

· 专题 · 儿童颈椎畸形的治疗 ·

儿童寰枢关节旋转固定性脱位中寰枢与寰枕旋转分离角特征分析



全文二维码

兰麒麟^{1,2} 周星语^{1,2} 闫明^{1,3,4} 王圣林^{1,3,4} 田英轮^{1,3,4} 许南方^{1,3,4}¹ 北京大学第三医院骨科,北京 100191; ² 北京大学医学部,北京 100191; ³ 骨与关节精准医学工程研究中心,北京 100191; ⁴ 脊柱疾病研究北京市重点实验室,北京 100191

通信作者:许南方,Email:xunanfang@foxmail.com

【摘要】 目的 分析寰枢关节旋转固定性脱位(atlanto-axial rotatory dislocation, AARD)患儿的 CT 数据,探讨 AARD 患儿寰枢和寰枕旋转分离角的特征。**方法** 本研究为回顾性研究,以 2016 年 6 月至 2023 年 6 月在北京大学第三医院骨科就诊并接受手术治疗的 19 例 AARD 患儿为研究对象,收集患儿术前 CT 影像、术前诊断、年龄、性别等临床资料。以双下颌支后缘连线代表枕骨实时位置,寰椎横突连线代表寰椎实时位置,枢椎椎体后缘平行线代表枢椎实时位置,测量寰枢旋转分离角(rotated separation angle of atlanto-axial joint, C1C2)、寰枕旋转分离角(rotated separation angle of occipito-atlantal joint, OcC1)以及枕枢旋转分离角(rotated separation angle of occipito-axial joint, OcC2)。以寰椎相对枢椎的旋转方向为正,根据寰枕关节旋转是否在儿童生理旋转范围内,将所有患儿分为 OcC1 绝对值($|OcC1|$)≤3°组($n=9$)和 $|OcC1|>3$ °组($n=10$),采用线性回归分析法计算各组 OcC1 的预测方程。**结果** 19 例 AARD 患儿年龄(10.12 ± 0.55)岁,病程中位数 7 个月;C1C2、OcC2 分别为(24.5 ± 2.9)°, (15.3 ± 1.4)°;OcC1 为 $-1.3(-14.4, 0.9)$ °。OcC1 与 C1C2 呈显著负相关($r = -0.704, P < 0.001$),OcC2 与 C1C2 呈显著正相关($r = 0.602, P = 0.006$),OcC1 与 OcC2 的相关性不显著($r = -0.033, P = 0.892$)。 $|OcC1| \leq 3$ °组和 $|OcC1| > 3$ °组的 C1C2 分别为(14.7 ± 9.9)°和(30.8 ± 14.0)°,差异有统计学意义($P = 0.011$);而两组间 OcC2 的差异无统计学意义($P = 0.719$)。分组对 OcC1 与 C1C2、OcC2 与 C1C2 进行回归分析,发现 $|OcC1| > 3$ °组的 OcC1 与 C1C2($OcC1 = -0.79 \times C1C2 + 10.44, R^2 = 0.823, P < 0.001$)以及 $|OcC1| \leq 3$ °组的 OcC2 与 C1C2($OcC2 = 0.95 \times C1C2 + 1.09, R^2 = 0.987, P < 0.001$)线性拟合程度较高。**结论** 寰枕关节代偿角度与寰枢关节的旋转程度成正比;当 AARD 患者寰枢旋转分离角大于临界值(20.8°)时,其寰枕关节才可能开始反向旋转代偿寰枢关节的旋转移位。

【关键词】 寰枢关节; 先天畸形; 外科手术; 儿童; 脱位**基金项目:** 北京大学第三医院队列建设项目(BYSYDL202106)

DOI:10.3760/cma.j.cn101785-202307018-003

Characteristics of rotated separation angle of atlanto-axial and occipito-atlantal joint in atlantoaxial rotatory dislocation in children

Lan Qifeng^{1,2}, Zhou Xingyu^{1,2}, Yan Ming^{1,3,4}, Wang Shenglin^{1,3,4}, Tian Yinglun^{1,3,4}, Xu Nanfang^{1,3,4}¹ Department of Orthopedics, Peking University Third Hospital, Beijing 100191, China; ² Department of Orthopedics, Peking University Third Hospital, Beijing 100191, China; ³ Engineering Research Center of Bone & Joint Precision Medicine, Beijing 100191, China; ⁴ Beijing Key Laboratory of Spinal Disease Research, Beijing 100191, China

Corresponding author: Xu Nanfang, Email:xunanfang@foxmail.com

[Abstract] **Objective** To acquire the computed tomography (CT) data of children with atlanto-axial rotatory dislocation (AARD) and explore the characteristics of rotated separation angles of atlanto-axial and occipito-atlantal joints in AARD children. **Methods** For this retrospective study, 19 AARD children hospitalized were selected as subjects at Department of Orthopedics of Peking University Third Hospital from June 2016 to June 2023. Preoperative CT images, preoperative diagnosis, age, gender and other clinical data were collected. The line connecting posterior edges of bilateral mandibular supports was utilized for representing real-time posi-

tion of occipital bone, line connecting transverse processes of atlas real-time position of atlas and parallel line of posterior edge of axis body real-time position of axis. Rotated separation angle of atlanto-axial joint (C1C2), rotated separation angle of occipito-atlantal joint (OcC1) and rotated separation angle of occipito-axial joint (OcC2) were measured. With rotation direction of atlas relative to axis as positive, they were assigned into two groups of $|OcC1| \leq 3^\circ$ ($n=9$) and $|OcC1| > 3^\circ$ ($n=10$) according to whether or not rotation of occipito-atlantal joint was within a physiological rotation range. The inter-group differences in other rotated separation angles were also examined. Linear regression analysis was performed for calculating the prediction equations for OcC1. SPSS 27.0 was employed for statistical analysis. **Results** A total of 19 AARD children aged (10.12 ± 0.55) years had a median disease course of 7 months. C1C2 and OcC2 were $(24.5 \pm 2.9)^\circ$ and $(15.3 \pm 1.4)^\circ$ respectively; OcC1 was -1.3° ($-14.4^\circ, 0.9^\circ$). OcC1 was significantly correlated negatively with C1C2 ($r = -0.704, P < 0.001$), OcC2 significantly correlated positively with C1C2 ($r = 0.602, P = 0.006$) and no significant correlation existed between OcC1 and OcC2 ($r = -0.033, P = 0.892$). C1C2 values for $|OcC1|$ ($r =$ and $|OcC1| > 3^\circ$ groups were (14.73 ± 3.08) and $(30.8.73 \pm 3.73)$ respectively, with a statistically significant difference ($P = 0.011$); no statistically significant difference existed in OcC2 ($P = 0.719$). Regression analysis was performed for OcC1 vs C1C2 and OcC2 vs C1C2 and $|OcC1| > 3^\circ$ group had a high degree of linear fit between OcC1 and C1C2 ($OcC1 = -0.79 \times C1C2 + 10.44, R^2 = 0.823, P < 0.001$) as well as $|OcC1|$ of linear fit between OcC1 and C1C2 ($OcC1 = 0.95 \times C1C2 + 1.09, R^2 = 0.987, P < 0.001$). **Conclusions** The compensatory Angle of atlanto-occipital joint is proportional to the rotation degree of atlanto-axial joint. When the atlantoaxial rotation separation Angle of AARD patients is greater than the critical value (20.8°), the atlantooccipital joint may begin to reverse rotation to compensate for the rotational displacement of the atlantoaxial joint.

【Key words】 Atlanto-Axial Joint; Congenital Abnormalities; Surgical Procedures, Operative; Child; Dislocations

Fund program: Clinical Cohort Study of Peking University Third Hospital (BYSYDL202106)

DOI:10.3760/cma.j.cn101785-202307018-003

寰枢关节旋转固定性脱位(atlanto-axial rotatory dislocation, AARD)属于寰枢关节旋转固定或脱位(atlanto-axial rotatory fixation or dislocation, AARF/D)的一类,好发于儿童,以头部歪斜、颈部疼痛、颈椎活动受限为主要临床表现,其病因包括口咽或上呼吸道感染、颈部轻微扭伤或撞伤以及头颈部手术^[1]。AARF/D 均存在寰枕关节反向旋转移位代偿寰枢关节旋转移位的情况^[2-3]。早期可表现为寰枕关节松弛和过度旋转,随着病程延长,寰枕关节旋转角度将进一步增大,出现旋转固定;当寰枕关节代偿过度,甚至可能导致寰枕关节脱位(atlanto-occipital dislocation, AOD),发展为枕寰枢关节旋转脱位(occipito-atlanto-axial rotatory dislocation, OAARD)^[2-7]。本研究通过分析 AARD 患儿寰枢以及寰枕的旋转分离角特征,对寰枕关节代偿角度与寰枢关节旋转程度的关系进行验证,并进一步针对 AARD 患者在不同寰枢关节旋转移位程度下的寰枕关节代偿情况进行定量分析。

资料与方法

一、研究对象

本研究为回顾性研究,以2016年6月至2023年6月在北京大学第三医院骨科就诊并接受手术的19例AARD患儿为研究对象,收集患儿术前CT影像、术前诊断、年龄、性别以及病程等临床资料。共纳入19例AARD患儿,男10例、女9例,寰椎相对枢椎向左旋转13例、向右旋转6例,年龄(10.12 ± 0.55)岁,病程2~132个月(中位数7个月)。C1C2、OcC2 分别为 $(24.5 \pm 2.9)^\circ$ 和 $(15.3 \pm 1.4)^\circ$; OcC1 为 -1.3° ($-14.4^\circ, 0.9^\circ$)。

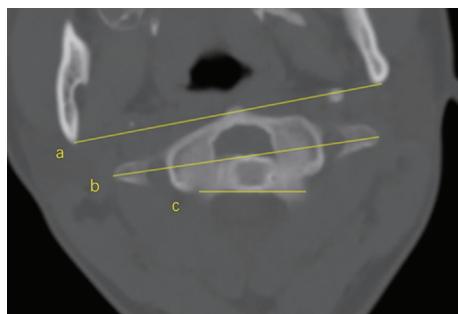
病例纳入标准:①具有头部歪斜、颈部疼痛、颈椎活动受限中的一个或多个临床表现;②影像学资料确诊寰枢关节旋转固定性脱位;③年龄3~16岁。排除标准:①无术前CT检查影像;②CT检查未覆盖寰枢椎以及颅底区域;③寰枢关节手术史;④其他原因所致的寰枢关节不稳定或脱位,如颈椎区创伤性骨折脱位、感染或肿瘤。本研究经北京大学第三医院伦理委员会审核批准(M2022822),患儿

家属均知情同意并签署知情同意书。

二、测量方法

1. CT 测量方法 患者平躺于 CT 台, 双肩贴于台面, 颈椎呈自然位, 行轴位寰枢椎或颈部扫描。

2. 旋转分离角测量方法 以双下颌支后缘连线代替枕骨的实时位置, 寰椎横突连线代表寰椎实时位置, 枢椎椎体后缘平行线代表枢椎实时位置。在北京大学第三医院 PACS 系统上测量寰枢旋转分离角 (rotated separation angle of atlanto-axial joint, C1C2) 与寰枕旋转分离角 (rotated separation angle of occipito-atlantal joint, OcC1)。未能在同一 CT 切面中找到寰椎和枢椎时则通过测量枕枢旋转分离角 (rotated separation angle of occipito-axial joint, OcC2), 并通过 $OcC1 + C1C2 = OcC2$ 计算得到 C1C2。寰枢旋转分离角, 在其他文献中也被称为寰枢椎相对旋转角度 (rotating angle of atlas on dentate, RAAD)^[8-9]。



注 直线 a、b、c 分别代表枕骨、寰椎、枢椎的实时位置

图 1 寰枢关节旋转固定性脱位患者头颈 CT 旋转分离角测量方法示意图

Fig. 1 Measurements for rotated separation angle of cranial CT in AARD children

三、统计学处理

采用 SPSS 27.0 进行统计学分析。为了更好地利用数据并分析角度特征, 本研究以寰椎相对枢椎的旋转方向为正(即在每个病例中以 C1C2 为正值, 对 OcC1、OcC2 的正负号进行相应处理)。服从正态分布的计量资料以 $\bar{x} \pm s$ 表示, 非正态分布的计量资料以 $M(Q_1, Q_3)$ 表示。相关性分析根据变量是否服从正态分布, 分别采用 Pearson 或 Spearman 相关。根据寰枕关节旋转是否在儿童生理旋转范围内, 将所有患儿分为 OcC1 绝对值 ($|OcC1|$) $\leq 3^\circ$ 组 ($n = 9$) 和 $|OcC1| > 3^\circ$ 组 ($n = 10$); 采用两独立样本 t 检验对比 $|OcC1| \leq 3^\circ$ 组和 $|OcC1| > 3^\circ$ 组之间 C1C2、OcC2 的差异^[10]; 采用线性回归对不同旋转分离角之间的变化特征进行分析。 $P < 0.05$ 为差异有统计学意义。

结 果

一、整体相关性

对 OcC1、C1C2、OcC2 两两之间进行相关性分析, 结果显示 OcC1 与 C1C2 呈显著负相关 ($P < 0.001$), OcC2 与 C1C2 呈显著正相关 ($P = 0.006$), 而 OcC1 与 OcC2 的相关性不显著 ($P = 0.892$), 见表 1。线性回归方程: $OcC1 = -0.66 \times C1C2 + 8.24$ ($R^2 = 0.727, P < 0.001$), $OcC2 = 0.32 \times C1C2 + 8.25$ ($R^2 = 0.362, P = 0.006$)。

表 1 19 例寰枢关节旋转固定性脱位患者寰枢旋转分离角、寰枕旋转分离角、枕枢旋转分离角之间的相关性

Table 1 Correlations between rotated separation angle of occipito-atlantal joint (OcC1), rotated separation angle of occipito-axial joint (OcC2) and rotated separation angle of atlanto-axial joint (C1C2) in 19AARD children

变量	相关系数	P 值
OcC1 (°) – C1C2 (°)	-0.704 ^a	<0.001
OcC2 (°) – C1C2 (°)	0.602 ^b	0.006
OcC1 (°) – OcC2 (°)	-0.033 ^a	0.892

注 ^a: Spearman 相关系数; ^b: Pearson 相关系数; C1C2: 寰枢旋转分离角; OcC1: 寰枕旋转分离角; OcC2: 枕枢旋转分离角

二、不同 OcC1 分组的差异

$|OcC1| \leq 3^\circ$ 组与 $|OcC1| > 3^\circ$ 组之间的 C1C2 差异有统计学意义 ($P = 0.011$), OcC2 差异无统计学意义 ($P = 0.719$); 见表 2。

分组对 OcC1 与 C1C2、OcC2 与 C1C2 进行回归分析, $|OcC1| > 3^\circ$ 组的 OcC1 与 C1C2 线性回归方程 ($OcC1 = -0.79 \times C1C2 + 10.44, R^2 = 0.823, P < 0.001$) 以及 $|OcC1| \leq 3^\circ$ 组的 OcC2 与 C1C2 线性回归方程 ($OcC2 = 0.95 \times C1C2 + 1.09, R^2 = 0.987, P < 0.001$) 拟合程度均较高; 见图 2。

讨 论

AARF/D 在其他文献中也被称为寰枢旋转半脱位 (atlanto-axial rotatory subluxation, AARS)、寰枢旋转畸形以及寰枢旋转移位^[11-14]。Fielding 等^[15]最早于 1977 年根据寰椎侧块脱位情况以及寰齿前间隙 (atlas-dens interval, ADI) 是否大于 5 mm 将 AARD 分为四类。Pang 等^[16]于 2005 年根据患者病程和解除“铰锁”的难易程度对寰枢关节旋转固定 (atlanto-axial rotatory fixation, AARF) 提出了新的分类。北京大学第三医院闫明等^[1]根据此类疾病的共同发病机制、临床特征以及逐渐发展加重的关系将其统称

通常由寰枕关节松弛度增大所致。但是有其他学者认为,AARF 患者中的代偿性寰枕关节反向旋转出现于亚急性期,晚期寰枕关节反向旋转的程度进一步增大,枕骨的朝向往往与枢椎及下颈椎一致^[4]。Pang 等^[2]还通过计算从 AARF 患者急性期到慢性期 OcC1 与枕骨朝向角变化值的比值,得出寰枕关节代偿占总代偿的 60%~70%,下颈椎代偿仅占总代偿的 30%~40%。由于 AARF 病例的寰枢关节旋转角度普遍较大,该研究纳入的病例自然状态下的 C1C2 范围在 25°~49°,未讨论 C1C2 小于 25° 的情况。

闫明等^[3]通过研究 3 例 AARF 患者、36 例 AARD 患者以及 1 例 OAARD 患者寰枕旋转分离角与寰枢旋转分离角的关系,发现寰枕关节的反向旋转移位程度与寰枢关节旋转的程度成正比,相关性大小顺序为 OAARD > AARD > AARF,其中 AARD 中仅一侧寰椎侧块前脱位、另一侧后脱位的这一类型,由于寰枢旋转分离程度较大,存在寰枕关节代偿现象,而 AARD 中其他寰椎侧块脱位情况(如一侧寰椎侧块前脱位、另一侧原位以及双侧寰椎侧块不对称前脱位)则未发现寰枕关节代偿;个别 AARD 患者还存在寰枕关节自发融合的现象。但该研究未对寰枕关节代偿与寰枢关节旋转分离正相关的大小进一步定量分析。OAARD 较罕见,但许多文献报道 OAARD 存在巨大的寰枕关节代偿,寰枕旋转分离角与寰枢旋转分离角的比值在 62%~90%^[1,5~7,17~18]。寰枕关节反向旋转位移逐渐增加,由枕骨髁骑跨在寰椎侧块关节面边缘发展到完全脱位,以此来代偿巨大的寰枢关节旋转。枕骨髁-寰椎间隙(condyle-C1 interval, CCI)已被提议作为 AOD 的一种诊断方法,具有高灵敏度、特异度^[19]。CCI 直接反映寰枕关节完整性,正常儿童的 CCI 应小于 2 mm,且不会随着年龄增长发生显著变化(从出生到 18 岁)^[20]。

本文探究了 AARD 患者在不同寰枢关节旋转移位下寰枕关节的代偿情况。C1C2 与 OcC1 在 $|OcC1| \leq 3^\circ$ 组和 $|OcC1| > 3^\circ$ 组中呈现不同的变化规律。在 $|OcC1| \leq 3^\circ$ 组中,C1C2 的 95% 置信区间是 0°~20.8°,此时 OcC1 在横轴上下波动,呈现一个“平台”;C1C2 与 OcC2 回归模型中的斜率接近于 1 同样佐证了这一规律(图 2)。 $|OcC1| > 3^\circ$ 组中,随着 C1C2 的增大,OcC1 往相反的方向代偿增大,回归方程为 $OcC1 = -0.79 \times C1C2 + 10.44 (R^2 = 0.823, P < 0.001)$ 。回归直线不经过原点,说明当

C1C2 大于 20.8° 时寰枕关节开始代偿:随着寰椎和枢椎旋转分离程度的增大,寰枕关节先是保持相对固定,在生理性的分离角度内活动,不发生代偿;寰枢关节分离程度逐渐增大,当其超过临界值(20.8°)后,寰枕关节的代偿机制启动,且 OcC1 仅对 C1C2 旋转分离超出临界值的部分进行代偿。这一结果验证了闫明等^[3]报道的“AARD 中寰枕关节的反向旋转移位程度与寰枢关节旋转程度成正比”这一观点,并进一步得出寰枕关节代偿在寰枢关节旋转位移大于 20.8° 时开始出现。

$|OcC1| > 3^\circ$ 组线性回归模型的斜率(0.79)提示,当寰枢旋转角度超过临界值,寰枢旋转分离角每增加 1°,寰枕关节反向旋转增加 0.79°,大致说明 AARD 中寰枕关节的反向代偿占所有因素对寰枢关节旋转总代偿的 79%。Pang 等^[2]研究 AARF 患者得出这一比例为 60%~70%,这种差异可能与研究对象和研究方法的不同有关。 $|OcC1| \leq 3^\circ$ 组的单侧 95% 置信区间的上限(20.85°)与 $|OcC1| > 3^\circ$ 组的 95% 置信区间的下限(20.77°)较接近,坐标轴横轴在 20° 左右散点图出现拐点,提示这一临界角度(20.8°)很有可能是代偿的起点,但目前这一角度尚无文献报道,值得我们关注。

本研究结果为临床医生提供了 AARD 患者晚期寰枕关节代偿情况的预测模型。临床医生可以通过轴位 CT 测量 AARD 患者的寰枢旋转分离角,若小于 20.8° 则不太可能发生病理性寰枕关节代偿;若大于 20.8° 则可参考线性方程 $OcC1 = -0.79 \times C1C2 + 10.44$ 计算晚期寰枕关节代偿角度。在临界值以内,寰枕关节代偿不明显的原因可能是此时视轴歪斜的程度不高,儿童更可能通过其他途径(如转动眼球或下颈椎反向旋转)代偿,而不是通过收紧胸锁乳突肌转动头部。本研究的局限性在于样本量相对较小,亦未进行预测方程的验证,研究未关注病例的术后转归,且具体机制未探清,这些有待进一步研究。

综上,本文通过 19 例 AARD 患者的 CT 数据,验证了寰枕关节代偿角度与寰枢关节的旋转程度成正比;当 AARD 患者寰枢旋转分离角大于临界值(20.8°)时,其寰枕关节才可能开始反向旋转代偿寰枢关节的旋转移位。

利益冲突 所有作者声明不存在利益冲突

作者贡献声明 文献检索为兰麒锋、闫明、许南方,数据收集与分析为兰麒锋、王圣林、周星语,论文结果撰写为兰麒锋、周星语、许南方,论文讨论分析为兰麒锋、闫明、王圣林

