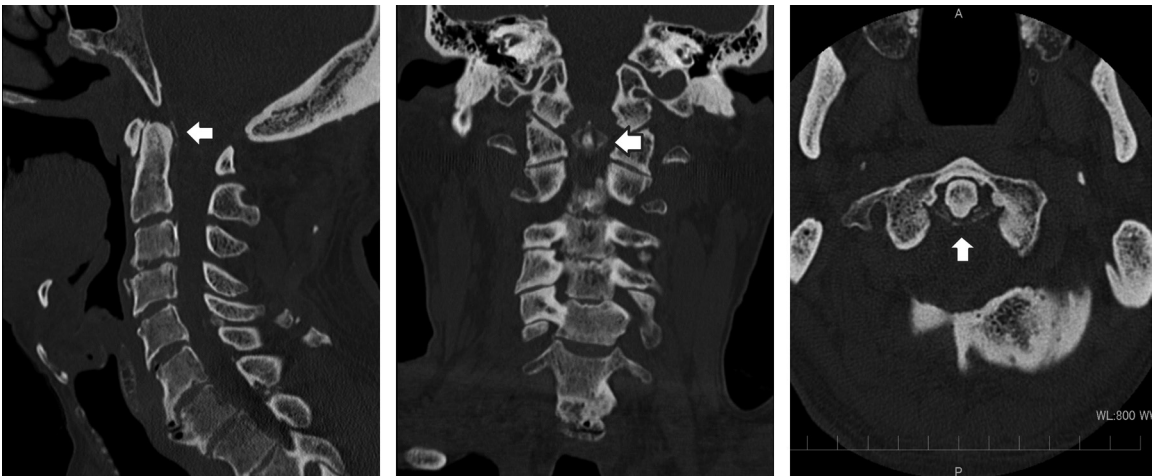


図7. 症例3 70歳台男性、歯突起背側に帯状の石灰化(+)、頸部痛(-)

見られたとされている⁸⁾。そのうち16名で環軸関節穿刺を施行、10名でCPPDの結晶を認めたとしている。CPPD沈着疑いもしくはCDS疑い患者では、特に歯突起背側に石灰化を有する頻度が高く、それらは環椎横靭帯の石灰化を反映しているものと考えられる。但し、関節包や滑膜、環椎十字靭帯、翼状靭帯に石灰化が見られる症例もあり^{1,3,9)}、歯突起背側以外にも石灰化がないか確認する必要がある。

Okaらは自験例と過去の論文をまとめて検討し、頸部痛の他に可動域制限が98%、発熱が80.4%で見られたと報告している²⁾。その他にも、CDSは頸部痛に加え可動域制限を伴っている報告が見られ⁹⁾、CDSの診断の一助となりえるかもしれない。また、頸部痛を主訴とする患者のうち、頸椎単純写真では原因の分からない患者798名のうち40名(5%)に、CTで歯突起周囲に石灰化が見られたとの報告⁵⁾もある。本研究では2症例で頸部痛が見られたが、いずれも別の原因(外傷、原疾患の増悪)によるものと考えられたため、CDSとは診断されず、石灰化と頸部痛との関連は評価出来なかった。歯突起周囲の石灰化を認めた16例中、無症候性は13例との報告もあり¹⁰⁾、歯突起周囲の石灰化の多くは、頸部痛との関連性が低い可能性が示唆される。

本研究は有症候例が少なく、石灰化の形状との関連の検討は出来なかったが、過去の報告では、症候性、無症候性で石灰化の形状に違いは見られなかったと報告されている¹⁰⁾。

本研究ではCDSのMRI所見は検討していないが、報告は散見され、頸髄の強い圧排は認めないが、

歯突起周囲の軟部組織が脂肪抑制T2強調画像で高信号を呈したとの報告がある^{3,11)}。また、臨床経過からCDSと考えられた症例で、歯突起およびその周囲の軟部組織に増強効果が見られたとの報告もあり¹²⁾、石灰化の病的意義が判断困難な場合、MRIの併用が有用かもしれない。

また、過去の報告ではCDSと診断された13例で、ステロイドもしくはNSAIDsでの治療が行われ、数日から3週間で症状は改善している¹³⁾。内8例で画像の経時的変化が追跡可能で、2ヶ月から4年で石灰化の減少もしくは消失が確認されている。西岡らの報告では、CDSと診断した11例中10例で治療前後のCTで環椎横靭帯のCT値の低下が見られており、可逆性の変化であることが画像的に証明されている¹⁴⁾。

本研究は症例数が少ないこと、後顧的研究のため各症例において既往や身体症状の分析が不十分である可能性、年齢構成が高齢者に偏っていること等が制約として挙げられる。

6. 結語

日常診療で撮影されたCT画像で観察される歯突起周囲の石灰化の頻度は12.2%で、過去の論文同様、高齢者に有意に多かった。有症候例が少なく、CT所見と臨床症状との関連は評価出来なかった。頸部痛を有し、CTで歯突起周囲に石灰化を伴っている場合でも、必ずしもCDSとの診断に至らないことも多く、診断には注意が必要である。診断に苦慮する場合はMRIを活用する、診断的治療を行う等、多角的なアプローチが必要と考えられる。

参考文献

1. Bouvet JP, le Parc JM, Michalski B, Benlahrache C, Auquier L. Acute neck pain due to calcifications surrounding the odontoid process: the crowned dens syndrome. *Arthritis Rheum* 1985; 28:1417-1420
2. Oka A, Okazaki K, Takeno A, et al. Crowned Dens Syndrome: Report of Three Cases and a Review of the Literature. *J Emerg Med* 2015; 49:e9-e13
3. Goto S, Umehara J, Aizawa T, Kokubun S. Crowned Dens syndrome. *J Bone Joint Surg*

- Am 2007; 89:2732-2736
4. Aouba A, Vuillemin-Bodaghi V, Mutschler C, De Bandt M. Crowned dens syndrome misdiagnosed as polymyalgia rheumatica, giant cell arteritis, meningitis or spondylitis: an analysis of eight cases. *Rheumatology (Oxford)* 2004; 43:1508-1512
 5. Chang EY, et al. Frequency of Atlantoaxial Calcium Pyrophosphate Dihydrate Deposition at CT. *Radiology* 2013; 269(2): 519-524
 6. Zapletal J, Hekster REM, Straver JS, Wilmink JT, Hermans J. Association of transverse ligament calcification with anterior atlanto-odontoid osteoarthritis: CT findings. *Neuroradiology* 1995; 37(8): 667-669
 7. Michael H, Ellman, Nancy L. Brown, Bertram Levin. Narrowing of knee joint space in patients with pseudogout. *Annals of the Rheumatic Diseases* 1981; 40:34-36
 8. Kobayashi T, Miyakoshi N, Konno N, Abe E, Ishikawa Y, Shimada Y. Acute neck pain caused by arthritis of the lateral atlantoaxial joint. *Spine J* 2014; 14(9):1909-1913
 9. Sekijima Y, Yoshida T, Ikeda S. CPPD crystal deposition disease of the cervical spine: a common cause of acute neck pain encountered in the neurology department. *J Neurol Sci* 2010; 296:79-82
 10. 久保田 元ほか：頭蓋頸椎移行部における crowned dens 像。臨床放射線 2007; 52: 1777-1782
 11. Inoue A, Kohno K, Ninomiya S, et al. Usefulness of cervical computed tomography and magnetic resonance imaging for rapid diagnosis of crowned dens syndrome: A case report and review of the literature. *Int J Surg Case Rep* 2017; 30:50-54
 12. Wu DW, Reginato AJ, Torriani M, Robinson DR, Reginato AM. The crowned dens syndrome as a cause of neck pain: report of two new cases and review of the literature. *Arthritis Rheum* 2005; 53:133-137
 13. Malca SA, Roche PH, Pellet W, Combalbert A. Crowned dens syndrome: a manifestation of hydroxy-apatite rheumatism. *Acta Neurochir (Wien)* 1995; 135:126-130
 14. 西岡 真美ほか：Crowned dens syndrome (CDS) の経時的変化に関する画像的検討。臨床放射線 2016; 61: 1677-1682