Atlantoaksial rotasjonsfiksasjon

Aktuell diagnose ved torticollis

BILAG /

Atlantoaksial rotasjonfiksasjon er en tilstand hvor atlas låses i rotert stilling i forhold til axis. Tilstanden er en viktig årsak til torticollis. Den er hyppigst hos barn og unge voksne. De viktigste utløsende faktorer er traumer mot nakken og halsinfeksjoner, men lidelsen kan også oppstå spontant. Fiksasjonens patogenese er ikke klarlagt.

Tre pasienter med atlantoaksial rotasjonsfiksasjon presenteres. De kliniske funn beskrives, og nytten av computertomografi i diagnostikken vises. Hvis konservativ behandling ikke fører til reposisjon av feilstillingen, anbefales operasjon med artrodese mellom atlas og axis.

Kjell Arne Kvistad
Gunnar Myhr
Svein Anda
Røntgenavdelingen

Karl O. Skaanes
Nevrokirurgisk avdeling

Regionsykehuset i Trondheim
7006 Trondheim

Kvistad KA, Myhr G, Anda S, Skaanes KO.

Atlantoaxial rotatory fixation

A differential diagnosis in torticollis

Tidsskr Nor Lægeforen 1991; 111: 333–6

Atlantoaxial rotatory fixation is a disorder which must be considered in persistent torticollis. The disorder occurs mainly in children and young adults. The usual etiological factors are traumas or infections of the upper respiratory tract, but the onset may also be spontaneous. The pathogenesis of the fixation is poorly understood.

We describe three patients with atlantoaxial rotatory fixation and demonstrate the usefulness of computerized tomography in the diagnosis of this condition. We recommend a posterior atlantoaxial fusion if conservative treatment fails to reduce the rotatory fixation.

Atlantoaksial rotasjonsfiksasjon er en tilstand hvor atlas er fiksert i rotert stilling i forhold til axis (1). Denne fiksasjonen kan opptre separat eller i kombinasjon med dislokasjon av atlas anteriort eller posteriort på axis (2). Klinisk fremkommer en torticollis hvor hodet er bikket til én side og rotert til motsatt side samtidig som det er lett flektert (1–3). For å belyse tilstanden, som kan være vanskelig å diagnostisere, refererer vi tre pasienter med atlantoaksial rotasjonsfiksasjon som de siste to årene er behandlet ved Regionsykehuset i Trondheim. Leger som er involvert i diagnostikk og behandling av nakkesmerter bør kjenne til denne sykdomstilstanden som årsak til torticollis.

Pasient 1. 23 år gammel mann. Tidligere sykdommer: venstresidig perifer idiopatisk facialisparese 17 år gammel, commotio cerebri 20 år gammel. Ved den aktuelle hendelsen var pasienten fører av bil og kjørte mot en trapp. Han fikk et nakketraume av whiplashtype, trolig kombinert med en rotasjonsbevegelse av hodet. Etter dette hadde han litt smerter og stivhet i nakken, men ikke i den grad at han oppsøkte lege. Økende smerter medførte legekonsultasjon etter to uker. Han klaget da over smerte i nakken. Hodet var rotert mot høyre, og ved vridning mot venstre ble smertene forverret. Røntgen cervikalcolumna ble beskrevet som normal, bortsett fra holdningsforandringer. Ved kontroll 11 dager senere var tilstanden uendret, og han ble utstyrt med halskrage. Ved neste kontroll etter ytterligere én uke, altså vel en måned etter symptomstart, var hodet fortsatt på skakke, og feilstillingen økte når man fjernet halskragen. Røntgen cervikalcolumna med frontalbilde av atlas og axis (gapebilde) viste nå at venstre lateralmassiv av atlas var forskutt medialt og høyre lateralt. Leddspalten i høyre atlantoaksialledd og i venstre atlantooccipitalledd var ikke fremstilt. På mistanke om rotasjonsfeilstilling ble det utført computertomografi av øvre cervikalcolumna (fig 1) som viste rotasjon av atlas i forhold til axis. Høyre leddfasett var rotert fremover og venstre leddfasett noe bakover. Undersøkelsen viste også feilstilling i atlantooccipitalleddet. Funnet ble verifisert ved planigrafi. Pasienten ble behandlet med 4 kg skallestrekk økende til 6,5 kg. På grunn av ufullstendig reposisjon ble pasienten operert etter fire dager med fiksasjon mellom occiput, atlas og axis ved hjelp av en Hartshill ramme.

Pasient 2. Åtte år gammel tidligere frisk gutt. Én uke etter en antibiotikabehandlet halsinfeksjon utviklet det seg en persisterende skjevstilling i nakken. Hodet var bikket mot høyre og rotert med ansiktet vendt mot venstre. Han var øm i nakken og klarte ikke å delta i fysisk aktivitet. Fysioterapi og forsøksvis Vival og Paralgin forte hadde ingen effekt. Tre måneder etter symptomstart ble han innlagt i sykehuset. Ved undersøkelsen var hodestillingen som beskrevet. Det ble utløst smerter ved forsøk på å rette opp hodet til nøytral stilling. Det var ingen neurologiske utfall. Øre-nese-halsundersøkelse utelukket en retrofaryngeal abscess. Røntgen cervikalcolumna viste S-formet skoliose. Ved skjelettscintigrafi ble det funnet økt opptak i atlas, mest på høyre side. Magnetisk resonans-tomografi av cervikalcolumna viste at hodet var bøyd til høyre i øvre nakkeavsnitt, men forholdene var for øvrig normale. Gutten ble utskrevet med nakkekrage uten at man hadde funnet noen årsak til hans torticollis. Skjevstillingen vedvarte selv om smertene i nakken avtok noe. Seks måneder etter symptomstart ble han på ny innlagt og klaget nå også over smerter i høyre del av bakhodet. Spinalvæske og beinmargsbiopsi var normal. CT av cervikalcolumna viste en rotasjon av atlas i forhold til axis. Høyre lateralmassiv av atlas var luksert fremover og venstre lateralmassiv bakover (fig 1). Planigrafi bekreftet funnet. Kirurgisk reponering ble forsøkt, men fiksasjonen mellom atlas og axis var så uttalt at dette mislyktes. Det ble anlagt 4 kg skallestrekk. Fem dager senere ble det gjort et nytt inngrep hvor man klarte å reponere atlas, og det ble utført en artrodese mellom atlas og axis. Pasienten ble raskt mobilisert med krage. Ved kontroll tre måneder postoperativt hadde han ikke lenger smerter i nakke eller skuldre. Det var ikke feilstilling av hodet, men han klarte ikke å vri det til høyre uten medbevegelse i skuldrene. Det var tydelig atrofi av nakkemuskulaturen på høyre side.

Pasient 3. Fire år gammel jente, tidligere frisk. Under lek på en madrass falt hun bakover og ble liggende med hodet rotert til høyre. Hun ble samme dag henvist til sykehuset. Ved undersøkelsen virket feilstillingen fiksert. Det var ikke neurologiske utfall. Røntgen cervikalcolumna med «gapebilde» viste asymmetri ved at venstre lateralmassiv av atlas var forskutt medialt og høyre lateralmassiv lateralt. Cervikal CT viste en betydelig rotasjon mellom atlas og axis. Venstre lateralmassiv var dislosert fremover og høyre lateralmassiv bakover. Det var normal avstand mellom dens axis og fremre atlasbue og ingen tegn til frakturer. Tilstanden ble oppfattet som en atlantoaksial rotasjonsfiksasjon. Det ble gjort en forsiktig manuell reposisjon med pasienten i narkose. Deretter ble pasienten operert med fripreparering av atlas og axis baktil, og man fant at feilstillingen var reponert. Det var imidlertid ruptur av ligamentet mellom processus spinosi på atlas og axis. Man valgte å fiksere disse med en cerclage for å sikre stabiliteten mellom atlas og axis. Postoperativt fikk pasienten nakkekrage til bruk om dagen. Ved kontroll tre uker etter inngrepet var det ingen feilstilling i nakken klinisk eller røntgenologisk. Cerclagen planlegges fjernet etter et halvt år.

Diskusjon

Funksjonell anatomi

Fasettleddene mellom atlas og axis er tilnærmet horisontale og lett vinklet nedover og utover. Hovedbevegelsen i atlantoaksialleddet er derfor rotasjon. Normal rotasjon i atlantoaksialleddet er cirka 45° til hver side (4). Atlantoaksialleddet står for over halvparten av cervikalcolumnas totale rotasjonsevne (5). Ved maksimal rotasjon vil leddfasettene mellom atlas og axis gli nesten helt ut av kontakt med hverandre (3). Den viktigste stabilisator i atlantoaksialleddet er ligamentum transversum atlantis som går bak dens axis og holder den tett inntil fremre atlasbue. Ligamen-

Røntgenfunn

Atlantoaksial rotasjonsfiksasjon påvises radiologisk ved å demonstrere mangel på normal bevegelighet mellom atlas og axis ved forsøk på rotasjon (1, 2, 9). Et frontalbilde (gapebilde) kan gi mistanke om tilstanden ved å fremstille forskjell i avstanden mellom dens axis og de to lateralmassivene på atlas. Denne asymmetrien består ved forsøk på å derotere hodet (1). På den siden som er rotert bakover (høyre side ved høyrerotasjon), vil fasettleddet mellom axis og atlas ofte være vanskelig å identifisere. Frontal tomografi kan vise at de to lateralmassivene på atlas ikke ligger i samme plan. Diagnosen kan bekreftes ved gjennomlysning hvor man ser at atlas og axis beveger seg som en enhet under rotasjon i hode og nakke. Imidlertid kan både vanlige røntgenbilder og funn ved gjennomlysning være vanskelige å tolke, noe våre første to pasienter demonstrerer. Dette skyldes feilstillingen av hodet som gir overprojeksjon av beinete strukturer som mandibula og occipitalbeinet. I tillegg forekommer ulike utviklingsvarianter av dens axis som ytterligere kan vanskeliggjøre bildetolkningen (1).

CT har vist seg å være et meget godt hjelpemiddel i diagnostikken av atlantoaksial rotasjonsfiksasjon. CT gir en direkte bildefremstilling av alle komponenter involvert i tilstanden, og det er forholdsvis enkelt å tolke relasjonene mellom occiput, atlas og axis (3, 5, 10). Vi mener å ha nytte av å tegne inn en koronal linje gjennom et representativt CT-bilde av occiput, atlas, axis og C3 (8). Når aksene er klarlagt, blir det lettere å avgjøre nivået for rotasjonen.

Spastisk torticollis kan gi et liknende CT-bilde som en atlantoaksial rotasjonsfiksasjon (9). Det anbefales derfor å gjenta CT-undersøkelsen mens pasienten forsøker å rotere hodet i motsatt retning av fiksasjonen. Ved spastisk torticollis vil rotasjonsfeilstillingen i atlantoaksialleddet oppheves ved denne prosedyren, mens den forblir uendret ved atlantoaksial rotasjonsfiksasjon.

Klassifikasjoner

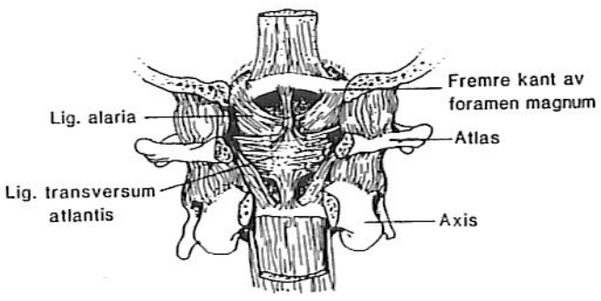
Fielding & Hawkins har klassifisert sine 17 pasienter i fire grupper (2) (fig 3). Ved type I er atlas rotert i forhold til axis med dens som akse uten anteroposterior dislokasjon. De stabiliserende ligamenter er her intakte. Type I-rotasjon er den vanligste i dette materialet. Type II har i tillegg til rotasjonsfiksasjonen en anterior dislokasjon på 3–5 mm av atlas i forhold til dens axis. Dette er forbundet med skade av ligamentum transversum atlantis. Ved type III er den anteriore dislokasjon over 5 mm, og i tillegg til skade av ligamentum transversum atlantis er det her også skade av ligg. alaria. Ved type IV foreligger det rotasjonsfiksasjon kombinert med posterior dislokasjon av atlas i forhold til axis. Dette forutsetter en defekt i dens axis som ved fraktur eller enkelte medfødte lidelser.

Fieldings klassifikasjon er hensiktsmessig for å vurdere tilstandens prognose og behandling. Type-I-rotasjon er stabil, type II er potensielt ustabil og type III og IV er ustabile med risiko for skade av medulla spinalis. Våre tre pasienter hadde en type I-rotasjon.

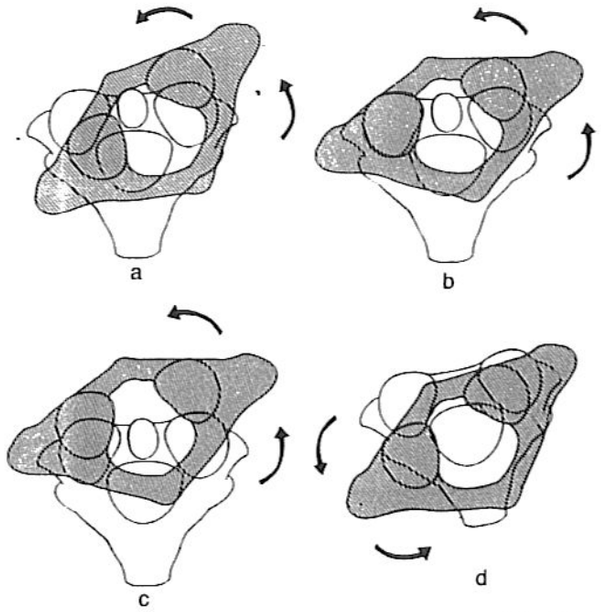
Vår pasient 1 hadde atlantoaksial rotasjonsfiksasjon i kombinasjon med en atlantooccipital subluksasjon i motsatt retning. Det er også tidligere beskrevet (7, 8). Det er sannsynlig at denne subluksasjonen inntrer sekundært som en kompensasjon for den atlantoaksiale feilstillingen. Det er viktig å være oppmerksom på denne kombinasjonen fordi den, som hos vår pasient, vanskeliggjør reposisjon ved strekkbehandling.

Etiologi

Tilstanden er hyppigst utløst av nakketraumer, ofte av whiplashtype (1–3, 9). Andre utløsende faktorer er infeksjoner i øvre luftveier og kirurgiske prosedyrer som innsetting av tannregulering og ganespalteoperasjoner (1, 2). Tilstanden kan også inntreffe spontant (2, 10). Fiksasjonens patogenese er ikke klarlagt. Det eksisterer imidlertid flere hypoteser. Wortzman & Dewar (1) slår fast at tilstanden ikke skyldes fraktur eller ligamentruptur, men en skade av ukjent natur mot selve atlantoaksialleddene. Disse forfatterne (1) infiltrerte fasettleddene mellom atlas og axis med lokalanestesi. Dette førte til en tydelig, men forbigående bedring av smerter og bevegelighet. Den atlantoaksiale fiksasjonen bedømt fra røntgenbilder, bestod imidlertid uendret også i perioden med symptombedring, slik at muskelspasme neppe er noen viktig etiologisk faktor. Fielding & Hawkins (2) postulerer at fiksasjonen i en tidlig fase skyldes hevelse i kapsel og synovialhinner kombinert med muskelspasme. Senere i forløpet forsterkes fiksasjonen av ligament- og kapselkontrakturer. Det foreli-



Figur 2 Ligamentapparatet i atlantoaksialleddet. Koronalt snitt gjennom øvre cervikalcolumna (6)



Figur 3 Fire typer rotasjonsfiksasjon. a) Type I – ingen → anteroposterior dislokasjon. b) Type II – anterior dislokasjon på 3–5 mm. c) Type III – anterior dislokasjon over 5 mm. d) Type IV – posterior dislokasjon (2)

tet stabiliserer leddet ved rotasjon og hindrer at atlas lukserer fremover i forhold til aksis ved fleksjon av hodet. Ligg. alaria, som går fra apex dentis til fremre kant av foramen magnum, hindrer også eksessiv rotasjon og glidning av atlas i forhold til aksis (fig 2).

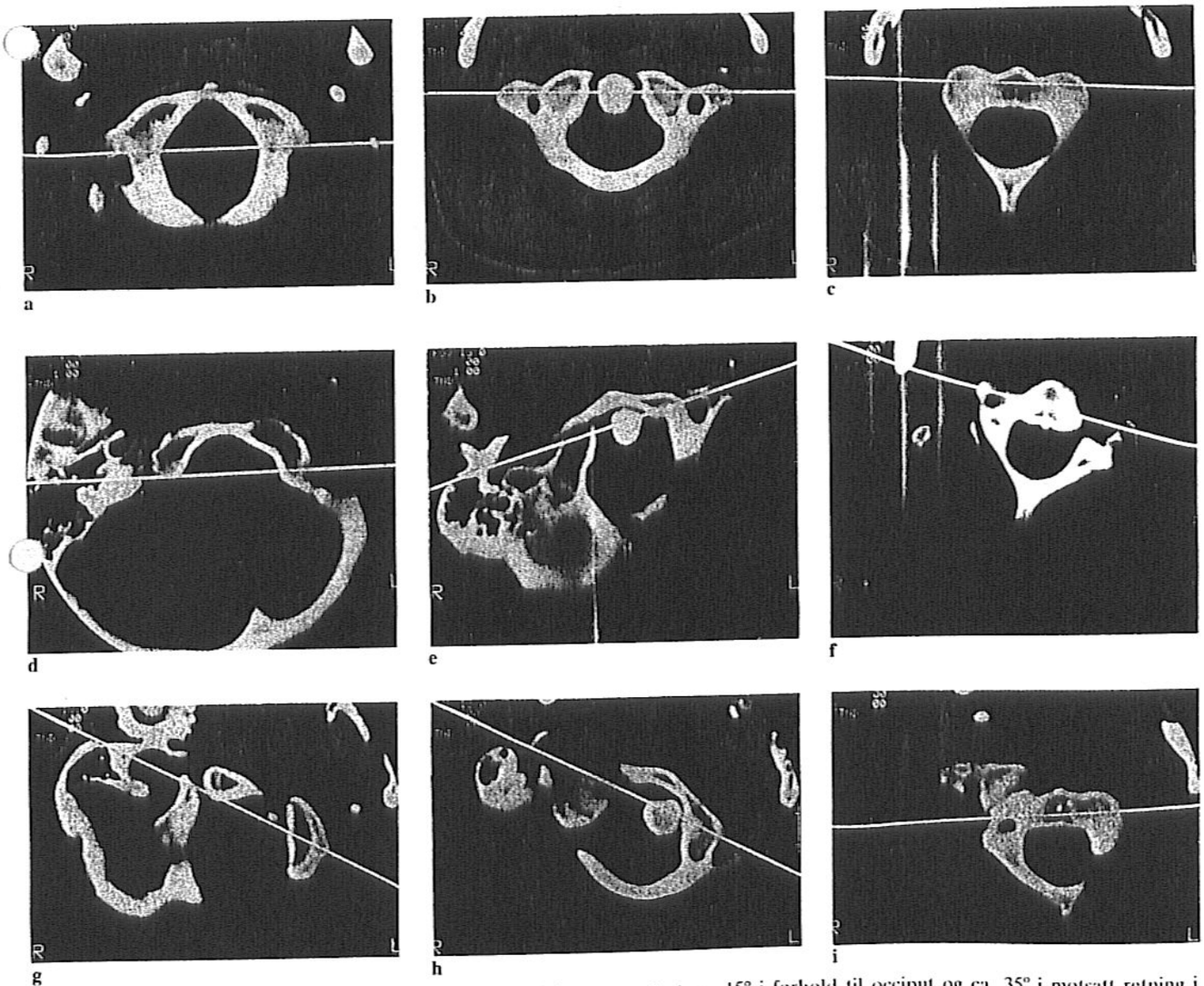
Klinikk

Atlantoaksial rotasjonsfiksasjon er en tilstand som særlig rammer barn og unge voksne. Våre tre pasienter var henholdsvis 23, åtte og fire år. I et annet materiale var gjennomsnittsalderen hos de 17 pasientene 20,6 år (2). Pasientene presenterer seg med en øm og stiv nakke. Hodet er bikket til den ene siden, rotert til motsatt side og lett flektert. Denne hodestillingen likner en fugl som lytter etter mark nede i jorden og benevnes derfor i anglosaksisk litteratur som «cock robin»-posisjon. Forsøk på å derotere hodet forbi midtstilling forverrer smertene. Neurologiske utfall sees sjelden. Enkelte pasienter, som vår pasient 2, har unilateral bakhodepine. Det kan forklares ut fra kompresjon av C2-nerven, idet den passerer i nær relasjon til kapselen i det atlantoaksiale leddet (3).

En viktig differensialdiagnose er spastisk torticollis. Ved denne tilstanden er feilstillingen av hodet forårsaket av kontraksjon i m. sternocleidomastoideus på motsatt side av den hodet er rotert til. En slik krampe i m. sternocleidomastoideus finner man ikke ved atlantoaksial rotasjonsfiksasjon.

Slik vi så hos våre to første pasienter, vil en ubehandlet feilstilling i hode/nakke ved atlantoaksial rotasjonsfiksasjon ofte persistere. Hos enkelte inntrer en tilsynelatende normalisering. Dette skyldes en kompenserende rotasjon i motsatt retning i nedre del av cervikalcolumna (1) eller en subluksasjon i atlantooccipitalleddet (7, 8).

Hvis atlantoaksialleddet blir stående i fiksert stilling, blir den normale rotasjonsevne i nakken halvert. Vertebralisarteriene kan stå i fare for å bli kompromittert ved denne feilstillingen med hjernestammeinfarkt som følge (5). Feilstillingen vil videre føre til skjevbelastninger i andre deler av cervikalcolumna og derved bidra til degenerative forandringer (5). Barn med ubehandlet atlantoaksial rotasjonsfiksasjon vil ofte utvikle ansiktsasymmetri (2). Vår pasient 2 som gikk seks måneder uten adekvat behandling, kunne tre måneder postoperativt fortsatt ikke rotere nakken til høyre, og han hadde betydelig atrofi av nakkemuskulatur.



Figur 1 5 mm tykke CT-snitt i nivå med occipitalkondylene, atlas og axis. Koronale akser er tegnet inn. Bilde a, b og c viser en normal øvre cervikalcolumna hvor occiput, atlas og axis har sammenfallende akser. Bilde d, e og f viser pasient 1 hvor atlas er rotert ca. 15° i forhold til occiput og ca. 35° i motsatt retning i forhold til axis. Bilde g, h og i viser pasient 2 hvor occiput og atlas ligger i samme plan. Atlas er rotert ca. 35° i forhold til axis

ger ingen anatomiske studier eller obduksjonsundersøkelser som kan bekrefte eller avkrefte disse hypotesene.

Behandling

Hvis diagnosen stilles på et tidlig tidspunkt i sykdomsforløpet, bør det forsøkes reposisjon ved hjelp av skallestrekk og forsiktig manipulasjon (5, 8, 11). Hvis reposisjonen lykkes, bevares normalstillingen ved fortsatt strekk i halovest eller immobilisasjon i f.eks. stiv krage i inntil tre måneder (2, 5, 11). Tilbakefall er imidlertid ikke sjeldne etter denne behandlingen (2). Ved tilbakefall etter strekkbehandling og ved fiksasjoner som har stått lenge (over tre måneder?) bør man utføre operativ behandling (2). Operativ behandling er førstevalget når den atlantoaksiale fiksasjon er kombinert med atlantooccipital subluksasjon (7), og når det foreligger anterior eller posterior dislokasjon av atlas i forhold til axis (2). Preoperativt kan man legge skallestrekk i 2–3 uker for å oppnå så mye korreksjon av feilstillingen som mulig (2). Ved inngrepet gjør man bakre artrodese mellom atlas og axis. Ved samtidig atlantooccipital subluksasjon gjøres en artrodese mellom occipitalbeinet, atlas og axis. Postoperativt immobiliseres nakken med halskrage eller strekk inntil artrodesen er stabil. Det funksjonelle resultat er godt etter operasjonen hos de fleste (2, 5, 7, 11). Rotasjonsevnen blir redusert, men dette blir delvis kompensert ved økende bevegelighet i nedre del av cervikalcolumna, og pasientene opplever sjelden tapet av rotasjonsevne som plagsomt.

Hos våre to første pasienter gikk det henholdsvis én måned og seks måneder fra symptomstart til diagnosen ble stilt. Begge måtte opereres med artrodese i atlantoaksialleddet. Vår siste pasient fikk korrekt diagnose samme dag som symptomstart og kunne behandles med manuell reposisjon og temporær fiksasjon. Behandlingsresultatet vil sannsynligvis i betydelig grad avhenge av tidlig diagnose og behandling.

Konklusjon

Atlantoaksial rotasjonsfiksasjon er en tilstand hvor atlas låses i rotert stilling i forhold til axis. Lidelsen rammer særlig barn og unge voksne. Utløsende faktorer er hyppigst traumer og øvre luftveisinfeksjoner. Patogenesen er ukjent. En relativt typisk klinikk med torticollis uten spasme i m. sternocleidomastoideus bør gi mistanke om lidelsen. Diagnosen bekreftes enklest ved computertomografi av øvre cervikalcolumna. Behandlingen er skallestrekk, manuell reposisjon eller operativ fiksasjon.

Litteratur

1. Wortzman G, Dewar FP. Rotary fixation of the atlantoaxial joint: rotational atlantoaxial subluxation. Radiology 1968; 90: 955–67.
2. Fielding JW, Hawkins RJ. Atlanto-axial rotatory fixation. J Bone Joint Surg 1977; 59A: 37–44.
3. Rinaldi I, Mullins WJ jr, Delaney WF, Fitzer PM, Tornberg DN. Computerized tomographic demonstration of rotational atlanto-axial fixation. J Neurosurg 1979; 50: 115–9.
4. Dvorak J, Hayek J, Zehnder R. CT-functional diagnostics of the rotatory instability of the upper cervical spine, part 2. Spine 1987; 12: 726–31.
5. Burkus JK, Deponte RJ. Chronic atlantoaxial rotatory fixation correction by cervical traction, manipulation and bracing. J Pediatr Orthop 1986; 6: 631–5.
6. Fielding JW. Injuries of the upper cervical spine. Instr Course Lect 1987; 36: 483–94.
7. Clark CR, Kathol MH, Walsh T, El-Khoury GY. Atlantoaxial rotatory fixation with compensatory counter occipitoatlantal subluxation. Spine 1986; 11: 1048–50.
8. Ono K, Yonenobu K, Fuji T, Okada K. Atlantoaxial rotatory fixation, radiographic study of its mechanism. Spine 1985; 10: 602–8.
9. Kowalski HM, Cohen WA, Cooper P, Wisoff JH. Pitfalls in the CT diagnosis of atlantoaxial rotary subluxation. AJR Am J Roentgenol 1987; 149: 595–600.
10. Fielding JW, Stillwell WT, Chynn K York, Spyropoulos EC. Use of computed tomography for the diagnosis of atlanto-axial rotatory fixation. J Bone Joint Surg 1978; 60A: 1102–5.
11. El-Khoury GY, Clark CR, Gravett AW. Acute traumatic rotatory atlanto-axial dislocation in children. J Bone Joint Surg 1984; 66A: 774–7.

Bokanmeldelse

Sikkerhet i laboratoriet

Furr KA, red. **Handbook of laboratory safety.** 3. utg. 704 s, tab, ill. Boca Raton: CRC Press, 1990. Pris NOK 665

Denne tredje utgave av «Laboratorienes sikkerhetsbibel» inneholder dels nytt stoff, dels tilpasninger av tidligere omtalt stoff som følge av nye lover og regler. Særlig viktig er at miljøkravene nå etter hvert får gjennomslag også på dette området.

Boken gir en systematisk gjennomgang av mange viktige forhold som trenger oppmerksomhet ved driften av laboratorier. Innholdet er relevant for de fleste sykehus- og forskningslaboratorier ved norske helseinstitusjoner. Her finnes et vell av saksopplysninger sammen med en systematisk tekstomtale som inneholder mange nyttige vurderinger. Man vil finne mange praktiske råd og opplysninger om laboratoriedrift, både generelt og for en serie spesialformål. Likeledes er det en gjennomgang av (amerikanske) lover og regler på området med nærmere begrunnelser og kommentarer. Boken er skrevet av et bredt ekspertpanel og inneholder rikelig med referanser og mange nyttige tabeller.

Temaene dekker bl.a. ansvarsforholdene for de miljø- og sikkerhetsmessige sider ved arbeidet, nødprosedyrer, rømningsmuligheter, brannsikring, ventilasjonsinnretninger, krav til lagring m.m. Det er lagt vekt på personvernet for dem som har sin daglige arbeidsplass i slike omgivelser. Ansvarlig håndtering av løsemidler, radioaktive substanser, smittestoffer, modifisert genetisk materiale m.m. er nøye gjennomgått. Det samme gjelder krav og problemer knyttet til arbeid med forsøksdyr.

Selv en slik encyklopedi har visse ufullstendigheter. For eksempel mangler omtale av et eksperimentelt stoff som både er toksisk, karsinogent, mutagent – og attpåtil eksplosivt (!) – som brukes i norske kreftlaboratorier i dag. Slike glipp får man vel tåle. Verre er det at den sterkt tiltakende allergiutvikling blant laboratoriepersonell er omtalt altfor knapt. Dette må forbedres i senere utgaver av boken.

Disse innvendinger til tross, håndboker er svært innholdsrik og kan anbefales som et oppslagsverk i ethvert sykehus- og forskningslaboratorium. Særlig vil jeg anbefale boken for dem som skal planlegge og utruste nye laboratorielokaler, eller utvide/ombygge gamle lokaler.

Sikkerhetsspørsmål får nå økende oppmerksomhet, og det oppstår ofte diskusjoner om arbeidsoperasjoner man tror er farlig – og *hvor* farlig det egentlig måtte være. Derfor er behovet for faktiske opplysninger større enn noen gang. Det er også viktig at opplysningene er lett tilgjengelige. Denne håndboken anbefales derfor for hyllene på selve laboratoriet.

Jon Lekve