

Chirurgická terapie fixované atlantoaxiální rotační dislokace – monocentrická studie 15 pacientů

Surgical Therapy of Fixed Atlantoaxial Rotatory Dislocation – Monocentric Study of 15 Patients

J. ŠTULÍK, P. HUVAR, P. NESNÍDAL

Klinika spondylochirurgie 1. lékařské fakulty Univerzity Karlovy a Fakultní nemocnice v Motole, Praha

ABSTRACT

PURPOSE OF THE STUDY

Atlantoaxial Rotatory Dislocation (AARD) mostly occurs in children and prevailing majority of cases are successfully managed by non-operative treatment. Surgical intervention is necessary in patients in whom non-operative treatment failed, in case of repeated dislocations and in patients with anatomical defects of the atlantoaxial complex. The purpose of the presented study is the radiological and clinical evaluation of patients with AARD surgically treated at our department.

MATERIAL AND METHODS

In the period from 2001 to 2017, altogether 15 patients with AARD were surgically treated at our department, namely 6 men and 9 women aged 5–72 years, with the mean age of 27.3 years. 8 patients were younger than 18 years of age. Apart from regular checks, all the patients were examined also at the end of the study, which means at a follow-up of 12–214 months, i.e. 112.1 months postoperatively on average. In the study, the anatomy of the atlantoaxial complex and craniocervical junction, course of the surgical procedure, correction of deformity, bone fusion, clinical condition of the patient and complications were monitored and evaluated. The clinical evaluation was performed using the *Visual Analogue Scale* (VAS) for neck pain and the *Neck Disability Index* (NDI). All the parameters were statistically evaluated at the p-level below 0.05.

RESULTS

In all 15 patients the surgery was preceded by unsuccessful non-operative treatment. The period between the rotation and the surgery was 4 days to 48 months, with the mean value of 11.3 months. All the patients included in the study showed an intact dens axis, the other patients were excluded from the study. In 10 patients their head was rotated to the left, in 5 patients to the right. The anterior atlantodental interval (ADI) was 2–7 mm with the mean value of 3.5 mm. In 13 cases the ADI was less than 5 mm, in 2 cases it was greater. According to the Fielding and Hawkins classification there were 9 cases of type I, 4 cases of type II and two cases of type III. According to the Ishii et al. classification, 2 cases of type I, 12 cases of type II and one case of type III were identified. In 9 patients predisposing factors were found in the history, namely 7 cases of trauma, 2 cases of infection. Mutual rotation of C1–C2 from 7.0° to 60.0° with the mean value of 27.3° was observed preoperatively, while after the correction it was from 1.0° to 7.0° with the mean value of 3.9° ($p < 0.05$). Lateral inclination was 3.4°–23.6° preoperatively with the mean value of 9.9°, and 0.7°–4.0° after the correction with the mean value of 2.2° ($p < 0.05$). The postoperative ADI ranged from 1 to 3 mm, with the mean value of 1.9 mm ($p < 0.05$). The bone fusion of C1–C2 or C1–C2–C3 was achieved in all the relevant cases ($N = 13$, 100%), in two patients a temporary fixation was used. The mean value of VAS for neck pain was 6.3 preoperatively, 1.0 ($p < 0.05$) at one year and 1.0 ($p < 0.05$) again at the final examination. The mean value of NDI was 50.4 % preoperatively, 9.3% ($p < 0.05$) at one year and 9.5% ($p < 0.05$) at the final examination. All patients that we operated on stated that they would undergo surgery again.

DISCUSSION

Compared to the other authors, our group of patients included surprisingly many adult patients (46.7%) with a high percentage of neurological defects (33.3%). In agreement with the literature, the cause of rotation was revealed in 60% of cases. At our department, correction is preferred in all the patients, while especially in paediatric patients in situ fixation causes the developmental deformities of the face and cervical spine. High success rate of bone fusion was confirmed (13/15, 13 = 100%) and also the transient atlantoaxial fixation was successfully used in two patients, both with traumatic etiology.

CONCLUSIONS

If non-operative treatment fails, surgical correction of AARD is a suitable treatment method which ensures favourable position of the atlantoaxial complex, improves the clinical condition of the patient and prevents the asymmetric development of the face in children. The Goel-Harm's fixation technique and C1–C2 fusion are considered by us the method of choice in older paediatric and adult patients.

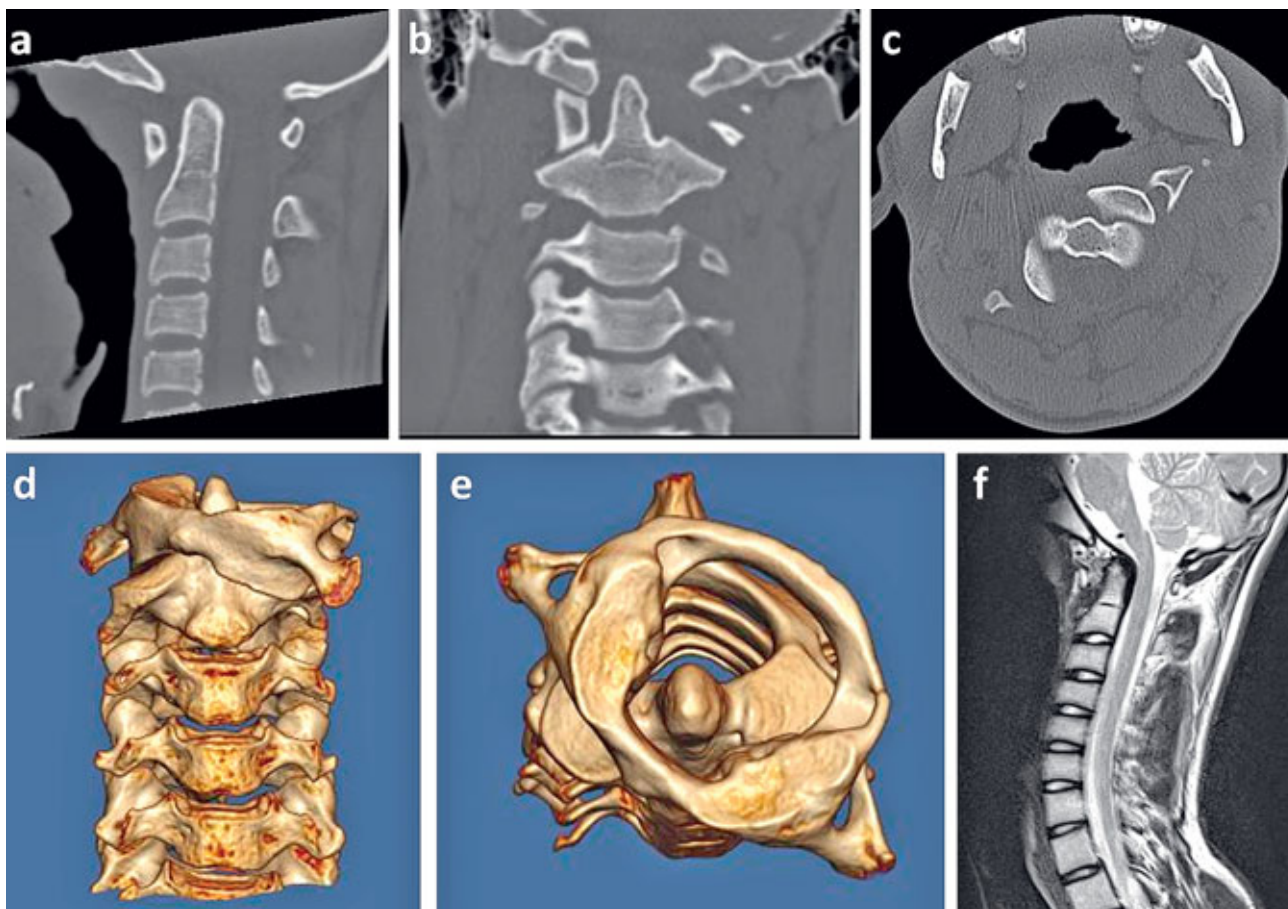
Key words: AARD, atlantoaxial rotatory dislocation, atlantoaxial rotatory subluxation, pediatric cervical spine, atlantoaxial fixation.

ÚVOD

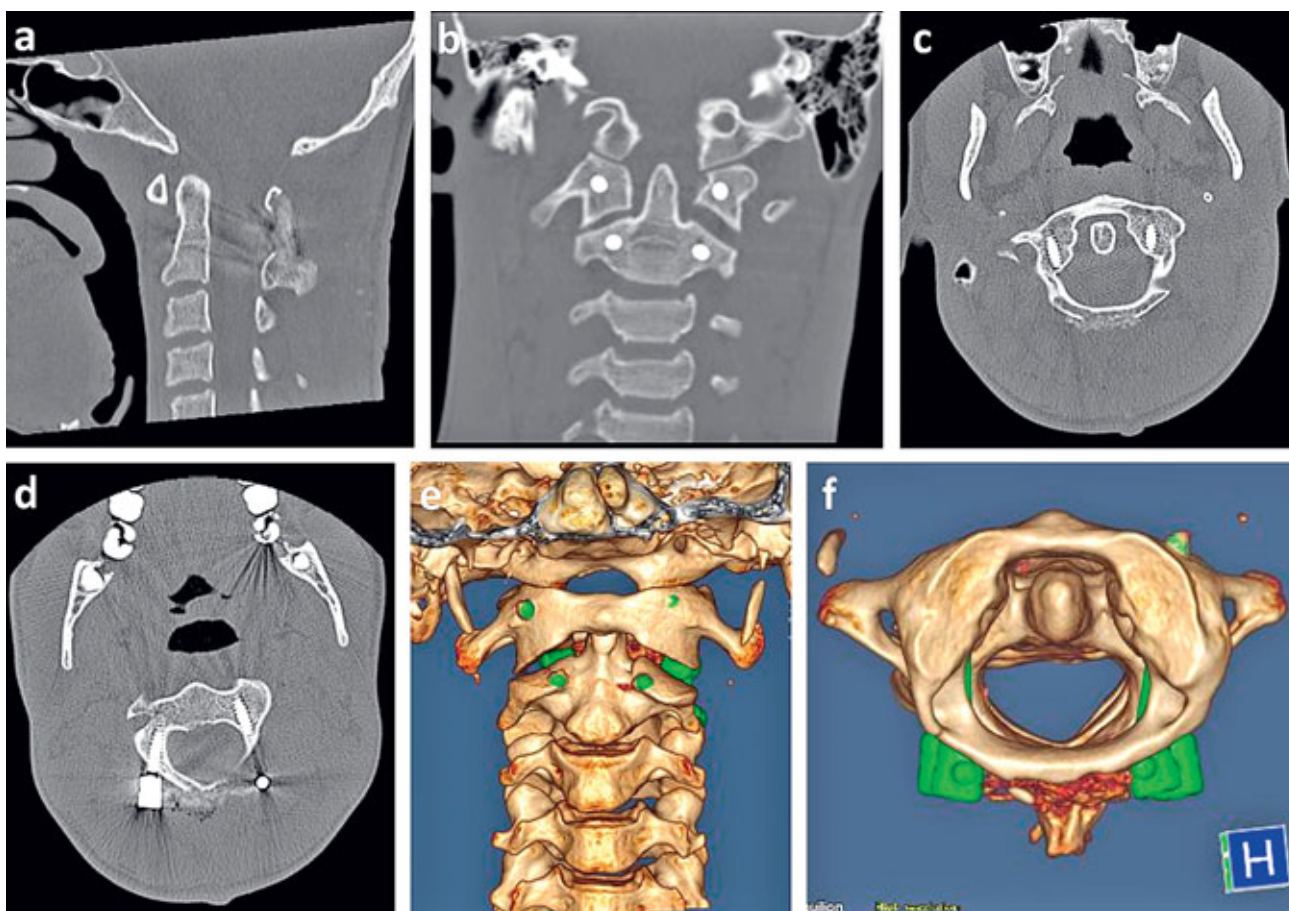
Atlantoaxiální rotační dislokace (atlantoaxial rotatory dislocation, AARD) se nejčastěji vyskytuje v dětském věku a ve většině případů je s úspěchem léčena konzervativně (13–16, 20). AARD je rozdělována na akutní a chronickou s dobou trvání více než 3 měsíce (9, 13–16). U pacientů nalézáme tortikolis, bolest krku a ztuhlost šíje. Na první pohled často dominuje tzv. cock-robin pozice, při které je brada otočena na jednu stranu a krk laterálně flektován na druhou stranu (13–16) (obr. 1). Tortikolis je v souvislosti s AARD často spojována s rozšířením zánětu laryngu lymfatickými a venózními spojkami společně s pozánětlivým ochabnutím ligament a svalovým spazmem (13–16). Dalším etiologickým faktorem mohou být úrazy v oblasti hlavy a krku, pletence ramenního, hrudníku nebo operační výkony v regionu. Až u poloviny pacientů však zůstává etiologie nejasná (3, 20). Netraumatická atlantoaxiální rotační subluxace (atlantoaxial rotatory subluxation, AARS) často spojená s infektem v oblasti krku nebo hlavy je označována jako Griselův syndrom (2). Fielding a Hawkins (4) publikovali v roce 1977 všeobecně akceptovanou klasifikaci, která rozděluje AARD na 4 typy. Typ I a II bez dislokace v sagitální rovině a typ III a IV s dislokací. Wang et al. (20) nazývají první dva typy atlantoaxiální



Obr. 1. Cock-robin pozice hlavy u dívky 8 let + 5 měsíců při AARD vlevo.



Obr. 2. Chlapec 14 let + 11 měsíců s jeden měsíc trvající konzervativně nereponibilní AARD typ II podle Ishii et al.: a – předoperační CT sagitální rekonstrukce ve střední čáře, b – předoperační CT frontální rekonstrukce, c – předoperační CT příčný řez v úrovni C1-C2, d – předoperační 3D CT rekonstrukce při pohledu zepředu, e – předoperační 3D CT rekonstrukce při pohledu shora, f – předoperační MR vyšetření v sagitálním T2 váženém řezu.



Obr. 3. Stav po repozici a stabilizaci C1-C2 dle Harmse (S4Cervical, Aesculap, Německo): a – pooperační CT sagitální rekonstrukce ve střední čáře, b – pooperační CT frontální rekonstrukce, c – pooperační CT příčný řez v úrovni C1, d – pooperační CT příčný řez v úrovni C2, e – pooperační 3D CT rekonstrukce při pohledu zepředu, f – pooperační 3D CT rekonstrukce při pohledu shora.

rotační fixace (atlantoaxial rotatory fixation, AARF) a druhé dva atlantoaxiální rotační fixovaná dislokace (atlantoaxial rotatory fixed dislocation, AARFD). Chirurgickou intervencí vyžadují pacienti při neúspěšné konzervativní terapii, při opakovaných dislokacích a stavy s anatomickými defekty atlantoaxiálního komplexu.

Cílem předkládané práce je radiologické a klinické zhodnocení pacientů s AARD operáčně léčených na našem pracovišti.

MATERIÁL A METODIKA

V období 2001–2017 jsme na Klinice spondylochirurgie 1. LF UK a FN Motol operačně léčili 15 pacientů s AARD. Jednalo se o 6 mužů a 9 žen ve věku 5–72 let s průměrem 27,3 roku, 8 pacientů bylo do 18ti let. Všichni pacienti měli intaktní *dens axis*, ostatní byli ze studie vyloučeni.

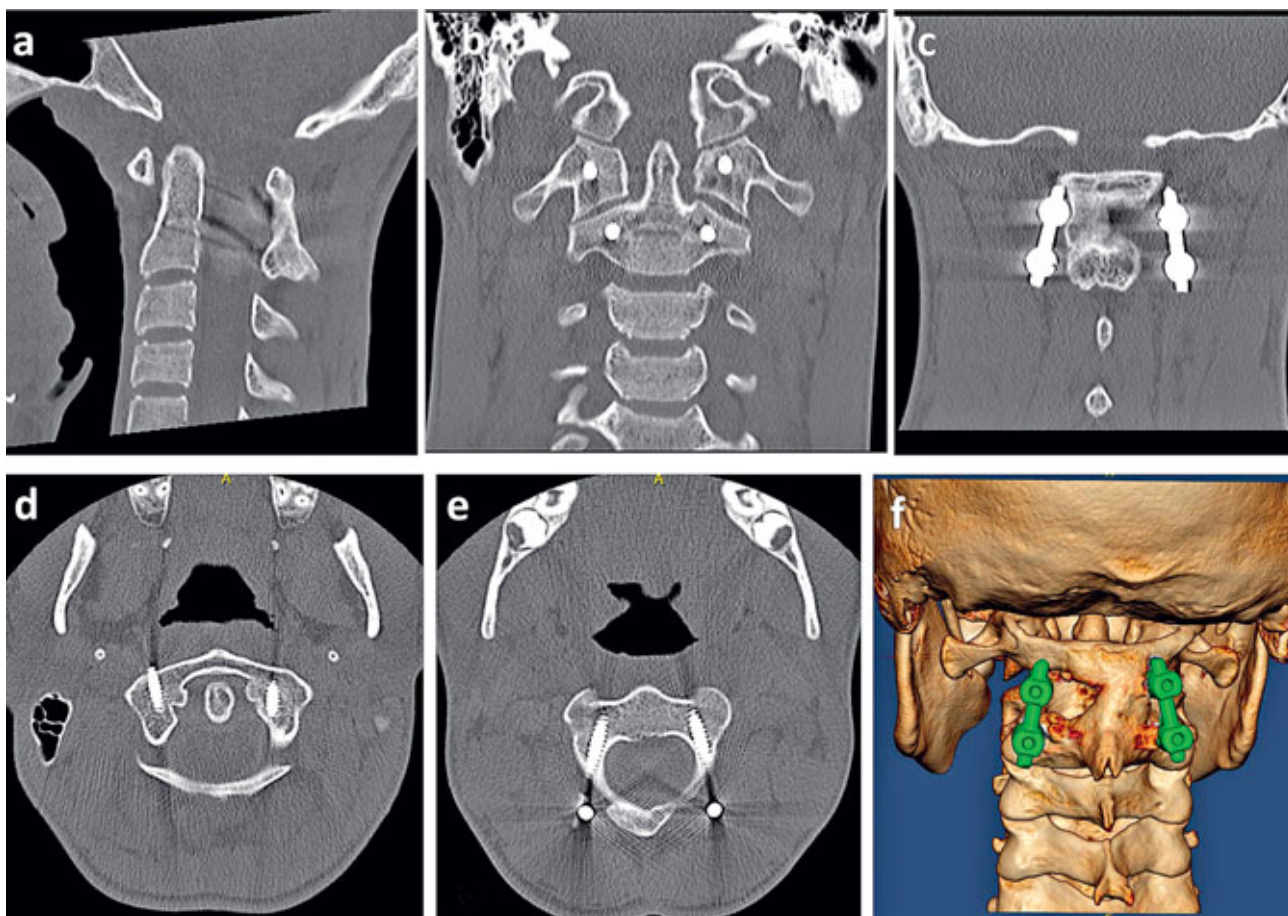
Předoperační příprava

V rámci předoperační přípravy jsme provedli rtg vyšetření ve dvou projekcích, CT vyšetření včetně sagitální, frontální, 3D rekonstrukce a MR vyšetření ve třech rovinách. U všech pacientů jsme aplikovali trakci Glissonovou kličkou po dobu 3–5 dnů, iniciálně se zátěží 5 %

váhy pacienta a zvyšováním během 24 hodin na 10 % váhy podle tolerance, při přetrvávající rotaci jsme indikovali operační terapii. Všichni pacienti byli operováni jedním chirurgem ze zadního přístupu (obr. 2).

Operační postup

Pacienta jsme v celkové endotracheální anestezii a svalové relaxaci primárně ukládali na standardní operační stůl v pronáční poloze a fixovali náplastmi v maximální možné korekci. Řezem ve střední čáře jsme pronikali do oblasti prvního a druhého krčního obratle, skeletizovali jsme od horního okraje zadního oblouku atlasu po intervertebrální kloub C2-C3 a hodnotili orientaci obratlů. Ani v jednom případě nedošlo k samovolné repozici. Následně jsme zaváděli 3,5mm nebo 4mm šrouby s partiálním závitem do C1 dle Goela (5, 18) a do C2 šrouby s plným závitem dle Harmse (8, 18). Rozvolnili jsme intervertebrální klouby C1-C2 a kompletovali fixátor (9x S4Cervical, Aesculap, Německo, 3x Moss Miami, Johnson a Johnson, USA, 2x Virage, Zimmer, USA), následovala korekce deformity a dotažení fixátoru. Správnou pozici atlantoaxiálního komplexu jsme posuzovali podle vztahu *tuberculum posterius atlantis* a spinózního výběžku C2. V případě chybění anatomických orientačních bodů jsme pozici odhadovali podle anato-



Obr. 4. Stav 3 měsíce po operaci a zhojení kostní dězy C1-C2: a – kontrolní CT sagitální rekonstrukce ve střední čáře, b – kontrolní CT frontální rekonstrukce v úrovni AA kloubů, c – kontrolní CT frontální rekonstrukce v úrovni kostní dězy, d – kontrolní CT příčný řez v úrovni C1, e – kontrolní CT příčný řez v úrovni C2, kontrolní 3D CT rekonstrukce při pohledu zezadu.

mické symetrie. Ve 4 případech jsme byli nuceni zavést pomocnou transientní drátěnou kličku pod oblouk C1 a korigovat deformitu fixátorem i kličkou zároveň, po repozici a dotažení jsme kličku odstranili. V jednom případě u dospělého pacienta s inveterovanou deformitou jsme prodloužili montáž až do C3 (šrouby do laterálních mas podle Magerla). Rovněž v jednom případě dospělého pacienta (první pacient) jsme použili Magerlovu techniku (12, 17) transartikulární fixace C1-C2 (Dens Access, Synthes, Švýcarsko) po předcházející repozici tahem drátěné kličky za zadní oblouk atlasu, v tomto případě jsme Gallieho cerkázní fixaci ponechali (18). Ve většině případů jsme odebírali spongiózní kostní štěpy z lopaty kosti kyčelní a aplikovali je mezi zadní oblouk atlasu a laminy C2. Alternativou byla transientní fixace bez kostní dězy indikovaná u méně rigidních rotací s jasnou traumatickou etiologií, minimálními kostními změnami a pocitově malou peroperační repozici silou. Operace jsme v obou případech končili umístěním podtlakového drénu a suturou rány po vrstvách (obr. 3)

Pooperační postup

Pacienti nosili po dobu 3 měsíců tvrdý Philadelphia límec nebo *custom made* tvrdý límec. Po odstranění drénu jsme prováděli kontrolní rtg a CT vyšetření a pro-

pouštěli pacienty do domácího ošetřování. Standardní kontroly včetně rtg vyšetření jsme prováděli s odstupem 6 a 12 týdnů, 6 a 12 měsíců a dále anuálně. CT a MR kontrolní vyšetření jsme prováděli s odstupem 4–6 měsíců po operaci (obr. 4 a 5). U dvou pacientů s transientní fixací jsme provedli extrakci instrumentace 6 měsíců od operace.

Hodnocení

Kromě pravidelných kontrol jsme všechny pacienty vyšetřili ještě při uzavření studie, tedy s odstupem 12–214 měsíců s průměrem 112,1 měsíce po operaci. Ve studii jsme sledovali a hodnotili anatomii atlantoaxiálního komplexu a kraniocervikálního přechodu, průběh operačního výkonu, korekci deformity, kostní dězu, klinický stav pacienta a komplikace. Pro klinické hodnocení jsme použili *Visual Analogue Scale* (VAS) pro bolesti krku a *Neck Disability Index* (NDI). Změny sledovaných klinických (VAS, NDI) i radiologických (atlantodentální interval, laterální inklinace, rotace C1-C2) parametrů byly posouzeny v čase Studentovým dvouvýběrovým párovým t-testem na střední hodnotu. Hodnoty *p* pod hladinou 0.05 jsme považovali za statisticky významné. K provedení této analýzy jsme použili program Excel (Microsoft Office).



Obr. 5. Klinické foto 4 roky po operaci a rozsah pohybu.

VÝSLEDKY

U všech 15 pacientů operaci předcházela neúspěšná konzervativní terapie. Interval od vzniku rotace do operace byl 4 dny až 48 měsíců s průměrem 11,3 měsíce. U 10 pacientů jsme našli rotaci hlavy doleva, u 5 doprava. Přední atlantodentální interval (ADI) se pohyboval v rozmezí 2–7 mm s průměrem 3,5 mm. Ve 13 případech byl ADI do 5 mm, ve 2 případech byl větší. Podle Fieldingovy a Hawkinsovy klasifikace se jednalo 9x o typ I, 4x o typ II a dvakrát o typ III. Podle klasifikace Ischi et al. jsme našli 2x typ I, 12x typ II a jednou typ III. U 9 pacientů jsme v anamnéze zjistili predisponující faktory, 7x trauma, 2x infekce. Neurologické postižení jsme zaznamenali v 5 případech, jednou kvadruplegii Frankel A, třikrát kvadruparézu Frankel C

a jednou parézu pravé horní končetiny po traumatu a rotaci vlevo. Ve dvou případech došlo ke zlepšení o jeden stupeň, v ostatních případech zůstal neurologický nález na kontrolách beze změny.

Operační čas se pohyboval v rozmezí 40–140 min s průměrem 81,1 min, krevní ztráta v rozmezí 100–900 ml s průměrem 400 ml a rtg osvit 30–128 sec. s průměrem 52,3 sec. Před operací jsme zjistili vzájemnou rotaci C1–C2 od 7,0° do 60,0° s průměrem 27,3°, po korekci od 1,0° do 7,0° s průměrem 3,9°. Laterální inklinace byla před operací 3,4° – 23,6° s průměrem 9,9°, po korekci 0,7° až 4,0° s průměrem 2,2°. ADI byl po operaci od 1 do 3 mm s průměrem 1,9 mm. Kostní fúze C1–C2 resp. C1–C2–C3 jsme dosáhli ve všech požadovaných případech (N = 13, 100 %), u dvou pacientů jsme použili dočasnou fixaci. V jednom případě jsme

Tab. 1. Soubor pacientů s AARD

N	Sex	Věk	Směr rotace	Doba rotace	Etiologie	Neurologie před operací	Trakce	Datum operace	Operace	Doba operace	Ztráta (ml)	Osvit (s)	F-UP	Kostní dřeň	Neurologie výstupní
										(minuty)			(měsíce)		
1	F	44	vlevo	2,0	trauma	Frankel C	ANO	1/1/2001	fixace C1-C2 dle Magerla, Dens Access	110,0	300,0	79,0	214,0	ANO	Frankel C
2	F	37	vpravo	1,0	trauma	Frankel C	ANO	28.01.2003	fixace C1-C2 dle Harmse, Miami Moss	100,0	700,0	38,0	191,0	NE	Frankel D
3	M	35	vlevo	1,0	trauma	Frankel E	ANO	04.02.2003	fixace C1-C2 dle Harmse, Miami Moss	140,0	700,0	34,0	190,0	ANO	Frankel E
4	M	7	vpravo	22,0	trauma	Frankel E	ANO	01.01.2006	fixace C1-C2 dle Harmse, Miami Moss	80,0	400,0	90,0	144,0	ANO	Frankel E
5	F	72	vlevo	48,0	degenerativní změny	Frankel E	ANO	01.08.2007	fixace C1-C2 dle Harmse, S4 Cervical	60,0	500,0	35,0	136,0	ANO	Frankel E
6	F	7	vlevo	6,0	infekce HCD	Frankel E	ANO	19.03.2008	fixace C1-C2 dle Harmse, S4 Cervical	120,0	500,0	37,0	129,0	ANO	Frankel E
7	F	16	vlevo	1,0	trauma	Frankel C	ANO	27.09.2008	fixace C1-C2 dle Harmse, S4 Cervical	80,0	500,0	36,0	123,0	ANO	Frankel D
8	M	44	vlevo	38,0	trauma	Frankel D	ANO	16.11.2009	fixace C1-C2 dle Harmse, S4 Cervical	65,0	300,0	40,0	109,0	ANO	Frankel D
9	M	48	vlevo	17,0	neznámá	Frankel E	ANO	21.10.2010	fixace C1-C2 dle Harmse, S4 Cervical	40,0	100,0	32,0	98,0	ANO	Frankel E
10	F	8	vlevo	12,0	m. Down	Frankel E	ANO	13.05.2011	fixace C1-C2 dle Harmse, S4 Cervical	80,0	100,0	128,0	91,0	ANO	Frankel E
11	F	5	vlevo	0,1	trauma	Frankel E	ANO	26.05.2011	fixace C1-C2 dle Harmse, S4 Cervical	52,0	100,0	42,0	91,0	NE	Frankel E
12	F	8	vpravo	3,0	neznámá	Frankel E	ANO	02.10.2013	fixace C1-C2 dle Harmse, S4 Cervical	100,0	300,0	60,0	62,0	ANO	Frankel E
13	M	14	vpravo	1,0	neznámá	Frankel E	ANO	25.10.2013	fixace C1-C2 dle Harmse, S4 Cervical	40,0	200,0	52,0	62,0	ANO	Frankel E
14	F	37	vlevo	9,0	spasticita při kvadruparéze	Frankel A	ANO	30.06.2016	fixace C1-C2-C3 dle Harmse, Virage	60,0	900,0	30,0	29,0	ANO	Frankel A
15	M	8	vpravo	8,0	zánět	Frankel E	ANO	12/12/2017	fixace C1-C2 dle Harmse, Virage	90,0	400,0	52,0	12,0	ANO	Frankel E
Průměr:		27,3		11,3						81,1	400,0	52,3	112,1		

Vysvětlivky: **N** – pořadní, **Sex** – pohlaví, **Věk** – věk v letech v době operace, **Doba rotace** – trvání rotace do operačního řešení v měsících, **F-UP** – odstup od operace v měsících, **Frankel** – Klasifikace poranění míchy podle Frankela: **A** – úplné poškození motoriky a senzitivní inervace, **B** – úplné poškození motoriky, senzitivita částečně zachována, **C** – částečné zachování motoriky, funkčně však nevyužitelné, částečné poškození senzitivity, **D** – částečné, funkčně využitelné zachování motoriky, částečné nebo plně zachovaná senzitivita, **E** – normální motorická i senzitivní funkce.

zaznamenali peroperační likvoreu, kterou jsme řešili kompresí. Poranění nervových struktur ani *a. vertebralis* jsme nezaznamenali, jiné komplikace jsme neřešili (tab. 1 a 2).

Průměrná hodnota VAS pro bolest krku byla před operací 6,3, po jednom roce 1,0 a při konečném vyšetření opět 1,0. Průměrná hodnota NDI byla před operací 50,4 %, po jednom roce 9,3 % a při konečném vyšetření 9,5 %. Při současných znalostech by se všichni pacienti nechali operovat znovu (tab. 3).

Statistické výsledky

Statistické zpracování hodnot VAS pro bolest krční páteře a hodnot NDI před operací a na konci studie (N = 15) prokázalo signifikantní zlepšení klinického stavu

($p < 0,05$). U VAS došlo k signifikantnímu zlepšení 6 měsíců po operaci ($p < 0,05$) a 1 rok po operaci ($p < 0,05$), na dalších kontrolách již nedocházelo k významnému zlepšení ($p > 0,05$). U NDI došlo k signifikantnímu zlepšení 6 měsíců po operaci ($p < 0,05$), na dalších kontrolách již k významným změnám nedocházelo ($p > 0,05$) (graf 1 a 2). Statistické zpracování hodnot radiologických ukazatelů atlantoaxiální anatomie (ADI, úhel inklinace, rotace C1-C2) před operací a zhojení (N=15) prokázalo signifikantní zlepšení ($p < 0,05$) (tab. 4).

DISKUSE

V roce 1977 publikovali Fielding a Hawkins (4) všeobecně akceptovanou a používanou klasifikaci AARD,

Tab. 2. Klasifikace a naměřené radiologické hodnoty

N	Klasifikace			Před operací			Po operací		
	FD	ISHII	FH	ADI (mm)	LI úhel (°)	Rotace (°)	ADI (mm)	LI úhel (°)	Rotace (°)
1	NE	I	I	2,0	5,8	7,0	1,0	3,6	2,0
2	ANO	II	I	4,0	3,9	12,0	3,0	1,7	2,0
3	NE	II	I	2,0	7,2	10,0	2,0	4,0	1,0
4	NE	II	I	5,0	8,7	45,0	1,0	1,1	2,0
5	NE	II	I	2,0	7,1	25,0	2,0	3,4	7,0
6	NE	II	I	2,0	9,1	24,0	1,0	0,7	2,0
7	NE	II	I	2,0	8,1	37,0	2,0	3,9	5,0
8	NE	I	I	2,0	3,4	26,0	2,0	1,3	5,0
9	NE	II	I	3,0	13,4	20,0	1,0	2,5	7,0
10	ANO	II	II	4,0	7,6	18,0	1,0	1,1	7,0
11	NE	II	II	4,0	13,8	26,0	3,0	2,1	4,0
12	ANO	II	III	7,0	10,4	42,0	3,0	1,3	4,0
13	ANO	II	II	4,0	12,4	35,0	3,0	3,3	2,0
14	ANO	III	II	4,0	23,6	60,0	1,0	2,0	6,0
15	ANO	II	III	6,0	14,3	23,0	2,0	1,5	2,0
Průměr:				3,5	9,9	27,3	1,9	2,2	3,9

Vysvětlivky: **N** – pořadní, **ADI** – atlantodentální interval, **LI úhel** – úhel inklinace laterálních mass C1-C2, **FD** – deformita facet C1-C2, **ISHII** – klasifikační stupeň podle Ishii et al., **FH** – klasifikace podle Fieldinga a Hawkinse

Tab. 3. Klinické výsledky operační léčby pacientů s AARD

N	VAS					NDI				
	Pre	6M	12M	24M	Out	Pre	6M	12M	24M	Out
1	8,0	2,0	2,0	2,0	2,0	83,0%	40,0%	40,0%	40,0%	40,0%
2	8,0	2,0	2,0	2,0	2,0	72,0%	14,0%	14,0%	14,0%	14,0%
3	7,0	2,0	0,0	0,0	0,0	70,0%	30,0%	0,0%	0,0%	0,0%
4	5,0	2,0	1,0	0,0	0,0	41,0%	20,0%	2,0%	6,0%	6,0%
5	8,0	5,0	3,0	3,0	7,0	42,5%	50,0%	40,0%	40,0%	42,5%
6	6,0	0,0	0,0	0,0	0,0	11,1%	0,0%	0,0%	0,0%	0,0%
7	9,0	1,0	1,0	1,0	1,0	83,0%	10,0%	10,0%	10,0%	10,0%
8	6,0	0,0	0,0	0,0	0,0	55,6%	0,0%	0,0%	0,0%	0,0%
9	8,0	5,0	3,0	3,0	3,0	72,0%	30,0%	32,0%	30,0%	30,0%
10	0,0	0,0	0,0	0,0	0,0	0,0%	0,0%	0,0%	0,0%	0,0%
11	8,0	0,0	0,0	0,0	0,0	72,0%	0,0%	0,0%	0,0%	0,0%
12	4,0	0,0	0,0	0,0	0,0	15,6%	0,0%	0,0%	0,0%	0,0%
13	7,0	6,0	3,0	0,0	0,0	55,6%	37,8%	2,2%	0,0%	0,0%
14	0,0	0,0	0,0	0,0	0,0	0,0%	0,0%	0,0%	0,0%	0,0%
15	10,0	0,0	0,0		0,0	83,0%	0,0%	0,0%		0,0%
Průměr	6,3	1,7	1,0	0,8	1,0	50,4%	15,5%	9,3%	10,0%	9,5%

Vysvětlivky: **N** – pořadní, **VAS** – vizuální analogová škála pro bolest C páteře, CC přechodu, **NDI** – neck disability index, **pre** – hodnoty před operací, **6M** – hodnoty na 6 měsíční kontrole, **12M** – hodnoty na 12 měsíční kontrole, **24M** – hodnoty na 24 měsíční kontrole, **Out** – hodnoty na poslední kontrole k ukončení studie

kteřá rozděluje rotační dislokace na 4 typy. První typ má centrum rotace v oblasti dentu, je bez atlantodentální dislokace s intaktním *lig. transversum atlantis* a je

typický pro transientní konzervativně dobře ovlivnitelné dislokace. Druhý typ má centrum otáčení v oblasti jednoho atlantoaxiálního kloubu, druhostranný kloub je

Tab. 4. Statistické zhodnocení souboru pacientů s AARD

Před operací

n = 15	ADI	LI úhel	Rotace
Stř. hodnota	3,533	8,767	27,333
Směr. odchylka	1,598	5,015	14,331

Po operaci

Stř. hodnota	1,867	2,233	3,867
Směr. odchylka	0,834	1,131	2,167
t-test – hodnota p	0,000920	0,000257	0,000014

Vysvětlivky: ADI – atlantodentální interval, LI úhel – úhel inklinace laterálních mass C1-C2, Rotace – rotace C1-C2

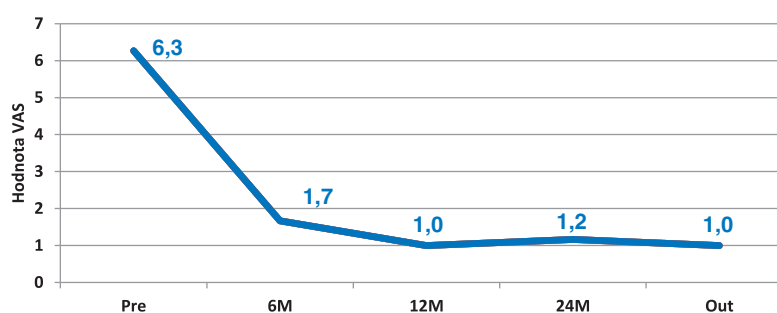
dislokován dopředu, atlantodentální interval je do 5 mm. Třetí typ je charakterizován atlantodentálním intervalem větším než 5 mm a insuficiencí *lig. transversum atlantis* a *ligg. alaria*, obě kloubní plochy C1 jsou dislokovány dopředu, jedna více než druhá. Čtvrtý typ má obě kloubní plochy asymetricky dislokované dorzálně a vždy je přítomný defekt dentu (např. RA, *os odontoideum*, aplázie dentu atd.). Wang et al. (20) považují čtvrtý typ Fieldingovy klasifikace s defektem dentu a dorzální dislokací C1 za jinou nosologickou jednotku, zvláště ve vztahu k revmatoidní artritidě. V jejich souboru 32 dětských pacientů s AARFD našli 4 případy s defektem dentu a vždy s dislokací C1 dopředu. Z našeho souboru jsme pacienty s defektem dentu vyloučili. Pang a Li (13–16) publikovali klasifikaci na podkladě CT vyšetření ve třech pozicích: v dislokaci, v držené nulové pozici a v držené maximální akceptovatelné rotaci na druhou stranu. Na CT scanech ve všech pozicích potom měří rotaci C1 a C2 k vertikále, za zásadní považují rotaci C1 a rozdíl obou hodnot C1C2° (C1° minus C2°). Autoři porovnávají normální a patologickou pohybovou křivku. Jestliže je rozdíl C1C2° při repozici menší než 20 % jedná se o typ I s největší rigiditou a tuhým mezikostním spojením. Typ II má rozdíl větší než 20 %, je velmi nepoddajný, ale není zde tuhé kostní spojení. Typ III je nejméně závažný a vyznačuje se překřížením linií C1 a C2 při rotaci na druhou stranu. Klasifikace z roku 2005 je pro běžné použití velmi složitá a na našem pracovišti ji nepoužíváme. Ishii et al. (10) navrhli klasifikaci podle stupně deformity facet a inklinace atlasu. Typ I je charakterizován intaktními facetami a nulovou inklinací, přítomna je pouze rotace. U typu II je přítomna deformita facet a inklinace do 20°, u typu III je rovněž přítomna deformita facet, ale inklinace je více než 20°.

Wang et al. (20) tvrdí, že AARD je u dospělých raritní a výrazně převažují pediatričtí pacienti. Svoje tvrzení pod-

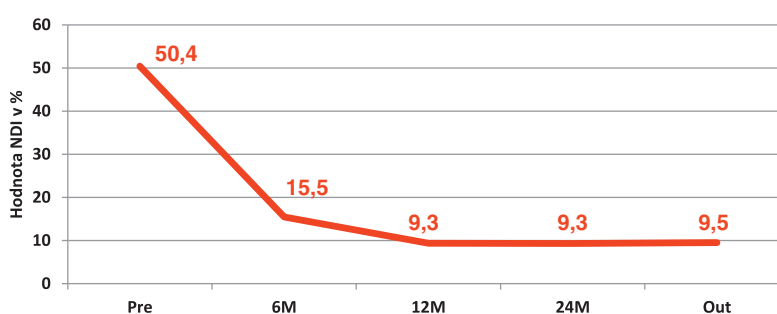
porují teoretickou úvahou vlivu nezralosti dětského skeletu. U dětí jsou mělčí a více horizontálně orientované kloubní plochy atlantoaxiálních kloubů, relativní laxita ligament, nedokončený vývoj krčních svalů a relativně velká hlava (5). Výše uvedené charakteristiky spíše podporují častější vznik atlantoaxiální instability než fixované tortikolis, nicméně kostní i měkkotkáňové struktury páteře jsou růstově aktivní, a tak náchylné k remodelačnímu procesu. Ke stejným remodelačním procesům může vést rovněž infekce v oblasti krku, drobné trauma nebo chirurgický výkon. Atlantoaxiální klouby jsou fixovány v patologickém postavení rychlou remodelací a přetrvávají i po odeznění primárního postižení. U dospělých pacientů je remodelační proces mnohem delší a primární postižení většinou odezní rychleji. V raritních případech často spojených s vysokoenergetickým poraněním může dojít k prolongovanému hojení a tedy i vzniku AARF nebo AARFD. Wang et al. (20) uvádějí ještě další teorii vzniku dětské AARF. Rychlé hojení a fibróza kloubních pouzder a ligament způsobí u dětí kontrakci kloubních pouzder, zvláště když jsou faceti v extrémní, dislokované nebo uzamčené pozici. V našem souboru jsme našli překvapivě mnoho dospělých pacientů (46,7 %) a vysvětlením je koncentrace pacientů s postižením kraniocervikálního přechodu na našem pracovišti.

Opakovaně jsou uváděné predispoziční faktory vzniku AARF, nazofaryngeální infekce, infekce horních cest dýchacích, trauma, operace hlavy a krku. Wang et al. (20) uvádějí 50 % případů se známou etiologií, nejčastěji se jednalo ve 25 % o středně těžké trauma. Beier et al. (3) popsali vztah k traumatu u 50 % svých případů.

Vizuální analogová škála pro bolest C páteře



Neck Disability Index



Akbay et al. (1) prokázali iniciální trauma dokonce v 92 % případů. Ishii et al. (10) uvádějí jako nejčastější etiologii infekci horních cest dýchacích v 71 %. V našem souboru jsme dohledali iniciální úraz ve 46,7 %, zjevný infekční pouze ve 13,3 %, u ostatních byla etiologie nejasná.

Fielding a Hawkins (4) a rovněž Pang (13–16) popsali častější postižení u mužů, Beier et al. (3) ve velkém souboru našli poměr 3:2 ve prospěch mužů. Naopak Wang (20) uvádí dvojnásobné postižení u žen, Akbay et al. (1) 3 ženy na jednoho muže a Ishii et al. (9) dokonce 100 % žen. Náš soubor obsahoval 60 % dívek a žen.

Při běžných AARD I. a II. typu je neurologické postižení včetně myelopatie raritní. Podle Wanga et al. (20) je vznik myelopatie svázán zvláště s AARFD a AAD, ve své studii uvádějí 25 %. V našem souboru jsme zaznamenali neurologické postižení ve 33,3 %, v jednom případě byla AARD spíše následek kvadruplegie.

Konzervativní terapie trakcí nebo manipulací je většinou úspěšná u funkčních postižení (1–3, 10, 13–16). Beier et al. (3) hodnotili 40 dětí s AARS a primárně léčili konzervativně, pouze jeden pacient s výraznou anatomickou stenózou páteřního kanálu byl primárně operován, další dva podstoupili operační výkon po nezdaru konzervativní terapie včetně halo-fixace. Ishii et al. (10) popsali algoritmus terapie chronické AARF a primárně doporučují u pohyblivých segmentů zavřenou manipulaci s následnou halo fixací na 2–4 měsíce, tzv. remodelační terapii. K úplné remodelaci došlo u 10 z 12 pacientů, u zbylých 2 zjistili parciální remodelaci. Chirurgickou léčbu indikovali až při neúspěchu konzervativní léčby, primární chirurgickou terapii doporučují pouze u pacientů s kostní dézou C1–C2, defektem dentu nebo při vrozených anomáliích. Akbay et al. (1) preferují manuální repozici v celkové anestezii a ortézu na 4 týdny, pouze 1 dětský pacient ze 12 vyžadoval následnou atlantoaxiální fixaci a fúzi po opakovaných konzervativních neúspěších. Ishii et al. (9) v jiné práci popsali u 71 % pacientů normální rozsah pohybu krční páteře 2 týdny po sejmutí halo vesty a při konečném vyšetření nezjistili recidivu.

U pacientů s vytvořenými anatomickými změnami konzervativní léčba selhává a je nutné zvažovat operační korekci a stabilizaci (10, 13–16, 20). Landi et al. (11) našli v konzervativně léčené skupině 9 dětí s AARF léze *ligg. alaria*, *lig. transversum atlantis* a kapsulárních vazů na MRI a následně doporučili operační řešení. Goel a Shah (6) ve studii 14 pacientů rovněž doporučují operační řešení u pacientů s AARF při selhání konzervativní terapie po dobu dvou měsíců. Wang et al. (20) v recentní studii navrhuje terapeutický návod po léčení atlantoaxiální rotační deformity u dětí. Při tortikolis trvající více než 6 týdnů provádějí RTG vyšetření krční páteře v boční projekci, u pacientů s atlantodentálním intervalem (ADI) do 5 mm aplikují trakci na 6 týdnů, není-li úspěšná, indikují zadní fixaci C1–C2. U pacientů s ADI více než 5 mm provádějí skeletální trakci v celkové anestezii a následně při úspěšné repozici opět zadní fixaci C1–C2, u pacientů s nereponibilní dislokací předchází transorální uvolnění obou atlantoaxiálních kloubů. Pang (13–16) doporučuje pro nereponibilní dislokace fixaci a fúzi *in situ* s nejlepší možnou korekcí.

Wang et al. (20) považují *in situ* fixaci za esteticky nepřijatelnou a poukazují na uspokojivou korekci u všech svých pacientů. Naše pracoviště rovněž preferuje korekci u všech pacientů, fixace *in situ* zvláště u dětí prohlubuje vývojovou deformitu obličeje a krční páteře.

Venkatesan et al. (19) popsali 2 případy dospělých pacientů s čistě traumatickou atlantoaxiální rotační subluxací (nazývají ji TAARS-traumatic atlantoaxial rotatory subluxation) úspěšně léčenou halo trakcí na 4–5 dní a následnou zevní fixací v tvrdém límci na 8 týdnů. Naopak Guo et al. (7) preferují u dětí s TAARS a defektem *lig. transversum atlantis* primárně repozici a atlantoaxiální fixaci s fúzí.

Pro atlantoaxiální fixaci a fúzi je ve většině případů používána Harmsova/Goelova nebo Magerlova technika, u malých dětí cerklážní techniky případně jejich kombinace (1, 7, 13–17, 20). Wang et al. (20) preferují fixaci C1–C2 dle Harmse/Goela a dosáhli úspěšné fúze v 96,6 %. U 9,4 % pacientů byli nuceni fixaci prodloužit do okcipitální kosti. Guo et al. (7) publikovali 5 dětských pacientů s akutní TAARS a aplikací 3,5 mm šroubů modifikovaně do laterálních mas C1 přes zadní oblouk s následnou atlantoaxiální fixací a fúzí. Nezaznamenali žádné komplikace a kostní fúze C1–C2 dosáhli ve všech případech. V našem souboru jsme potvrdili vysokou úspěšnost kostní fúze (13/15, 13 = 100 %) a zároveň jsme s úspěchem u dvou pacientů použili transienční atlantoaxiální fixaci vždy u pacienta s úrazovou etiologií.

ZÁVĚR

Při neúspěšné konzervativní terapii je chirurgická korekce AARD vhodnou léčebnou metodou, která zajistí příznivé postavení atlantoaxiálního komplexu, zlepšuje klinický stav pacienta a zamezí asymetrickému vývoji obličeje u dětí. Harmsova/Goelova technika fixace a fúze C1–C2 je pro nás metodou volby u starších dětí a dospělých pacientů.

Literatura

1. Akbay A, Bilginer B, Akalan N. Closed manual reduction maneuver of atlantoaxial rotatory dislocation in pediatric age. *Childs Nerv Syst.* 2014;30:1083–1089.
2. Barcelos ACES, Patriota GC, Netto AU. Nontraumatic atlantoaxial rotatory subluxation: grisel syndrome. Case report and literature review. *Glob spine J.* 2014;4:179–186.
3. Beier AD, Vachhrajani S, Bayerl SH, Aguilar CYD, Lamberti-Pasculli M, Drake JM. Rotatory subluxation: experience from the Hospital for Sick Children. *J Neurosurg Pediatr.* 2012;9:144–148.
4. Fielding JW, Hawkins RJ. Atlanto-axial rotatory fixation. (Fixed rotatory subluxation of the atlanto-axial joint). *J Bone Joint Surg Am.* 1977;59:37–44.
5. Goel A, Laheri V. Plate and screw fixation for atlanto-axial subluxation. *Acta Neurochir (Wien).* 1994;129:47–53.
6. Goel A, Shah A. Atlantoaxial facet locking: treatment by facet manipulation and fixation. Experience in 14 cases. *J Neurosurg Spine.* 2011;14:3–9.
7. Guo X, Xie N, Lu X, Guo Q, Deng Y, Ni B. One-step reduction and fixation applying transposterior arch lateral mass screw of C1 combined with pedicle screw of C2 and rod system for pediatric acute atlantoaxial rotatory subluxation with injury of transverse ligament. *Spine (Phila Pa 1976).* 2015;40:E272–278.

8. Harms J, Melcher RP. Posterior C1-C2 fusion with polyaxial screw and rod fixation. *Spine (Phila Pa 1976)*. 2001;26:2467–2471.
9. Ishii K, Matsumoto M, Momoshima S, Watanabe K, Tsuji T, Takaishi H, Nakamura M, Toyama Y, Chiba K. Remodeling of C2 facet deformity prevents recurrent subluxation in patients with chronic atlantoaxial rotatory fixation: a novel strategy for treatment of chronic atlantoaxial rotatory fixation. *Spine (Phila Pa 1976)*. 2011;36:E256–262.
10. Ishii K, Toyama Y, Nakamura M, Chiba K, Matsumoto M. Management of Chronic Atlantoaxial Rotatory Fixation. *Spine (Phila Pa 1976)*. 2012;37:E278–285.
11. Landi A, Pietrantonio A, Marotta N, Mancarella C, Delfini R. Atlantoaxial rotatory dislocation (AARD) in pediatric age: MRI study on conservative treatment with Philadelphia collar—experience of nine consecutive cases. *Eur Spine J*. 2012;21:94–99.
12. Magerl F, Seemann P-S. Stable posterior fusion of the atlas and axis by transarticular screw fixation. In: *Cervical spine I*. Springer, Vienna, 1987, pp 322–327.
13. Pang D. Atlantoaxial Rotatory Fixation. *Neurosurgery*. 2010;66:A161–183.
14. Pang D, Li V. Atlantoaxial rotatory fixation: Part 1 – Biomechanics of normal rotation at the atlantoaxial joint in children. *Neurosurgery*. 2004;55:614–625; discussion 625–626.
15. Pang D, Li V. Atlantoaxial rotatory fixation: part 2 – new diagnostic paradigm and a new classification based on motion analysis using computed tomographic imaging. *Neurosurgery*. 2005;57:941–953.
16. Pang D, Li V. Atlantoaxial rotatory fixation: part 3 – a prospective study of the clinical manifestation, diagnosis, management, and outcome of children with atlantoaxial rotatory fixation. *Neurosurgery*. 2005;57:954–972.
17. Štulík J, Krbec M. Atlanto-axial rotation dislocation (case report). *Acta Chir Orthop Traumatol Cech*. 2002;69:49–53.
18. Stulik J (ed). *Cervical spine trauma*. 1st ed., Galen, Praha, 2012.
19. Venkatesan M, Bhatt R, Newey ML. Traumatic atlantoaxial rotatory subluxation (TAARS) in adults: a report of two cases and literature review. *Injury*. 2012;43:1212–1215.
20. Wang S, Yan M, Passias PG, Wang C. Atlantoaxial rotatory fixed dislocation. *Spine (Phila Pa 1976)*. 2016;41:E725–732.

Korespondující autor:

as. MUDr. Petr Nesnidal
Klinika spondylochirurgie 1. LF UK a FN Motol
V úvalu 84
150 06 Praha 5
E-mail: pnesnidal@centrum.cz