

症例報告

感染の再発を認めた化膿性仙腸関節炎の 13歳男児の1例

朱田 貴美, 矢内 貴憲, 大山 里恵,
塩谷 裕美, 只木 弘美, 鍋木 陽一

国立病院機構 横浜医療センター 小児科

要旨: 症例は生来健康な13歳男児。入院10日前に左臀部を打撲し、4日前に左臀部痛、3日前に発熱を認め歩行困難となった。血液検査、腰部単純MRIで左急性化膿性仙腸関節炎の診断とし入院した。血液培養からは感受性良好な黄色ブドウ球菌が同定され、セファゾリン (CEZ) を4週間、セファクロル (CCL) を2週間投与し治療を終了した。入院中は疼痛コントロールのため整形外科へ併診し、キシロカインの局部注射を行った。治療終了翌日から部活動を再開し、9日目から左臀部痛が出現し、10日目から発熱し、血液検査と腰部造影MRIで仙腸関節炎の再燃と診断した。クリンダマイシン (CLDM) で治療を開始し、薬疹のためスルバクタム/アンピシリン (SBT/ABPC) に変更し経静脈的に計4週間、その後CCLを8週間投与して治療を終了し、以降の再発はなかった。再発時は入院早期から理学療法士の介入を行い、段階的に安静度をあげていった。仙腸関節炎は化膿性関節炎全体の1~2%であり、またその内再発は13%とさらに稀である。本疾患の治療は十分な安静と早期からの抗菌薬投与である。本症例は発症から比較的早期に診断され、十分な抗菌薬投与期間をとったにも関わらず再発した。再発のリスクを下げるためには、十分な抗菌薬の投与のみならず、鎮痛薬の仕様は最小限にとどめ、使用した際には痛みの過小評価の可能性に留意することや造影MRIによる評価、慎重な運動再開を行う必要性があると考えられた。

Key words: 仙腸関節炎 (Pyogenic sacroiliitis), 再発 (recurrence),
抗菌薬 (antibiotics), 運動負荷 (exercise loading)

はじめに

化膿性仙腸関節炎 (pyogenic sacroiliitis) は比較的稀であり、小児・成人のいずれも化膿性関節炎の1~2%のみに認め¹⁾。仙腸関節炎は、炎症の主座が深部組織である仙腸関節にあり、腰部・臀部・股関節周囲の痛みなど症状が非特異的である。診断にはMRIが有用である。仙腸関節炎の再発例は基礎疾患を有する成人例がほとんどであり、健常小児における再発例は極めて少なく渉猟できた本邦の報告は4例のみだった^{5,8,9)}。

今回、我々は、既往症のない健常小児において、入院による抗菌薬治療を行い、退院後に再発した一例を経験

した。初発時の治療や早期の運動再開などに再考の余地があり、示唆に富む症例と考えられたため、報告する。

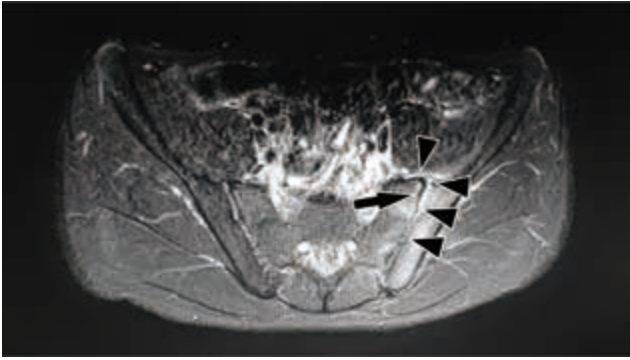
症例提示

患児は13歳男児 (中学1年生) で、主訴は発熱と左臀部痛である。既往歴・家族歴に特記事項は認めなかった。生活背景として、本児は小学校低学年からサッカークラブに所属し、中学入学後は学校のサッカー部に入部し毎日練習をしていた。

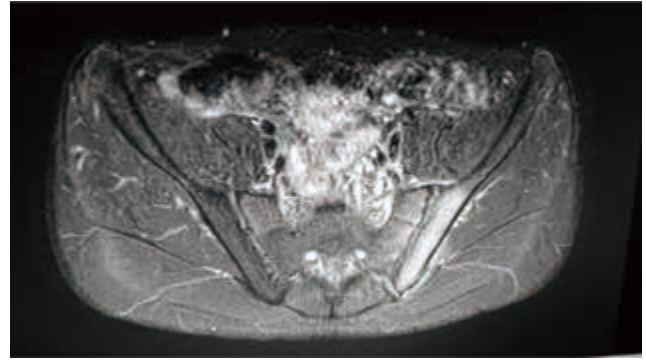
当科初診の10日前、部活動中に転倒し、左臀部を地面に打ちつけた。痛みはすぐに治まり、運動を再開した。

朱田貴美, 横浜市港南区港南台3丁目2-10 (〒234-0054) 済生会横浜市南部病院 小児科・新生児内科
(原稿受付 2023年2月15日/改訂原稿受付 2023年3月15日/受理 2023年3月22日)

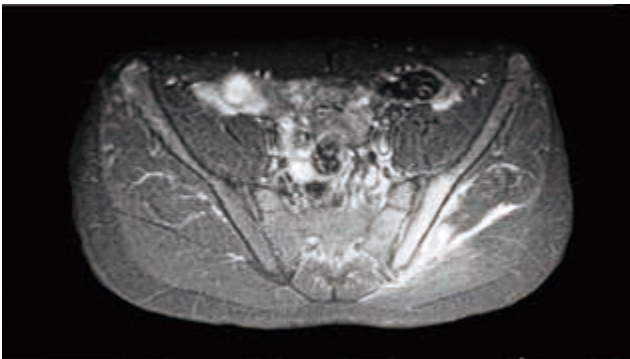
図1 経時的なMRI画像の所見



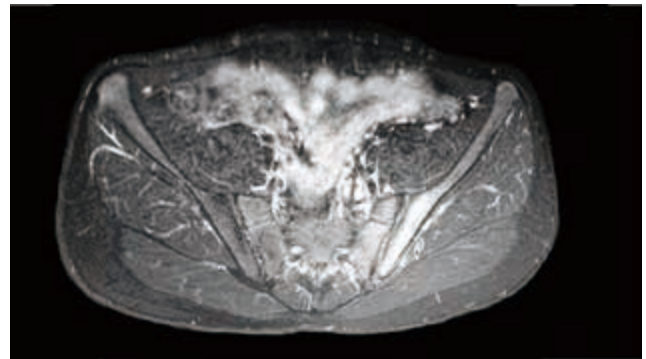
①初回入院時：仙腸関節腔の拡大（矢印）と関節液貯留，STIR撮像法で仙腸関節部の高信号（矢頭）を認める



②初回退院時：①に比して仙腸関節部の仙骨側と殿筋部の高信号域が縮小した



③2回目入院時：造影MRI，②に比して仙腸関節部と周囲軟部組織の高信号が増強した



④2回目退院時：仙腸関節部の高信号は残存するも，周囲軟部組織の高信号は縮小した

初診4日前に同部位の疼痛を自覚し，同3日前に39度台の発熱と左臀部痛の増悪を認めた．その後も症状の改善を認めず，入院当日に近医内科を受診し，血液検査で白血球数 $11000/\mu\text{L}$ ，CRP 15.5mg/dL と上昇を認め，同日当科へ紹介となった．来院時，疼痛症状が強く歩行が困難であり，入院とした．

入院時身体所見：身長169cm，体重54.4kg，体温 37.5°C ，脈拍60回/分，血圧 $119/84\text{mmHg}$ ．打撲した左臀部に疼痛を認め，左股関節の外転・屈曲で痛みは増強した．視診上は明らかな傷や，発赤・腫脹・熱感はなかった．下肢の筋力低下や知覚異常は認めなかった．このほか，頭頸部・体幹・上記以外の四肢に特記すべき所見は認めなかった．

入院時検査所見：血液検査：白血球 $8200/\mu\text{L}$ （好中球80%，単球7%，リンパ球9%），赤血球 $498\text{万}/\mu\text{L}$ ，ヘモグロビン 14.7g/dL ，血小板 $19.6\text{万}/\mu\text{L}$ ，血沈1時間値 34.0mm ，総蛋白 6.9g/dL ，アルブミン 3.8g/dL ，総ビリルビン 1.6g/dL ，AST 17U/L ，ALT 12U/L ，LDH 182U/L ，CK 31IU/L ，尿酸 5.6mg/dL ，尿素窒素 19.0mg/dL ，クレアチニン 0.68mg/dL ，ナトリウム 136mEq/L ，カリウム 4.0mEq/L ，カルシウム 8.9mg/dL ，リン 4.3mg/dL ，CRP 13.77mEq/L ，IgG 1108mg/dL ，フェリチン 198.3ng/mL ，RF定量 10IU/mL ，抗核抗体 <40 倍，MMP-3 27.8ng/mL ．

単純X線像：入院時に撮像し，明らかな骨折線や骨盤部

関節裂隙の開大・狭小化、びらん等は認めなかった．

腰部単純MRI：入院時に撮影し，仙腸関節腔の拡大と関節液貯留，STIR（short TI inversion recovery）撮像法で仙腸関節部の高信号を認めた．仙骨・腸骨内にも一部高信号域を認めた．（図1，①）

血液培養検査：入院時に好気・嫌気3セットを提出し，3日後に1セットから黄色ブドウ球菌を検出した．各抗菌薬の最小発育阻止濃度（MIC；Minimum Inhibitory Concentration）と解釈（S：Susceptible，I：Intermediate，R：Resistant）は以下の通りである——セファゾリン（CEZ）MIC $\leq 8\mu\text{g/mL}$ （S），スルバクタム・アンピシリン（SBT/ABPC）MIC $\leq 8\mu\text{g/mL}$ （S），バンコマイシン MIC $1\mu\text{g/mL}$ （S），セフジニル（CFDN）MIC $\leq 1\mu\text{g/mL}$ （S），レボフロキサシン MIC $\leq 0.5\mu\text{g/mL}$ （S），クリンダマイシン（CLDM）MIC $\leq 0.5\mu\text{g/mL}$ （S）．

入院後経過（図2）：身体所見・腰部MRI所見・血液検査所見から，左側の急性化膿性仙腸関節炎（以下，仙腸関節炎）と診断した．仙腸関節炎の抗菌薬投与期間にガイドライン等での共通見解がないことや，骨内の異常信号から骨髓炎も否定しきれないことから，抗菌薬を4週間は経静脈的に投与する方針とした．

入院後はCEZ 2g/日 の投与を開始した．このほか，入浴・排泄を除き，ベッド上安静を指示した．以降の臨床経過の評価は，症状のほか，血清CRP値と血沈1

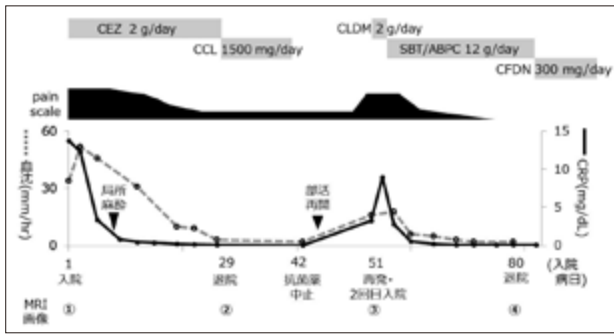


図2 臨床経過

1回目と2回目の臨床経過及び治療内容を示す。

時間値を指標に据えることとした。

患児は入院4日目に解熱した。全身状態も良く、同日ベッド上安静を解除した。入院8日目に自発痛の消失を認め、同日の股関節単純MRIで仙腸関節部の高信号域の縮小を認めた。

ただし、動作時の疼痛が残存していた。このため、入院9日目に当院整形外科へ併診し、腸腰靭帯に対しリドカインの局所注射を実施し、翌日に疼痛は消失した。

以後、CEZの静脈注射を継続しながら、理学療法士によるリハビリテーションを開始した。入院20日目に血沈が陰性化し、入院29日目に施行した腰部単純MRI検査は入院時に比して仙腸関節の仙骨側と殿筋部の高信号域が縮小した(図1, ②)。4週間のCEZ投与後、セファクロル(CCL)1500mg/日の内服に切り替えて退院とし、発症から6週間で抗菌薬の投与を終了した。この時点で、長時間歩行による痛みがわずかに残存していたが、長期臥床に伴う一過性の症状と考え、本人の希望も強く翌日から部活動を再開した。

部活動再開の9日後、左臀部痛が再燃した。翌日、38℃の発熱を認め、当院救急外来に再受診した。来院時、左臀部痛が明らかであり、血液検査でWBC 12900/ μ L、CRP 3.26mg/dLと上昇を認め、入院とした。入院翌日に腰部造影MRI検査を行い、STIR撮像法で仙腸関節部の高信号の増強を認め、仙腸関節炎の再発と診断した(図1, ③)。初回入院時と同様に、計4週間の抗菌薬静脈注射の方針とした。仙腸関節周辺の高信号域を認め、膿瘍形成の可能性も否定できないことから、ドレナージを視野に再度整形外科と相談したが、炎症部位が深部のため穿刺は困難と判断し、実施しない方針とした。

再入院後、抗菌薬は初回入院時の血液培養で検出された黄色ブドウ球菌(*Staphylococcus aureus*)の感受性検査を参考に、CLDM 2g/日とした。入院2日目には速やかに解熱し、痛みも明らかに改善した。しかし、入院3日目に薬疹が出現し、CLDMの投与継続は困難と判断し、SBT/ABPC 12g/日に切り替えた。以後、腰

部痛・薬疹のいずれの症状もなく、良好に経過した。なお、再入院時の血液培養は3セット提出しいずれも陰性であった。2回目の入院では、運動負荷の細かな管理が必要と判断し、入院3日目よりリハビリテーションを開始し、負荷量を慎重に漸増した。経過中に症状の再燃はなく、4週間の抗菌薬静脈注射を終了した。CFDN 300mg/日の内服に切り替え退院とした。

外来は1~2週間おきの診察とし、このほかに週1~2回の当院でのリハビリテーションを行った。リハビリテーション以外の運動は制限し、体育・部活動は見学に留めた。運動は退院1ヶ月後から再開し、約3ヶ月をかけて段階的に通常の運動負荷に戻した。抗菌薬の内服は8週間続け、血沈の陰性と運動による痛みの再燃がないことを確認し、投与を終了とした。

以後は再発せず、サッカーにも支障は無かった。腰部単純MRI検査は6ヶ月に1回の頻度で確認し、2回目の退院の1年後に所見は消失した。退院1年半後に終診とした。

考 察

小児の仙腸関節炎は、化膿性関節炎全体の1~2%とされ¹⁾、その内再発は2001年の佐野らの報告²⁾によると成人を含んだ145症例のうち19症例(13%)であった。我々が渉猟しえた範囲で、2000年以降の国内の小児化膿性仙腸関節炎の報告は24本、35症例あり、腰部痛の再発症例は4例(11.4%)であった。これらを踏まえて再発は比較的稀と言える。

化膿性仙腸関節炎の日本での平均発症年齢は22.5歳(男17.3歳、女26.7歳)であり²⁾、小児では学童期以降に多い。10~30歳の若年に多い理由は、仙腸関節の可動域が大きく不安定であることや、20歳前後が仙腸関節への血流のピークにあること、妊娠・出産等で仙腸関節部の不安定さが増すことなどがあるとされる²⁾。

仙腸関節炎は非特異的な症状が多く、診断に難渋しやすい。症状は発熱、腰痛が多いとされるが、仙腸関節付近には坐骨神経、仙骨神経叢、上殿神経などが走行していることから、臀部痛・股関節痛・下肢痛・腹痛など広範囲の関連痛を呈する。単純X線やCTでの診断は所見が画像に出現するまでに時間がかかるため難しく、MRIが早期診断には有用である。このほか、骨シンチグラフィも考慮されるが、仙腸関節腔の炎症・周囲筋肉への炎症波及・膿瘍形成を捉える点から、MRIが望ましい³⁾。治療を開始し臨床症状が改善してもMRI所見は数ヶ月残存するため、画像検査は治療終了の指標にはならない⁴⁾。原因菌の同定率は40~50%⁵⁾であり、黄色ブドウ球菌が8割と最多⁶⁾で、A群連鎖球菌、肺炎球菌、サルモネラ、大腸菌がこれに次ぐ。本疾患の治療は十分な安静と早期から

表1 本邦における化膿性仙腸関節炎の治療後に腰背部痛が再燃した症例のまとめ

症例	相場ら, 2004年	保田ら, 2003年		葛西ら, 2002年	本症例
年齢	15歳	11歳	14歳	13歳	15歳
性別	男児	女児	女児	男児	男児
患側	左	右	右	右	左
生活歴	野球部ピッチャー	—	—	—	サッカー部員
既往歴	アトピー性皮膚炎	—	—	—	—
先行感染・外傷	—	なし	なし	体育授業中から違和感	部活中の転倒で打撲
初発症状	腰部痛、臀部痛	発熱、臀部痛	発熱、腰部痛、下肢痛	発熱、股関節痛	発熱、臀部痛
診断までの日数	12日	13日	3日	22日	4日
起病菌	MSSA	陰性	大腸菌	陰性	MSSA
抗菌薬 静脈注射	10日間	2週間	6週間	7日間	4週間
内服	約2ヶ月間	なし	18週間	3日間	2週間
その他の治療	膿瘍の切開排膿術	なし	なし	なし	キシロカイン局所注射
初回治療後から再燃までの期間	約3ヶ月	約5週間	不明(3年間で5回の腰部痛)	内服薬変更後3日目に発熱と腰部痛	9日間
再燃時抗菌薬投与	静脈注射で2週間	なし	なし	静脈注射で2週間, その後内服(期間不明)	静脈注射で4週間
特記事項	—	再燃時は安静のみで軽快	HLA-B27陽性症例 再燃時はアスピリンのみ	初診時は化膿性股関節炎 再燃時に仙腸関節炎の診断	—

本邦において2001年以降の仙腸関節炎の小児報告例で腰部痛が再燃した症例は4症例のみだった。内、抗菌薬投与は2例のみで行われ、残る2例はそれぞれ安静のみ、アスピリン内服のみで寛解した。

の抗菌薬投与である。治療後に関節の拘縮を残すことはなく予後良好とされる⁶⁾。抗菌薬の投与期間に共通の見解はない。Tokudaらは少なくとも20日間以上の抗菌薬投与が必要であると報告した⁷⁾。我々が渉猟しえた国内の2001年以降に発生した小児仙腸関節炎35例では、抗菌薬の投与期間は平均22.3日(最短7日, 最長56日)だった。抗菌薬の静脈注射期間はTokudaらが示した20日以上のは11症例, 20日未満のものは14症例あり, それぞれ2症例ずつに腰背部痛が再燃した。これら計4症例(表1)の内、抗菌薬の再投与が必要であったのは後者の2例のみ^{8,9)}で、1例は腸腰筋膿瘍の合併を伴い局所の切開排膿術と抗菌薬投与が必要で、もう1例も改めての抗菌薬投与が必要だった。抗菌薬が不要であった2例⁵⁾中1例はHLA-B27陽性例であり、強直性脊椎炎などの可能性が示唆され、3年間の経過観察中に5回の腰部痛再燃を認めたが、いずれもアスピリン内服で症状が軽快した。

本例は、発症から4日後に診断でき、かつ抗菌薬を6週間投与したにも関わらず再発した。この原因として、

局所麻酔薬と単純MRIによる症状の過小評価、運動の再開タイミングの2点を考えた。

1点目の症状の過小評価について、本例では解熱した後も他動時の痛みが残っており、麻酔薬の局所注射を行い、改善した経緯がある。過去の報告では、腸腰筋膿瘍を併発しドレナージを実施する例はあったが、局所麻酔薬の投与の記録がある症例は無かった。大半は安静と内科的治療により軽快しており、後方視的に見れば、麻酔薬の局所注射は必須とは言えなかった可能性がある。また、再発後の造影MRIでは、膿瘍を否定できない所見も見られた。再発前は単純MRIのみで評価していたため、結果的に画像所見を過小評価した可能性も否定はできない。本症例は稀な疾患であり、より適切な病勢の評価のため、造影での撮影を行う余地はあったと言える。

2点目の運動の再開タイミングについて、Delabarreらは、臨床症状および血液検査が正常化するまでベッド上での安静が望ましいとしている¹⁰⁾。渉猟しえた範囲ではCRPの陰性化を確認してから運動リハビリテーションを開始する症例が多かった。また再発症例の内1例は治療

後3ヶ月から野球部の部活を再開し、5ヶ月目に再発していた⁸⁾。本例では、ベッド上安静の解除はCRPの低下傾向を確認してからとし、理学療法士による本格的なリハビリテーションはCRP陰性化後に開始し、部活動の再開は退院後早期から行っていた。長期の安静によって関節周囲の柔軟性が低下したこともふまえると、部活再開が時期尚早であったことは否めなかった。このため、2回目の入院の際は、入院早期より積極的に理学療法士の介入を行い、理学療法士による評価に基づいて安静度を段階的に上げた。部活動への参加も当初は見学からとし、1～2週おきに30分ずつ運動時間を増やし、2回目退院の約3ヶ月後に通常の運動を許可した。結果として一切の症状再燃は無く、慎重な運動量の漸増は有効と考えられた。

稀な小児の仙腸関節炎の再発例を経験した。本例をふりかえり、再発のリスクを下げるために、十分な抗菌薬の投与のみならず、鎮痛薬の適切な使用、造影MRIによる評価、慎重な運動再開を行うことが肝要と考えられた。

本症例の公表に関して、患者家族より同意を得ています。横浜市立大学医学会の定める利益相反に関する開示事項はありません。

文 献

- 1) Eran L, Alex G, Natalia S, Dina A, Isaiah DW, Yackov B: Pyogenic sacroiliitis in children: don't forget the very young. *Eur J Pediatr*, **178**: 575–579, 2019.
- 2) 佐野 栄, 三枝 修, 斉藤正仁, 喜多恒次, 鮫田寛明, 小林照久: 化膿性仙腸関節炎の3例の経験. *整形外科*, **52**(6): 665–668, 2001.
- 3) 桂木 誠, 西原春實, 荒木昭輝, 竹吉正文, 木村浩二, 山田 圭: 化膿性仙腸関節炎の画像診断. *画像診断*, **24**(1): 82–88, 2003.
- 4) 荒木貴士, 池田倫太郎, 飯岡 隆, 朝長 匡: MRIにて経時的変化を観察した小児化膿性仙腸関節炎の1例. *整形外科と災害外科*, **64**(4): 750–754, 2015.
- 5) 保田由喜治, 番場正博, 宮入 烈, 他: 小児化膿性仙腸関節炎の6例. *日本小児科学会雑誌*, **107**(1): 78–81, 2003.
- 6) Wu MS, Chang SS, Lee SH, Lee CC: Pyogenic sacroiliitis: a comparison between pediatric and adult patients. *Rheumatology*, **46**: 1684–1687, 2007.
- 7) Tokuda K, Yoshinaga M, Nishi J, et al.: Three cases of pyogenic sacroiliitis, and factors in the relapse of the disease. *Acta. Pediatr Jpn*, **39**: 385–389, 1997.
- 8) 相場知宏, 畑 雅彦, 藤井秀人, 近藤聖子: 3年間経過観察し得た化膿性仙腸関節炎の1例. *整形・災害外科*, **47**: 217–220, 2004.
- 9) 葛西直亮, 今給黎篤弘, 山本謙吾, 宍戸孝明, 小泉隆司, 中島一馬: 小児化膿性仙腸関節炎の1例. *関東整形災害外科学会雑誌*, **33**(1): 13–19, 2002.
- 10) Delbarre F, Ronaier J, Delrieu F et al.: Pyogenic infection of the sacro-iliac joint. Report of thirteen cases. *J Bone Joint Surg Am*, **57**(6): 819–825, 1975.

Abstract

CASE REPORT OF A 13-YEAR-OLD BOY WITH RECURRENT PYOGENIC SACROILIITIS

Yoshimi AKADA, Takanori YANAI, Rie OYAMA,
Hiromi SHIOYA, Hiromi TADAKI, Yoichi KABURAGI

Department of Pediatrics, National Hospital Organization Yokohama Medical Center

Pyogenic sacroiliitis is a bacterial infection that causes fever and low back pain. It is observed only in one percent of pediatric sacroiliitis patients, usually results in remission after a single episode, and recurrence is rare. A case of a 13-year-old boy who had a recurrence after the first hospitalization is presented. At the time of discharge from the hospital, he had discomfort in the buttocks while walking. Nevertheless, the boy resumed practicing soccer under the supervision of doctors, because it was considered a transient symptom of prolonged bed rest. Within about 2 weeks of discharge from his last hospitalization, he developed a fever and buttock pain. Blood tests showed an elevated inflammatory response, and he was diagnosed with recurrent sacroiliitis. To reduce the risk of recurrence, it was considered necessary not only to administer adequate antimicrobials, but also to use analgesics appropriately, to evaluate the patient with contrast-enhanced MRI, and to resume exercise with caution.