

·专题·小儿神经外科疾病·

儿童寰枢椎脱位的临床特征及手术疗效分析

薛兴森 储卫华 何光建 李 兰 冯 华 林江凯

【摘要】 目的 观察并分析后路复位内固定治疗儿童寰枢椎脱位的临床特征及手术疗效。 **方法** 以2010年9月至2017年12月陆军军医大学第一附属医院神经外科收治的18例明确诊断为寰枢椎脱位(2例齿状突骨折)儿童患者作为研究对象,其中男9例、女9例,年龄6~17岁,平均(13.17±3.48)岁;采取经后路复位螺钉-钛棒(板)系统内固定技术,于手术前后应用颅颈交界区CT薄层扫描及上颈椎CT三维重建测量寰齿间距(Atlantodens interval, ADI)、硬膜枕骨大孔线(Chamberlain's line, CL)和斜坡枕骨大孔线(McRae's line, ML)上距离,通过延髓脊髓角(Cervicomedullary angle, CMA)评价高位脊髓受压程度,采用日本骨科协会(Japanese Orthopedic Association Scores, JOA)评分标准评估颈脊髓神经功能改善程度;采用神经电生理学方法监测神经传导功能,系统分析经后路复位内固定术治疗儿童寰枢椎脱位术前、术后神经功能的改善情况及脱位复位、植骨融合的可行性。 **结果** 15例患儿随访18~100个月,平均(45.8±14.49)个月,失访3例。患儿寰椎侧块及枢椎椎弓根均能容纳3.5 mm钛钉,术中无椎动脉损伤、骨质裂开等情况,术后恢复较为理想,除个别出现颈椎活动受限外,无其他并发症。术前 ADI (3.86±2.71) mm, CL (10.05±6.55) mm, ML (2.17±4.48) mm, CMA (122.84±18.02)°, JOA (11.5±3.26); 术后 ADI (1.96±2.04) mm, CL (6.42±4.85) mm, ML (0.56±3.78) mm, CMA (128.29±17.8)°, JOA (15.44±1.46); 上述指标差异均有统计学意义($P<0.05$)。寰枢关节脱位13例完全复位,5例有不同程度复位;神经电生理检查结果均有明显改善,末次随访影像学检查示植骨区获得骨性融合,无内固定松动、断裂等情况出现。 **结论** 后路复位内固定治疗儿童寰枢椎脱位的疗效明确,远期预后较好。

【关键词】 寰枢椎脱位; 内固定; 外科手术; 儿童

【中图分类号】 R726 R651.1⁺1 R681.5⁺4

Clinical features and surgical results of atlantoaxial dislocation in children. Xue Xingsen, Chu Weihua, He Guangjian, Li Lan, Feng Hua, Lin Jiangkai. Department of Neurosurgery, First Affiliated Hospital, PLA Army Medical University, Institute of Neurosurgery, Chongqing 400038, China. Corresponding author: Lin Jiangkai, Email: jklin@tmmu.edu.cn

【Abstract】 Objective To explore the clinical features and surgical efficacies of posterior reduction and internal fixation for atlantoaxial dislocation in children. **Methods** Between September 2010 and December 2017, 18 children with a definite diagnosis of atlantoaxial dislocation (2 cases of odontoid fracture) were admitted successively. There were 9 boys and 9 girls with a mean age of 13.17 (6–17) years. Posterior reduction was applied with screw–titanium rod (plate) internal fixation. Computed tomography (CT) thin layer scanning and three–dimensional reconstruction measurements were performed pre– and postoperatively. Atlantodens interval (ADI), Chamberlain's line (CL), McRae's line (ML), cervicomedullary angle (CMA) were measured for evaluating the degree of spine cord compression. And Japanese Orthopedic Association Scores (JOA) scores were used for evaluating function curing and nerve electrophysiology for monitoring nerve conduction. **Results** Fifteen children were followed up for an average period of 45.83 (18–100) months. Three cases were lost to follow-ups. Lateral mass of atlas and axial pedicle of children may accommodate 3.5 mm titanium screws.

DOI:10.3969/j.issn.1671-6353.2019.09.004

基金项目: 重庆市技术创新与应用示范项目(编号: cstc2018jscx-msybX0092); 西南医院临床新技术重点项目(编号: SWH2016JSTS ZD-04, SWH2017ZDCX2010)

作者单位: 陆军军医大学第一附属医院神经外科(重庆市, 400038)

通信作者: 林江凯, Email: jklin@tmmu.edu.cn

No vertebral arterial injury or bone fracture occurred intraoperatively. Postoperative recovery was decent and there was only limited activity of cervical spine. And with preoperative ADI (3.86 ± 2.71) mm, CL (10.05 ± 6.55) mm, ML (2.17 ± 4.48) mm, CMA (122.84 ± 18.02)°, JOA (11.5 ± 3.26), postoperative ADI (1.96 ± 2.04) mm, CL (6.42 ± 4.85) mm, ML (0.56 ± 3.78) mm, CMA (128.29 ± 17.8)°, JOA (15.44 ± 1.46). The postoperative improvement was significantly better than that before surgery ($P < 0.05$). **Conclusion** Posterior reduction and internal fixation are efficacious for atlantoaxial dislocation in children and the long-term outcome is excellent.

【Key words】 Atlanto-axial Dislocation; Internal Fixator; Surgical Procedures, Operative; Child

儿童寰枢椎脱位多见于儿童上颈椎损伤,病因可分为外伤性和自发性。其中,外伤性寰枢椎脱位常伴有齿状突、椎弓根、椎板骨折及韧带撕裂损伤,而自发性寰枢椎脱位多伴有先天性畸形(如斜颈、小脑扁桃体下疝畸形、扁平颅底等)。因儿童骨质发育不成熟,除颅骨牵引外,手术仍是本病重要的治疗手段之一。陆军军医大学第一附属医院神经外科自2010年9月至2017年12月连续收治儿童寰枢椎脱位患者共18例,均采用经颈椎后路撑开复位螺钉内固定术进行治疗,并取得了理想的治疗效果,现报道如下。

材料与方法

一、一般资料

寰枢椎脱位患儿共18例,男9例,女9例;发病年龄6~17岁,平均(13.17 ± 3.48)岁,发病高峰年龄为11~14岁,病程1d至5年。18例中有2例为外伤后齿状突骨折,16例为先天性发育畸形(2例因癫痫起病、2例斜颈、1例脊柱侧弯、1例合并脑积水),无一例类风湿性关节炎。主要表现为进行性肢体麻木、乏力,逐渐呈脊髓压迫症状(表1、表2)。

表1 患儿入院时症状

临床症状	例数(%)
头、颈部疼痛	12(66.7)
四肢乏力瘫痪	5(27.8)
步态不稳	3(16.7)
语言障碍	1(5.6)

表2 患儿入院时体征

临床症状	例数(%)
双上肢感觉异常	6(33.3)
双上肢肌力异常	6(33.3)
双下肢感觉异常	4(22.2)
单侧肢体麻木	4(22.2)
肌张力异常	3(16.7)
双下肢肌力异常	2(11.1)
肌肉萎缩	2(11.1)
小便失禁	1(5.6)

水),无一例类风湿性关节炎。主要表现为进行性肢体麻木、乏力,逐渐呈脊髓压迫症状(表1、表2)。

二、辅助检查

(一)影像学表现

所有患儿入院后行颈椎过伸位、正中位、过屈位CT检查,同期行颅颈交界区CT血管成像(CTA)、CT薄层扫描(<2.00 mm)及三维重建检查(图1),发现齿状突明显向后上移位,并伴有脊髓受压、脑脊液循环不畅等征象(图1A);13例合并颅底凹陷伴寰枕融合(图1B),5例合并小脑扁桃体下疝畸形,6例合并脊髓空洞(图1C),4例合并C2-C3融合,1例合并梗阻性脑积水,1例合并先天性脊柱侧弯。

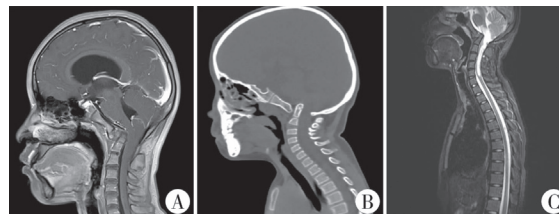


图1 A:矢状位MRI检查示脑积水;B:矢状位CT检查示颅底凹陷伴寰枕融合;C:矢状位MRI检查示脊髓严重受压、脊髓空洞

Fig.1 A: Sagittal MRI showed hydrocephalus; B: Sagittal CT showed basilar invagination with atlantooccipital fusion; C: Sagittal MRI showed severe spinal cord compression and syringomyelia

(二)神经电生理学检查

体感诱发电位(Somatosensory evoked potential SEP)检查结果显示8例双侧上肢N20、P25和N30潜伏期延长(提示神经传导受限),7例波幅降低(提示神经萎缩),11例波形分化不良;7例双侧下肢P40、N50和P60潜伏期延长,13例波幅降低,10例波形分化不良,见图2。

三、手术治疗

(一)操作步骤

2例术前颅骨牵引术患儿均行气管插管全身麻醉,采取俯卧位,头颈正中位并头架固定,术中无需颅骨外牵引。取枕颈后正中切口,逐层暴露枕骨鳞部、枢椎棘突、椎弓、寰椎后弓及枕骨大孔后缘;部分行枕骨大孔后缘减压松开头架,谨慎固定旋

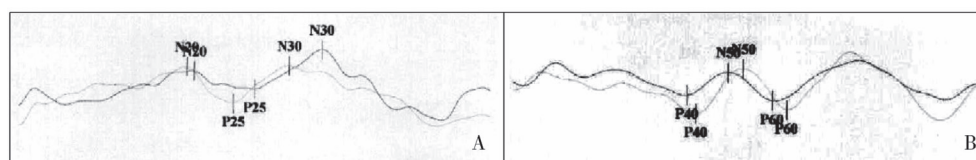


图2 A:正中神经 SEP; B:胫神经 SEP(P 为正向波, N 为负向波)

Fig. 2 A: Median nerve somatosensory evoked potential; B: Tibial nerve somatosensory evoked potential

钮,使头处于中立位(图3);根据术前预测的枢椎长度、厚度及角度(表3),用咬骨钳咬除枢椎(C2)部分棘突。经颈椎后路螺钉内固定后,应用钛钉、钛棒系统并植入螺钉,于枕骨植入钛片和螺钉进行固定,用撑开器缓慢撑开枢椎与枕骨,使齿突尽量向下、向前移位,直至不能撑开为止,表明齿突复位完全^[1-3];取单侧髂后上棘碎骨植入枕骨骨窗及植入物周围,适量生理盐水反复冲洗后逐层缝合,无需留置引流管。术中操作撑开复位及螺钉固定前后持续行神经电生理监测,提示肢体 SEP 异常波形、波幅明显改善,术后第3天在颈托支具保护下行早期康复训练。

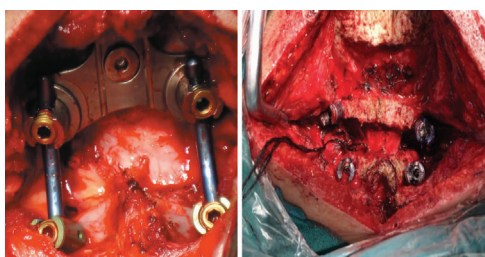


图3 术中暴露及固定情况

Fig. 3 Intraoperative exposure and fixation

表3 术前测量椎弓根、椎板、角度数据($\bar{x} \pm s$)

Table 3 Measurement data of pedicle, lamina and angle pre-operation($\bar{x} \pm s$)

变量	椎弓根		椎板	
	左侧	右侧	左侧	右侧
宽度(mm)	5.21 ± 0.76	5.20 ± 1.06	7.35 ± 1.14	6.97 ± 1.29
长度(mm)	30.26 ± 2.87	30.11 ± 4.00	35.32 ± 5.07	35.48 ± 3.65
进钉角度(°)	38.92 ± 5.10	40.6 ± 3.79	42.15 ± 3.29	46.46 ± 4.07

表4 经颈椎后路内固定术手术前后各项指标的比较($\bar{x} \pm s$)

Table 4 Comparison of data before and after posterior cervical internal fixation($\bar{x} \pm s$)

测量项目	例数	手术前	手术后	t 值	P 值
ADI(mm)	18	3.86 ± 2.71	1.96 ± 2.04	3.813	0.001
CL(mm)	18	10.05 ± 6.55	6.42 ± 4.85	4.923	<0.001
ML(mm)	18	2.17 ± 4.47	0.55 ± 3.78	4.836	<0.001
CMA(°)	18	122.84 ± 18	128.29 ± 17.8	-7.016	<0.001
JOA 评分	18	11.50 ± 3.26	15.44 ± 1.46	-6.937	<0.001

2. 临床神经功能评价

患儿分别于术后第3天、术后出院前及末次随访时复查上颈椎 CT 薄层扫描和 CT 三维重建,测量寰齿间距(ADI)、硬膜枕大孔线(CL)及斜坡枕大孔线(ML)上方距离,并观察齿状突复位程度、植骨后骨质融合情况;通过延髓脊髓角(CMA)评价脊髓压迫程度;采用日本骨科协会评分(JOA)方法评价脊髓型颈椎病患儿的神经功能^[6]。

四、统计分析方法

采用 SPSS18.0 进行数据分析。所有数据由一位参与手术者及一位未参与手术的神经外科医师测量后取平均值,计量资料以($\bar{x} \pm s$)表示,手术前后寰齿间距、硬膜枕大孔线、斜坡枕大孔线上方距离、延髓脊髓角及 JOA 评分等资料采用配对 t 检验进行对比分析。 $P < 0.05$ 为差异具有统计学意义。

结 果

患者术后症状均有所好转,四肢麻木、头颈部疼痛、肌力及肌张力、括约肌障碍等表现明显缓解甚至完全消失;8~12 周后 CT 或 MRI 检查结果见图4,可见植骨区骨性融合后外固定螺钉在椎体内的轨迹,提示脊髓受压程度明显缓解,固定满意无移位。18 例中,15 例随访 18~100 个月,平均为(45.8 ± 14.49)个月,余 3 例失访。与手术前 ADI、CL、ML、CMA 及 JOA 评分等测量数据相比,随访人员症状较术前明显改善,且手术前后差异均具有统计学意义($P < 0.05$),见表4。术后四肢体感诱发电位复查可见潜伏期缩短,波幅增大。随访发现患儿后续的生活质量均较理想,螺钉植骨区均获得充分骨性融合。

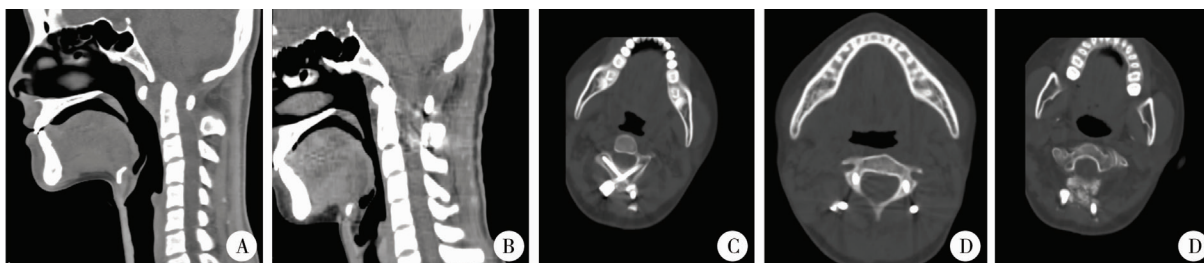


图4 A:术前CT矢状位:示寰齿间距分离;B:术后CT矢状位:示寰齿间距缩小;C:椎板螺钉轨迹;D:椎弓根螺钉轨迹;E:骨质愈合情况:示骨性结构形成

Fig.4 A: preoperative CT sagittal position; ADI separation; B: postoperative CT sagittal position; ADI reduced; C: Laminar screw trajectory; D: Pedicle screw trajectory; E: Healing of bone graft; Bone regeneration

讨论

儿童上颈椎创伤相对于成人较为罕见,但致残率、致死率极高,而寰枢椎骨折或脱位为上颈椎创伤的常见病种。其中外伤、先天性发育畸形、类风湿关节炎均可导致寰枢关节超负荷和旋转的不稳定,严重者可出现高位脊髓损伤,甚至危及生命。可与颈椎病(多见于中老年人,由颈椎椎间盘变性、骨质增生和韧带肥厚等原因所致,出现颈神经根、颈脊髓、椎动脉、颈交感神经受压等一系列症状体征)、强直性脊柱炎(主要为脊柱受累,但约有1/3患者可影响周围关节)、颈椎间盘突出(病人多有明显的头颈部外伤史,伤后即出现症状)、颈髓脊髓炎(可见于任何年龄,病人常有发热史或感染史,在此基础上逐渐发病,病程较长,病情时好时坏)、后纵韧带钙化(本病好发于颈椎,病人后纵韧带增厚和钙化)等疾病相鉴别。儿童寰枢椎的发育尚未成熟,关节发育未定型,可出现强迫头位(如“鹅颈征”)[4];重物挤压或轻微碰撞可导致关节脱位,合并C2、C3融合者更易发生寰枢关节脱位[5]。如引起偏瘫、行走不稳、肌肉萎缩等严重的神经功能障碍,需接受手术治疗[6,7];Anderson分型Ⅱ型骨折如单纯采用保守治疗的方法,其不愈合率可达85%[8],后续仍需接受手术治疗。因此,手术为治疗患儿寰枢椎脱位的重要治疗手段,因该位置位于延髓及高位颈髓交界区,可能导致高位截瘫、呼吸困难等严重后果,因此属于神经外科高难度、高风险手术。针对齿状突脱位的手术治疗,手术入路的选择仍存在争议。既往曾有关于经前路齿状突磨除术的报道[9],在解除局部骨质结构及异常韧带对高位脊髓的压迫后,术后症状可暂时缓解,但术中视野显露困难,手术时间相对较长,可影响短期内进食,还可引起感染、脑脊液漏、构音障碍等并发

症,影响关节的稳定性[10],目前亦有改进后的经口寰枢椎复位内固定手术[11]。上颈椎后路手术方式包括寰枢椎侧块植骨缆绳关节融合固定术(Gallie)[12]、后路寰枢椎双侧椎板钛缆绳关节融合固定术(Brooks)[13],二者均为间接固定齿突后脱位的经典手术方法。因缺乏持久的外固定支持,术后有可能导致缆绳滑脱、骨质磨损断裂等一系列严重的并发症。近年来,随着影像诊断技术的发展及经颈椎后路内固定器械的改进,钉棒系统内固定技术越来越受到重视。儿童发育尚不成熟,骨皮质结构纤细,个体间形态变异大,手术难度大,风险高,低龄儿童不仅C1、C2结构发育不良,多数患儿伴寰枕融合,约15%的患儿存在椎动脉走行异常,存在椎动脉损伤的可能性,可采取切除枕骨大孔后局部减压,完成钉棒置入;术中调整患者头位于中立位,完成颈枕或寰枢椎内固定,为维持颅颈交界区稳定,需取自体髂骨行骨质、枕颈或寰枢椎融合,因此植骨融合在保证上颈椎的稳定性的过程中起重要作用。鉴于此,我们对儿童寰枢椎脱位一期后路复位钉棒固定技术的治疗效果进行了评估,通过术前对患儿手术方案的回顾,制定个性化的手术策略,仔细查体,记录肢体肌电图,并通过上颈椎MRI了解齿状突对脊髓腹侧的压迫程度,同时完善头颈部CTA、薄层扫描及三维重建检查,查看齿状突骨性前后、左右方向的移位程度,通过其冠状位或横断面图像清晰地观察双侧椎动脉经过横突孔穿出的走行和棘突全貌,并以此来评估椎弓根、椎板宽度、厚度、进钉角度。手术取正中俯卧位,充分暴露视野后,按照术前模拟执行的固定角度,再次选取不同长度的螺钉,于直视下保证正确的进钉点及角度,确定植入的钛钉位于椎弓根或椎板内,从而保护椎动脉,并做到术前、术中、术后神经电生理学的持续监测。本组病例中,2例齿状突骨折及1例齿状突游离小体复位完全;针对合并小脑扁桃体下疝畸形患

儿,可考虑行枕骨大孔后缘减压后再行椎弓根或椎板螺钉固定。本组中无一例发生硬膜漏、脊髓、神经根和椎动脉损伤等并发症;术后复查上颈椎CT示齿状突较术前明显恢复,末次随访复查CT示固定满意并融合稳定,未发生螺钉拔出、骨质劈裂、内固定松动。术后及随访过程中神经电生理复查四肢SEP潜伏期较术前缩短、波幅增大。颈枕融合后患者短期内颈部活动角度会不同程度受限。目前患者随访最长时间为8年4个月,平均随访近4年,随访效果总体较好,大部分患者仍为在校学生,部分患者已成年,生活质量无影响,螺钉植骨区均获得充分骨性融合。

综上所述,经后路置钉术式治疗儿童寰枢椎脱位创伤小,疗效较为肯定,但需要严格遵循术式适应证,具体包括:①寰枢椎脱位由先天性发育异常或创伤引起;②经保守治疗效果不佳;③齿状突假关节形成。除寰枢椎骨质结构发育畸形外,6岁以上儿童均可应用3.5 mm螺钉进行治疗,根据术者的熟练程度和习惯,于直视下完成整个术程,病情缓解迅速;同时,经后路置钉术作为更加灵活、精确的个体化治疗方案,有望得到更广泛的应用和推广。此外,长期随访结果是检验该术式治疗效果的重要依据,就目前的随访结果来看该术式治疗效果总体良好。

参考文献

- Kim SH, Shin DA, Yi S, et al. Early results from posterior cervical fusion with a screw-rod system[J]. Yonsei Med J, 2007, 48(3): 440-448. DOI: 10.3349/ymj. 2007. 48. 3. 440.
- Wang C, Yan M, Zhou HT, et al. Atlantoaxial transarticular screw fixation with morselized autograft and without additional internal fixation-Technical description and report of 57 cases[J]. Spine (Phila Pa 1976), 2007, 32(6): 643-646. DOI: 10.1097/01.brs.0000257539.75693.cc.
- Ai FZ, Yin QS, Xu DC, et al. Transoral atlantoaxial reduction plate internal fixation with transoral transpedicular or articular mass screw of c2 for the treatment of irreducible atlantoaxial dislocation: two case reports[J]. Spine (Phila Pa 1976), 2011, 36(8): E556-E562. DOI: 10.1097/BRS.0b013e3181f57191.
- Visocchi M, Pietrini D, Tufo TA, et al. Pre-operative irreducible C1-C2 dislocations: intra-operative reduction and posterior fixation. The "always posterior strategy"[J]. Acta Neurochir (Wien), 2009, 151(5): 551-560. DOI: 10.1007/s00701-009-0271-z.
- Gholive PA, Hosalkar HS, Ricchetti ET, et al. Occipitalization of the Atlas in children-Morphologic classification, associations, and clinical relevance[J]. Journal of Bone and Joint Surgery-American Volume, 2007, 89A(3): 571-578. DOI: 10.2106/JBJS.F.00527.
- Hukuda S, Mochizuki T, Ogata M, et al. Operations for cervical spondylotic myelopathy: A comparison of the results of anterior and posterior procedures[J]. J Bone Joint Surg (Br), 1985, 67B: 609-615.
- 倪斌, 贾连顺, 李家顺, 等. 小儿严重寰枢椎不稳的手术治疗[J]. 中华小儿外科杂志, 2001, 22(2): 101-103. DOI: 10.3760/cma.j.issn.0253-3006.2001.02.013.
- Ni B, Jia LS, Li JS, et al. Surgical treatment of the children with serious atlantoaxial instability[J]. Chinese Journal of Pediatric Surgery, 2001, 22(2): 101-103. DOI: 10.3760/cma.j.issn.0253-3006.2001.02.013.
- Kepler CK, Vaccaro AR, Dibra FA, et al. Neurologic injury because of trauma after Type II odontoid nonunion[J]. Spine Journal, 2014, 14(6): 903-908. DOI: 10.1016/j.spinee.2013.07.443.
- Goel A. Progressive basilar invagination after transoral odontoidectomy: treatment by atlantoaxial facet distraction and craniovertebral realignment[J]. Spine (Phila Pa 1976), 2005, 30(18): E551-E555. DOI: 10.1097/01.brs.0000179414.64741.7b.
- Menezes AH, Vangilder JC. Transoral-transpharyngeal approach to the anterior cranio cervical junction. Ten-year experience with 72 patients[J]. J Neurosurg, 1988, 69(6): 895-903. DOI: 10.3171/jns.1988.69.6.0895.
- Yin QS, Ai FZ, Zhang K, et al. Transoral atlantoaxial reduction plate internal fixation for the treatment of irreducible atlantoaxial dislocation: a 2-to 4-year follow-up[J]. Orthop Surg, 2010, 2(2): 1757-7861. DOI: 10.1111/j.1757-7861.2010.00077.x.
- Gallie WE. skeletal traction in the treatment of fractures and dislocations of the cervical spine[J]. Ann Surg, 1937, 106(4): 770-776.
- Brooks AL, Jenkins EB. Atlanto-axial arthrodesis by the wedge compression method[J]. J Bone Joint Surg Am, 1978, 60(3): 279-284.

(收稿日期:2019-06-15)

本文引用格式:薛兴森, 储卫华, 何光建, 等. 儿童寰枢椎脱位的临床特征及手术疗效分析[J]. 临床小儿外科杂志, 2019, 18(9): 728-732. DOI: 10.3969/j.issn.1671-6353.2019.09.004.

Citing this article as: Xue XS, Chu WH, He GJ, et al. Clinical features and surgical results of atlantoaxial dislocation in children[J]. J Clin Ped Sur, 2019, 18(9): 728-732. DOI: 10.3969/j.issn.1671-6353.2019.09.004.