

## **Subluxação rotatória atlantoaxial associada a espondilolistese traumática do Axis: Relato de caso e revisão da literatura**

**Introdução:** As lesões traumáticas da *pars articularis* do Áxis, denominadas espondilolistese traumática do Áxis correspondem a 4-7% de todas as fraturas da coluna cervical e são causadas por uma combinação de mecanismos que incluem compressão, rotação, extensão e, possivelmente, distração. A associação desta com a subluxação rotatória C1-C2 é extremamente rara, sendo que os autores encontraram apenas 2 casos descrito na literatura até o presente momento. Em virtude disso, não há um sistema de classificação que engloba ambos tipos de lesão ou mesmo diretrizes que guiam a abordagem terapêutica.

**Relato de Caso:** Uma paciente de 23 anos apresentou-se ao serviço de emergência de um hospital de alta complexidade após trauma contra trem de metrô. Radiografias e tomografias iniciais segundo o protocolo ATLS evidenciaram espondilolistese traumática do Áxis associada a subluxação rotatória atlantoaxial. A abordagem inicial consistiu na instalação do halo craniano com tração progressiva para redução da fratura. Entretanto, ao iniciar a tração, verificou-se aumento no desvio da fratura da *pars articularis* de C2, denotando um mecanismo de distração. Assim, foi optado pela redução aberta e artrodese de C1 a C3 via posterior.

**Conclusões:** A raridade desta combinação de fraturas dificulta o direcionamento para abordagem terapêutica mais adequada. A associação de ambas foi fator de confusão para interpretação e correta classificação do padrão da fratura de C2 o que levou, em um primeiro momento, a escolha equivocada para tratamento de urgência. Assim, é

fundamental a avaliação conjunta de ambas as fraturas e, nessas situações, a redução aberta e fixação posterior constitui a abordagem mais adequada.

**Palavras chaves:** espondilolistese traumática, subluxação rotatória, fratura do enforcado, *pars articularis*

## **Introdução**

A espondilolistese traumática do Áxis (ou “fratura do enforcado”) constitui o segundo tipo de fratura mais comum da coluna cervical alta (correspondendo a 4-7% de todas as fraturas da coluna cervical alta), perdendo apenas para as fratura do processo odontóide e consistem na desconexão do arco posterior de C2 com o corpo vertebral, por fraturas bilaterais na *pars articularis*, nos pedículos ou nas facetas articulares.

A associação de fratura de C2 com subluxação rotatória atlantoaxial é extremamente rara. Existem 5 casos descritos na literatura de subluxação C1-C2 com fraturas do processo odontóide<sup>1</sup>. Apenas 2 casos semelhantes ao descrito neste relato (espondilolistese traumática do áxis associada à subluxação rotatória atlantoaxial) foram encontrados na literatura mundial. <sup>2,3</sup>, cada um sendo conduzido de uma forma. Deste modo, o resultado satisfatório do caso apresentado neste artigo pode auxiliar no entendimento e na abordagem dessas lesões.

## **Relato do Caso**

Uma paciente do sexo feminino de 23 anos deu entrada ao serviço de emergência de um hospital de alta complexidade trazida pelo serviço de resgate após impacto frontal com o trem do metrô.

Avaliada inicialmente pelos preceitos do ATLS, mantida em prancha e colar cervical rígido, com a cabeça em rotação fixa à direita. Relatava dor cervical intensa à qualquer tentativa de mobilização da coluna cervical. Não apresentava déficit motor ou sensitivo após avaliação neurológica e não havia história de perda de consciência na cena do trauma. Como lesão associada, constatou-se contusão pulmonar com derrame pleural à direita, prontamente drenado na sala de emergência.

Foram realizadas radiografias da série trauma e complementação da coluna cervical em incidência antero-posterior, perfil e transoral (Fig. 1), bem como a tomografia computadorizada (TC) (Fig. 2, Fig. 3). Em um segundo momento, foram realizadas angiotomografia e ressonância magnética, que afastaram a possibilidade de lesão as artérias vertebrais.

Foi optado, inicialmente, na redução emergencial da subluxação rotatória C1-C2 pela instalação do halo craniano com peso inicial de 2,5 kg seguida da tração progressiva com acréscimo de 1kg/hora. Entretanto, tão logo iniciamos a aplicação da tração, verificou-se uma piora no desvio da fratura da *pars interarticularis* de C2 (Fig. 4) e, assim, cessou-se a tração. Uma cirurgia de redução aberta com fixação interna foi programada.

A conduta cirúrgica consistia na artrodese C1-C3, por meio da utilização da técnica de Harms para os parafusos de massa lateral de C1, parafusos ístmicos bilaterais de C2 (sem ultrapassar o foco de fratura) para possibilitar a redução da deformidade rotacional e parafusos de massa lateral de C3. A identificação do ponto de entrada e

direção dos parafusos do Atlas foi planejada por meio de TC pré operatória para prevenir quaisquer lesões vasculares e neurológicas iatrogênicas (Fig. 5).

A paciente foi posicionada em decúbito ventral e uma abordagem posterior mediana convencional foi utilizada. O halo craniano sem tração foi mantido para auxiliar nas manobras de redução da fratura. Após a passagem dos parafusos ambas as lesões foram reduzidas pela combinação de extensão, rotação e compressão, e o alinhamento foi verificado sob fluoroscopia. Por fim, realizou-se a decorticação das massas laterais articulares e colocação de enxerto ósseo sintético de hidroxiapatita e fosfato de cálcio para permitir uma massa de fusão sólida.

No pós-operatório imediato, a paciente permaneceu neurologicamente intacta. Foi realizado novo exame de TC, que confirmou a redução satisfatória de ambas as lesões, bem como o posicionamento adequado de todos os parafusos (Fig. 7).

Após 3 meses de seguimento ambulatorial, as radiografias evidenciaram a manutenção do alinhamento adequado das lesões (Fig. 8.). Não ocorreram complicações no pós-operatório e tampouco necessidade de novas abordagens cirúrgicas.

## **Discussão**

As fraturas da *pars articularis* de C2, chamadas espondilolistese traumática do eixo ou fratura do enforcado, foram amplamente descritas e classificadas por Levine e Edwards<sup>4</sup> de acordo com o mecanismo de trauma e o padrão de desvio associado a angulação e translação de C2. O padrão de fratura apresentado no caso acima era sugestivo de um mecanismo de compressão e extensão, que corresponde ao tipo II da classificação e que poderia ser reduzido por meio de tração. Entretanto, provavelmente



pela presença da outra lesão associada, após tentativa de tração e conseqüente piora do desvio, verificou-se que o mecanismo principal da lesão era a distração e, dessa forma, a classificação foi alterada para IIa.

Já as lesões denominadas subluxação rotatória C1-C2 foram delineadas por Fielding e Hawkins<sup>5</sup>, que propuseram uma classificação baseada no grau de translação atlantoaxial. No presente caso, classificamos como tipo I, já que não há translação anterior significativa (maior que 3mm).

Fraturas da coluna cervical alta geralmente se apresentam sem déficit neurológico na avaliação inicial do politraumatizado. A literatura atribui este fato a dois motivos: (1) pacientes com lesões neurológicas altas geralmente vão à óbito por insuficiência respiratória, já na cena do trauma<sup>6</sup>, por acometimento do nervo frênico e, conseqüentemente, do diafragma; (2) a medula espinhal alta tem certa mobilidade para se adaptar às dimensões do canal, que inicialmente já são maiores, através da expansão e contração, e movimentação em sentido crânio-caudal<sup>7</sup>.

É importante destacar que não há descrição de classificações que englobam ambas as lesões, apesar de estudos recentes recomendarem suas complementações<sup>8</sup>, buscando, a partir do padrão de fratura, destacar o componente rotacional e compressão axial que podem influenciar os resultados finais na escolha pelo tratamento conservador ou cirúrgico.

A avaliação inicial através de exames de imagens é fundamental para o correto entendimento destas fraturas, principalmente para a identificação de lesões associadas<sup>9</sup>. A realização de imagens de ressonância magnética auxiliam na identificação de herniação do disco intervertebral para o canal, bem como avaliação de ruptura

ligamentar, principalmente nos pacientes que se apresentam com déficit neurológico ou com redução do nível de consciência.

A associação das lesões (espondilolistese C2-C3 e subluxação rotatória C1-C2) foi descrita apenas 2 vezes na literatura científica. Assim sendo, há pouca experiência na abordagem deste tipo de fratura, sendo que a alternativa utilizada em um dos casos descritos e no nosso foi a de associar o tratamento cirúrgico indicado para cada uma delas isoladamente.

O tratamento conservador com imobilização rígida é amplamente aceito para as lesões estáveis<sup>10, 11</sup> e consiste na redução fechada por meio de manobras que antagonizam o mecanismo de trauma, seguida de imobilização com colar cervical ou halo-vest. No entanto, uma revisão sistemática recente demonstrou melhor prognóstico com o tratamento cirúrgico da espondilolistese traumática do eixo, sem aumento da morbidade e mortalidade<sup>9</sup>. Dessa forma, há uma tendência atual para a redução aberta e fixação interna, inclusive sendo descritos métodos minimamente invasivos para a abordagem<sup>12</sup>.

No caso apresentado, em específico, as lesões apresentavam mecanismos de trauma opostos. Enquanto a luxação atlantoaxial tem como pilar da redução fechada a distração e rotação, este tipo específico de fratura de C2 contraindica a tração. Uma falha na interpretação dos exames iniciais da paciente, provavelmente pela combinação de ambas e à apresentação não usual do subtipo IIa descrito por Levine e Edwards, levou a uma abordagem inicial de urgência bem estabelecida para ambas as fraturas, mas que nessa situação não era aplicável e que consistiu na redução fechada e tração progressiva. A visualização sob fluoroscopia permitiu a identificação precoce da piora dos desvios da fratura e a interrupção imediata da intervenção<sup>13</sup>.

Outra opção descrita em um dos casos semelhantes à este foi a instalação da tração bidirecional, com halo craniano e cinto occipito-mentoniano. Ao realizar a tração em sentido ortogonal, com pesos iguais em ambos os vetores, os autores<sup>3</sup> relataram que obtiveram redução satisfatória das fraturas e mantiveram este sistema por 3 semanas, complementadas por halo vest por 2 meses. Nosso entendimento é de que este método, apesar de possivelmente apresentar menores riscos de lesões inerentes ao procedimento cirúrgico, envolve alta morbidade pela restrição prolongada do paciente ao leito, com complicações respiratórias e de lesões de pele relacionadas a períodos prolongados no mesmo posicionamento.

Considerando estes fatores, foi optado pela redução aberta e artrodese de C1 a C3, de forma a evitar a consolidação viciosa em subluxação e atraso de consolidação <sup>14</sup>.

A abordagem posterior foi escolhida por dois motivos principais. Inicialmente, a necessidade de fixação de C1 indicaria, caso a via anterior fosse optada, um acesso transoral, que está relacionado a elevada morbidade com altas taxas de infecção e riscos de lesões neurológicas, como do nervo facial, e hipoglosso <sup>15</sup>. Outra razão reside no fato de a abordagem posterior, nestes níveis, apresentar uma estabilidade biomecânica significativamente maior<sup>16</sup>, associada a taxas menores de complicações.

A técnica de fixação de C1 com parafusos pediculares poliaxiais utilizada foi a descrita por Goel-Harms<sup>17</sup>. Nesse caso, havia um fator de complicação que consistia na deformidade em rotação de C1, dificultando a utilização padrão das referências anatômicas descritas inicialmente na técnica. Para evitar lesões iatrogênicas, principalmente com relação às artérias vertebrais, realizou-se um planejamento meticuloso do ponto de entrada dos parafusos e da angulação de progressão a partir de cortes finos de tomografia computadorizada. Nessas situações a neuromonitorização

intraoperatória é de grande importância, afim de minimizar a ocorrência de lesões neurológicas por medialização excessiva dos parafusos de massa lateral. Neste caso específico, obtivemos uma boa visualização da massa lateral de C1 através do afastamento caudal da raiz de C2 e da hemostasia do plexo venoso ali localizado.

Existem diversas técnicas descritas para a fixação de C2 com parafusos poliarticulares <sup>18</sup>. Nas lesões que envolvem fraturas bilateral da pars articularis, tais como no caso descrito acima, é inviável a utilização de parafusos intralaminares ou amarrilhas sublaminares. Nossa opção foi de parafusos ístmicos bilaterais, de tamanho reduzido para que não ultrapassassem o foco de fratura mas que permitissem a redução do fragmento posterior e estabilização rotacional.

Por fim, a manutenção do halo craniano, sem tração, foi de grande valia para auxílio nas manobras de redução no intraoperatório. Uma combinação de rotação, com extensão e compressão permitiu o alinhamento satisfatório de ambas as lesões, que foi mantido com o travamento por 2 barras. A opção pelo colar cervical rígido no pós-operatório considerou fatores psicológicos e sociais do paciente que poderiam ser fatores de risco à falha da fixação rígida.

### **Conclusão**

A ocorrência de espondilolistese traumática do eixo com subluxação rotatória atlantoaxial é extremamente rara e só foram descritos apenas 2 casos semelhantes na literatura, cada um sendo abordado de forma oposta. Na falta de consenso e estudos avaliando os resultados de cada tipo de abordagem terapêutica, optamos pela redução

aberta da fratura e artrodese C1-C3 via posterior, com bons resultados imediatos no pós-operatório e durante o seguimento ambulatorial da paciente.

### **Referências**

1. Spoor, A. B., Diekerhof, C. H., Bonnet, M., & Öner, F. C. (2008). Traumatic complex dislocation of the atlanto-axial joint with odontoid and C2 superior articular facet fracture. *Spine*, 33(19), 708–711.
2. Chaudhary, S. B., Martinez, M., Shah, N. P., & Vives, M. J. (2015). Traumatic atlantoaxial dislocation with Hangman fracture. *Spine Journal*.
3. Han, K., Cui, S. Bin, Wang, L., Wei, F. X., & Liu, S. Y. (2016). Traumatic bilateral atlantoaxial rotatory subluxation with hangman fracture in an adult. *Neurology India*.
4. Levine, A. M., & Edwards, C. C. (1985). The management of traumatic spondylolisthesis of the axis. *Journal of Bone and Joint Surgery - Series A*.
5. Fielding, J. W., & Hawkins, R. J. (1977). Atlanto axial rotary fixation. (Fixed rotatory subluxation of the atlanto axial joint). *Journal of Bone and Joint Surgery - Series A*.
6. Fujimura, Y., Nishi, Y., Chiba, K., & Kobayashi, K. (1995). Prognosis of neurological deficits associated with upper cervical spine injuries. *Paraplegia*.
7. Yang, J. S., & Hao, D. J. (2015). Traumatic atlantoaxial rotatory subluxation with bilateral locked cervical facets. *Spine Journal*.

8. Li, G., Zhong, D., & Wang, Q. (2017). A novel classification for atypical Hangman fractures and its application. *Medicine (United States)*.
9. Fielding, J. W., Stillwell, W. T., Chynn, K. Y., & Spyropoulos, E. C. (1978). Use of computed tomography for the diagnosis of atlanto-axial rotatory fixation. A case report. *Journal of Bone and Joint Surgery - Series A*.
10. Vaccaro, A. R., Madigan, L., Bauerle, W. B., Blescia, A., & Cotler, J. M. (2002). Early halo immobilization of displaced traumatic spondylolisthesis of the axis. *Spine*.
11. Jones, R. N. (1984). Rotatory dislocation of both atlanto-axial joints. *Journal of Bone and Joint Surgery - Series B*
12. Murphy, H., Schroeder, G. D., Shi, W. J., Kepler, C. K., Kurd, M. F., Fleischman, A. N., ... Vaccaro, A. R. (2017). Management of Hangman's Fractures: A Systematic Review. *Journal of Orthopaedic Trauma*.
13. Soliman, M. A. R., Kwan, B. Y. M., & Jhawar, B. S. (2019). Minimally Invasive Unilateral Percutaneous Transfracture Fixation of a Hangman's Fracture Using Neuronavigation and Intraoperative Fluoroscopy. *World Neurosurgery*.
14. Jeanneret, B., Magerl, F., & Ward, J. C. (1991). Overdistraction: a hazard of skull traction in the management of acute injuries of the cervical spine. *Archives of Orthopaedic and Trauma Surgery*.
15. Li, X. F., Dai, L. Y., Lu, H., & Chen, X. D. (2006). A systematic review of the management of hangman's fractures. *European Spine Journal*.

16. Wilson, A. J., Marshall, R. W., & Frcs, M. E. (1999). Transoral fusion with internal fixation in a displaced hangman's fracture. *Spine*.
17. Duggal, N., Chamberlain, R. H., Perez-Garza, L. E., Espinoza-Larios, A., Sonntag, V. K. H., & Crawford, N. R. (2007). Hangman's fracture: Biomechanical comparison of stabilization techniques. *Spine*.
18. Harms, J., & Melcher, R. P. (2001). Posterior C1-C2 fusion with polyaxial screw and rod fixation. *Spine*.



Fig. 1. Imagens das radiografias AO, perfil e transoral no momento da admissão. Nota-se a fratura bilateral da pars articularis de C2 na incidência em perfil e o “wink sign” na radiografia transoral, indicado a subluxação rotatória. Além disso, conseguimos perceber a atitude em rotação da cabeça.

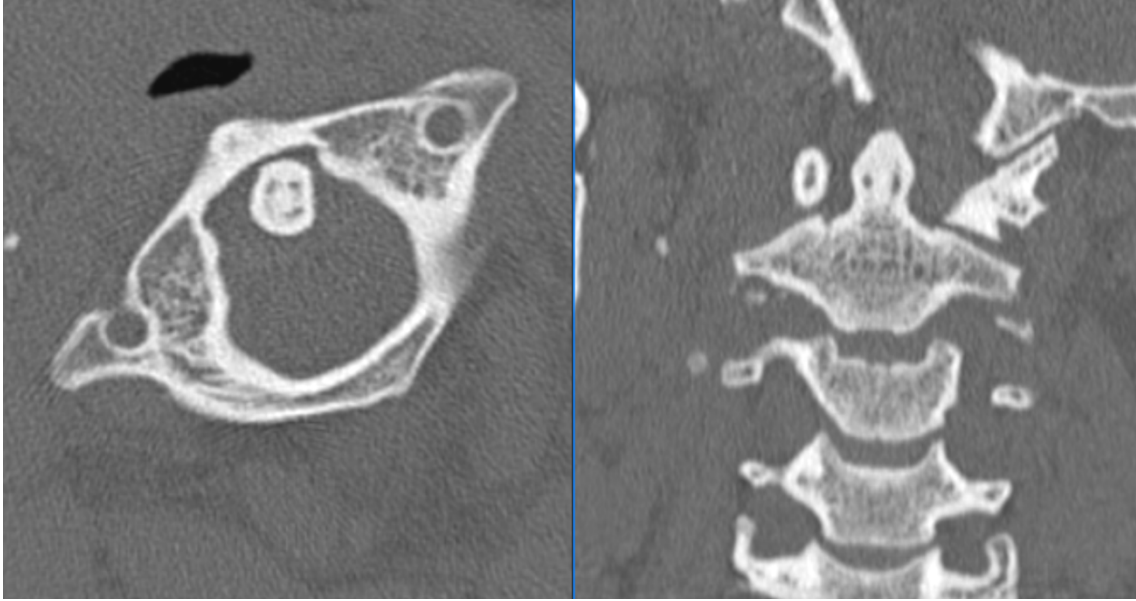


Fig. 2. Cortes axial e coronal de Tomografia Computadorizada na admissão. Podemos notar a presença da subluxação rotatória entre C1 e C2, sem que haja translação anterior maior que 3mm. Dessa forma, pela classificação de Fielding e Hawkings, classificamos como tipo 1.





Fig. 3. Corte axial ao nível de C2. Nota-se a fratura bilateral da pars articularis.



Fig. 4. Imagens de escopia em vista lateral da coluna cervical. Verifica-se o aumento do desvio durante a tentativa de redução através da tração e extensão, indicando que tratava-se de uma fratura do tipo IIA de Levine e Edwards.

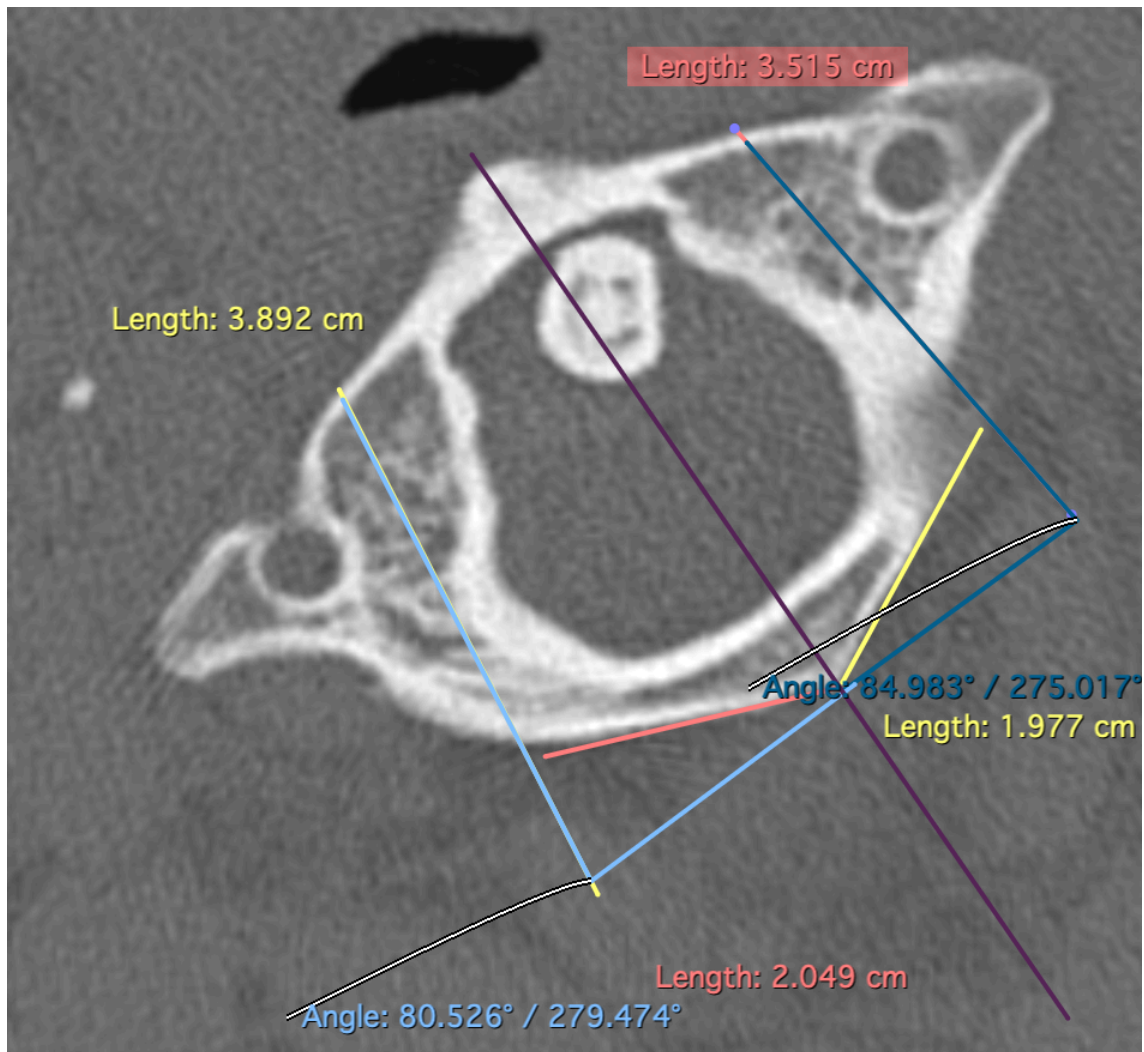


Fig. 5. Corte axial de C1 com planejamento pré-operatório dos pontos de inserção do parafuso de massa lateral pela técnica de Harms. Nesse caso, foi medido a distância do ponto de inserção com relação a linha média, a angulação de convergência do parafuso e o comprimento de cada um.

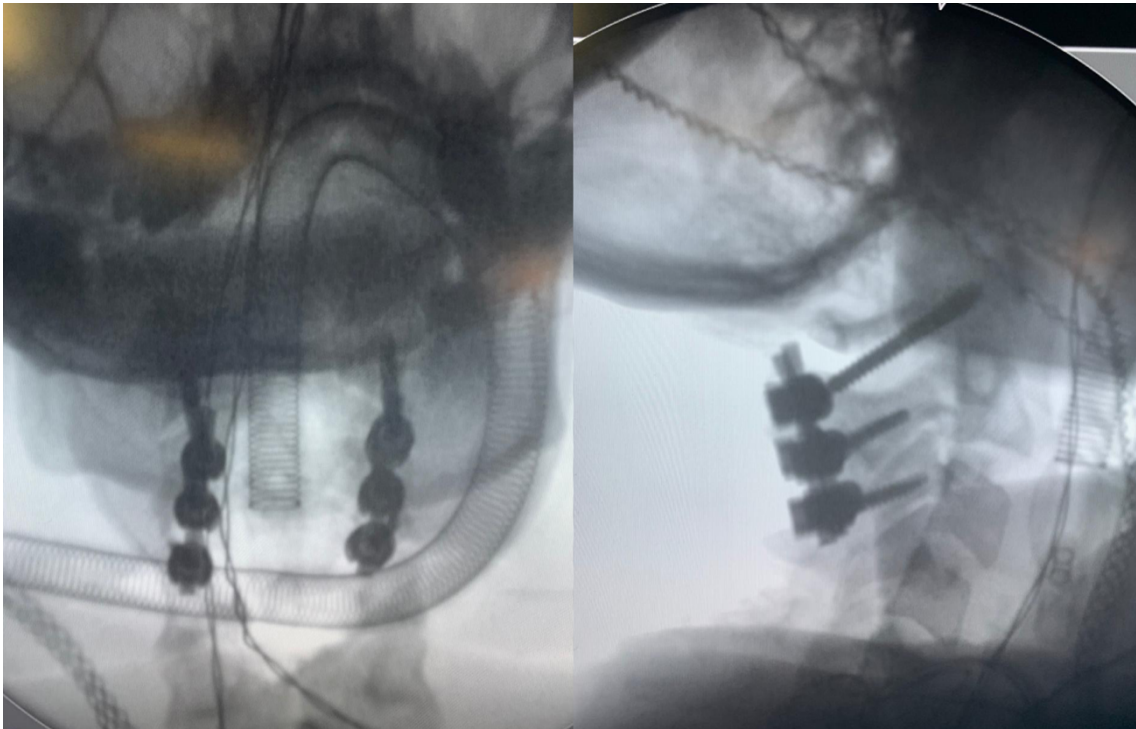


Fig. 6. Imagens de radioescopia da coluna cervical em incidência antero-posterior e perfil. Verifica-se o posicionamento adequado dos parafusos, bem como a redução satisfatória de ambas as lesões.

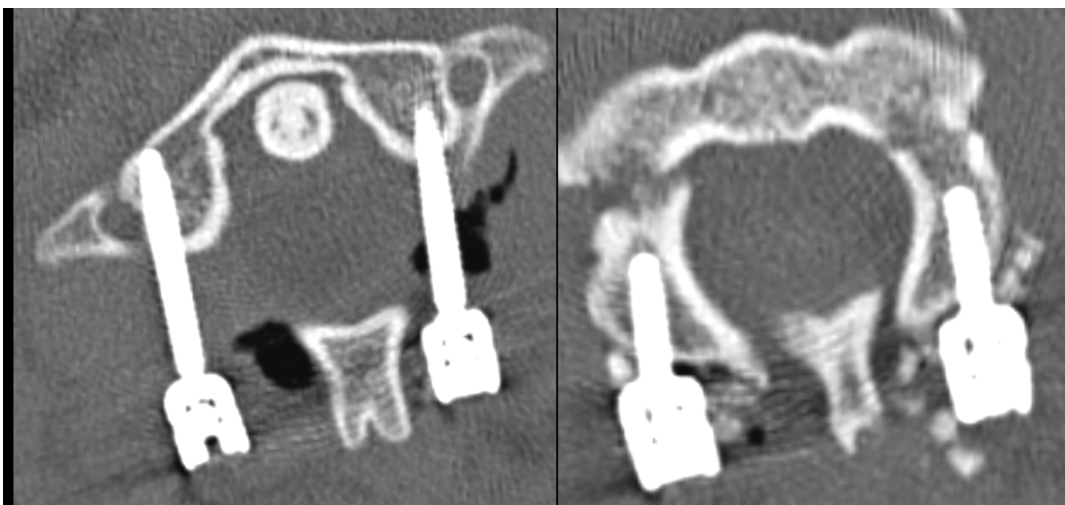


Fig. 7. Cortes de TC identificando o posicionamento adequado dos parafusos de C1 (esquerda) e C2 (direita).



Fig. 8. Radiografias da coluna cervical em AP, perfil e transoral. Verifica-se manutenção da redução de ambas as lesões com um mês de seguimento.