© С.В. ВИССАРИОНОВ И ДР., 2019 | © S.V. VISSARIONOV ET AL., 2019

АТЛАНТОАКСИАЛЬНАЯ ДИСЛОКАЦИЯ У ПОДРОСТКА С ЮВЕНИЛЬНЫМ СПОНДИЛОАРТРИТОМ

С.В. Виссарионов[1], В.А. Мануковский[2], В.В. Мурашко[1]
[1]*Научно-исследовательский детский ортопедический институт им. Г.И. Турнера, Санкт-Петербург, Россия*
[2]*Санкт-Петербургский научно-исследовательский институт скорой помощи им. И.И. Джанелидзе, Санкт-Петербург, Россия*

Атлантоаксиальная дислокация со стенозом позвоночного канала, не связанная с аномалиями развития краниовертебрального перехода и травматическим повреждением, является редкой патологией у детей и подростков. Представлено клиническое наблюдение оперативного лечения атлантоаксиальной дислокации нетравматического генеза со стенозом позвоночного канала у подростка с ювенильным идиопатическим артритом. Минимальная инструментальная фиксация верхнешейного отдела позвоночника позволила ликвидировать стеноз позвоночного канала, устранить нестабильность верхнешейных позвонков, купировать неврологические нарушения.

Ключевые слова: стеноз позвоночного канала, атлантоаксиальная дислокация, дети, ювенильный идиопатический артрит, хирургическое лечение.

Для цитирования: *Виссарионов С.В., Мануковский В.А., Мурашко В.В. Атлантоаксиальная дислокация у подростка с ювенильным спондилоартритом // Хирургия позвоночника. 2019. Т. 16. № 3. С. 41–46.*

DOI: http://dx.doi.org/10.14531/ss2019.3.41-46.

ATLANTOAXIAL DISLOCATION IN AN ADOLESCENT WITH JUVENILE SPONDYLOARTHRITIS

S.V. Vissarionov[1], V.A. Manukovskiy[2], V.V. Murashko[1]
[1]*The Turner Scientific Research Institute for Children's Orthopedics, St. Petersburg, Russia*
[2]*The St. Petersburg I.I. Dzhanelidze Research Institute of Emergency Medicine, St. Petersburg, Russia*

Atlantoaxial dislocation with spinal canal stenosis not associated with craniovertebral junction malformations and traumatic injury is a rare pathology in children and adolescents. A clinical case of the diagnosis and surgical treatment of atlantoaxial dislocation of non-traumatic genesis combined with spinal canal stenosis in an adolescent with juvenile idiopathic arthritis is presented. A minimal instrumental fixation of the upper cervical spine allowed eliminating stenosis of the spinal canal, repairing instability of the upper cervical vertebrae, and jugulating neurological disorders.

Key Words: spinal canal stenosis, atlantoaxial dislocation, children, juvenile idiopathic arthritis, surgical treatment.

Please cite this paper as: *Vissarionov SV, Manukovskiy VA, Murashko VV. Atlantoaxial dislocation in an adolescent with juvenile spondyloarthritis. Hir. Pozvonoc. 2019; 16(3):41–46. In Russian.*

DOI: http://dx.doi.org/10.14531/ss2019.3.41-46.

Наиболее частыми причинами атлантоаксиальной дислокации, сопровождающейся смещением зубовидного отростка аксиса кзади с развитием стеноза позвоночного канала с компрессией спинного мозга, являются травматические повреждения [1], а также некоторые врожденные патологии краниовертебрального перехода – аномалии развития основания черепа и верхнешейных позвонков (зубовидная кость), нарушения формирования и сегментации позвонков [2]. Ряд генетических синдромов и системных заболеваний сопровождается слабостью связочного аппарата атлантоаксиальных суставов и может вызывать стеноз позвоночного канала у детей. К ним относятся синдромы Дауна, Моркио, мукополисахаридозы I, II, IV типов, спондилоэпифизарные диспластические, несовершенный остеогенез, нейрофиброматоз [3, 4]. Приобретенная патология, вызывающая атлантоаксиальную дислокацию, может проявляться в виде осложнений инфекции верхних дыхательных путей, в частности при ретрофарингеальном абсцессе – синдроме Гризеля [5].

Заболевания, объединенные в группу спондилоартритов, к которым относятся ревматоидный артрит взрослых, ювенильный идиопатический артрит, HLA B27 – ассоциированные артриты (анкилозирующий спондилит, псориатический артрит, синдром Рейтера), также могут вызывать нестабильность шейного отдела позвоночника, приводя к стенозу позвоночного канала [2, 6–8]. Ювенильный идиопатический артрит представляет собой гетероген-

ную группу воспалительных заболеваний суставов, развивающихся у детей до 16 лет, имеющих хроническое (более 6 недель) прогрессирующее течение. Атлантоаксиальные суставы, имеющие синовиальную оболочку, могут подвергаться при ювенильном артрите воспалительным изменениям, аналогичным поражениям периферических суставов: избыточной продукции синовиальной жидкости, гипертрофическим изменениям синовиальной оболочки с формированием паннуса, вызывающего эрозии хряща и субхондральных отделов кости [7, 9]. Воспалительные изменения при этом могут явиться причиной дегенерации связок позвонков шейного отдела позвоночника, что в 17–85 % наблюдений приводит к нестабильности суставов [2, 8, 10].

Независимо от причины, вызвавшей стеноз позвоночного канала на уровне краниовертебрального перехода, для лечения таких пациентов применяют различные хирургические методики. В последние годы стабилизация атлантоаксиального комплекса в большинстве случаев выполняется с проведением винтов на уровне C_1–C_2 позвонков как у взрослых пациентов, так и в педиатрической практике [3, 4, 9]. Однако, несмотря на то что атлантоаксиальный подвывих является самым распространенным видом нестабильности шейного отдела позвоночника при ювенильном артрите [6], редко неврологические осложнения процесса развиваются в детском или подростковом возрасте как дебют заболевания [1, 2, 10].

Цель исследования – анализ течения и лечения атлантоаксиальной нестабильности у подростка с ювенильным спондилоартритом.

Пациент О., 16 лет, поступил в отделение патологии позвоночника и нейрохирургии НИДОИ им. Г.И. Турнера по поводу атлантоаксиальной дислокации. Анамнез жизни без особенностей, ранее у специалистов (невролога, ортопеда, ревматолога) не наблюдался.

Считал себя больным на протяжении последнего года, в течение которого возникали периодические боли в шейном отделе позвоночника, не связанные с физической или статической нагрузкой. Боли носили непостоянный характер и проходили самостоятельно. По месту жительства провели МРТ-исследование шейного отдела позвоночника (данные не представлены, по выписке), выявлен атлантоаксиальный подвывих без стеноза позвоночного канала. Получил несколько курсов остеопатии, после очередного сеанса (через 6 мес. от начала появления болей в шейном отделе позвоночника) развился левосторонний гемипарез. Повторно выполнили МРТ шейного отдела позвоночника, которая выявила прогрессирование атлантоаксиальной дислокации и появление стеноза позвоночного канала на этом уровне. Пациент госпитализирован в нейрохирургическое отделение по месту жительства, где наложили вытяжение на петле Глиссона весом 4,0 кг, на фоне которого отмечалась незначительная положительная динамика в виде увеличения силы в левых конечностях. Затем подростка перевели для оперативного лечения в специализированный центр.

При поступлении: пациент нормостенического телосложения. В неврологическом статусе отмечался центральный тетрапарез с акцентом в левых конечностях (со снижением мышечной силы до трех баллов), асимметричная гиперрефлексия (больше слева) до клонусов стоп в нижних конечностях. При МРТ выявлена атлантоаксиальная дислокация со стенозом позвоночного канала и компрессией спинного мозга на этом уровне в виде гиперинтенсивного МР-сигнала на Т2-взвешенных изображениях спинного мозга на уровне зубовидного отростка аксиса (признаки миелопатии). Достоверных признаков формирования парадентального паннуса (гипертрофии синовиальной оболочки) не выявлено, спинной мозг компримирован между зубовидным отростком и задней дугой атланта, больше слева (рис. 1).

КТ-исследование костных аномалий развития шейных позвонков и основания черепа не выявила, передний атлантодентальный интервал увеличен до 13,9 мм за счет смещения зубовидного отростка аксиса кзади с сужением ретродентального расстояния до 3,0 мм, с асимметричным уменьшением переднезаднего размера позвоночного канала на уровне C_1–C_2 слева до 3,7 мм, справа – до 6,0 мм. Отмечена неровность контура передней поверхности зубовидного отростка аксиса, что может

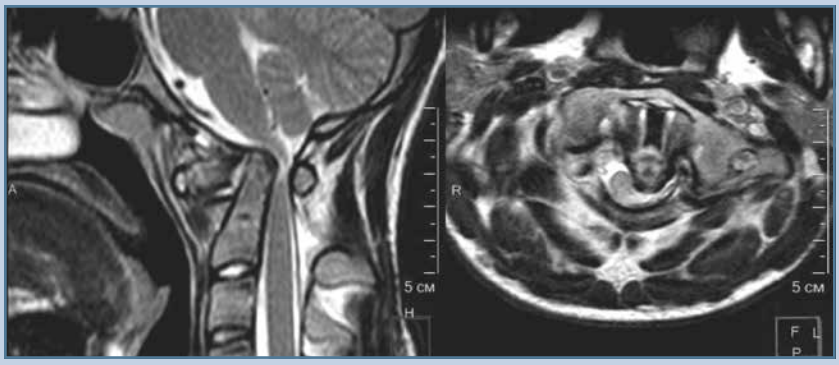

Рис. 1
МРТ шейного отдела позвоночника пациента О., 16 лет: Т2-взвешенные изображения в сагиттальной и аксиальной проекциях; атлантоаксиальная дислокация со стенозом позвоночного канала и компрессией спинного мозга (миелопатический/миелоишемический) очаг с гиперинтенсивным МР-сигналом на уровне C_1–C_2, больше слева

являться признаком эрозивного процесса, наблюдающегося при артритах (рис. 2).

С учетом сроков, прошедших от начала заболевания, длительного курса консервативного лечения, выраженных неврологических нарушений, а также отсутствия этиопатогенетической терапии с целью стабилизации краниовертебральной области и постепенной, контролируемой закрытой репозиции атлантоаксиальных позвонков первым этапом лечения под общей анестезией выполнили монтаж гало-аппарата. На фоне постепенной тракции и репозиции в аппарате контрольное КТ-исследование показало, что достигнуто уменьшение атлантоаксиальной дислокации с уменьшением щели переднеосевого сустава до 8,8 мм и увеличением переднезаднего размера позвоночного канала на этом уровне до 8,6 мм (рис. 3).

При лечении атлантоаксиальной дислокации в гало-аппарате на 3-и сут после операции у пациента появились признаки артрита правого коленного сустава (боль, отечность и ограничение движений). Подобные изменения выявлены впервые. При УЗИ сустава обнаружены признаки экссудативного синовита, увеличение размера верхнего заворота до 45 × 19 мм за счет жидкостного содержимого.

На 7-е сут после оперативного вмешательства пациент стал предъявлять жалобы на боли при жевании в области правого височно-нижнечелюстного сустава. После осмотра ревматолог заподозрил течение хронического артрита в структуре ювенильного ревматоидного артрита. В клиническом анализе крови отмечалось ускорение СОЭ до 27 мм/ч, ревматоидный фактор составлял 21 МЕ/мл, С-реактивный белок – 12 мг/л. Проведено ПЦР-типирование, в результате которого выявлен ген HLA-B27. Совокупность клинических признаков полиартрита и лабораторных показателей позволила диагностировать ювенильный спондилоартрит. После проведенной бициллинопрофилактики, курса нестероидной противовоспалительной терапии в течение 7 дней суставной синдром (в коленном и височно-нижнечелюстном суставах) был полностью купирован. Пациента повторно проконсультировали ревматолог и педиатр, противопоказаний для хирургического вмешательства не выявили.

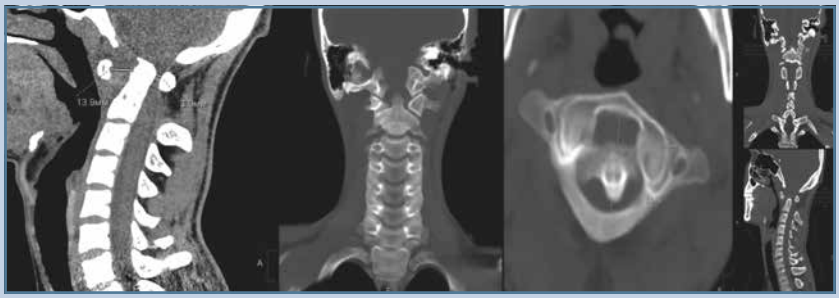

Рис. 2
МСКТ шейного отдела позвоночника пациента О., 16 лет, с атлантоаксиальной дислокацией: значительное увеличение переднего атлантодентального расстояния, стеноз позвоночного канала на уровне атланта, узурация передней поверхности зубовидного отростка аксиса

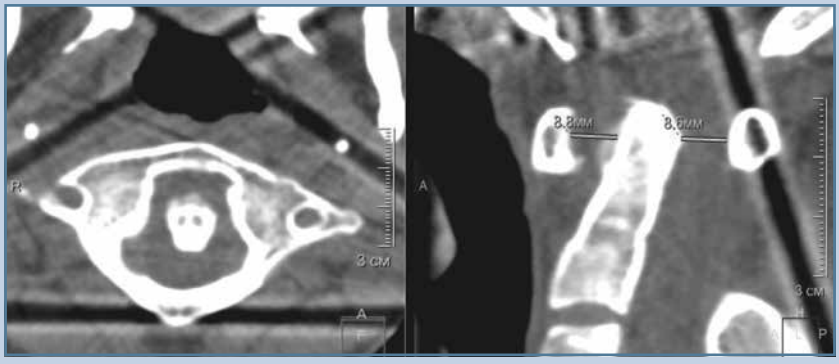

Рис. 3
МСКТ пациента О., 16 лет, с атлантоаксиальной дислокацией на этапе репозиции в гало-аппарате на 5-е сут

На 10-е сут после первой операции пациенту выполнили основной этап оперативного лечения в объеме ликвидации стеноза позвоночного канала, задней открытой репозиции, транспедикулярной фиксации C_1 и C_2 позвонков по Harms (винты установлены через боковые массы атланта и трансламинарно в аксис) с последующим демонтажем гало-аппарата.

Контрольное КТ-исследование шейного отдела позвоночника показало полное восстановление анатомических взаимоотношений на уровне C_1–C_2 позвонков, ликвидацию стеноза позвоночного канала: величина переднего атлантоаксиального интервала составила 2,8 мм, переднезадний размер позвоночного канала – 18,5 мм. Винты металлоконструкции расположены корректно (рис. 4).

Сразу после основного этапа хирургического вмешательства и демонтажа гало-аппарата выполнили МРТ-исследование коленного и височно-нижнечелюстного суставов. В правом коленном суставе выявлен выпот в верхнем завороте (рис. 5), в височно-нижнечелюстном суставе – трабекулярный отек субхондраль-

Рис. 4
МСКТ шейного отдела позвоночника пациента О., 16 лет, после хирургического лечения атлантоаксиальной дислокации: отсутствие стеноза позвоночного канала, положение винтов в C_1 и C_2 позвонках правильное

Рис. 5
МРТ правого коленного сустава пациента О., 16 лет: выпот в верхнем завороте

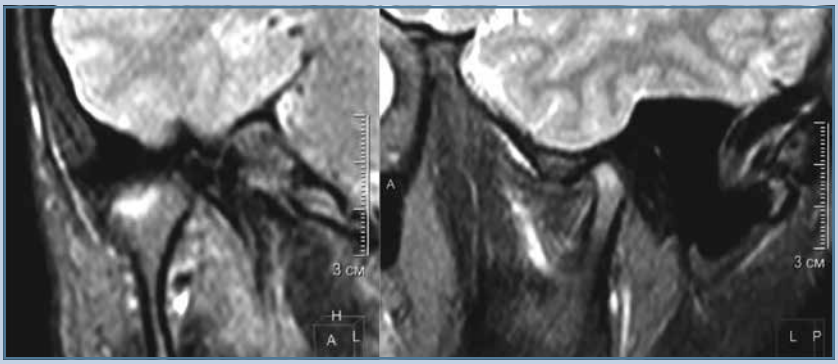

Рис. 6
МРТ правого височно-нижнечелюстного сустава пациента О., 16 лет, во фронтальной и сагиттальной проекциях на Т2-взвешенных изображениях: локальная зона гиперинтенсивности МР-сигнала головки нижней челюсти справа (признаки отека костной ткани в субхондральном отделе)

ных отделов головки нижней челюсти справа (рис. 6), свидетельствующие о воспалительном характере поражения.

После вмешательства пациент сразу отметил увеличение силы в левой руке, был вертикализирован на 2-е сут, в послеоперационном периоде рекомендовано использовать шейный воротник, выписан из стационара на 10-е сут в удовлетворительном состоянии. В неврологической картине отмечался полный регресс симптоматики.

Срок наблюдения пациента после операции составил 2,5 года: состоит на учете у ревматолога, за время наблюдения жалоб со стороны суставов и на боль в области шейного отдела позвоночника не предъявлял, неврологических симптомов не отмечалось. Через 2 года после операции при контрольном КТ-исследовании изменений соотношений атланта и аксиса, дестабилизации металлоконструкции не отмечали, имелись признаки формирования костного блока переднеосевого сустава (рис. 7).

Особенностью представленного наблюдения является, на наш взгляд, крайне редкое первичное проявление достаточно частого для детей заболевания – ревматоидного артрита признаками атлантоаксиальной дислокации со стенозом позвоночного канала. Абсолютно ошибочным явилось применение у данного пациента остеопатического воздействия, приведшего к ухудшению неврологического состояния, и вытяжения на петле Глиссона, абсолютно противопоказанного при нестабильности шейного отдела позвоночника.

Еще одной особенностью наблюдения является манифестация развернутой клинической картины полиартрита клинико-лучевыми (поражением коленного и височно-

Рис. 7
МСКТ шейного отдела позвоночника пациента О. через 24 мес. после операции: стеноза позвоночного канала нет, признаки формирования полного костного анкилоза в области переднеосевого сустава

нижнечелюстного суставов) и лабораторными (наличие маркеров воспаления) проявлениями в раннем периоде после первого этапа оперативного лечения – наложения гало-аппарата. Стандартная базовая терапия ревматоидного артрита оказалась эффективной для купирования его клинических проявлений, что подтверждают результаты наблюдения ревматолога за пациентом в течение 2,5 лет.

В отличие от атлантоаксиальных дислокаций у взрослых пациентов с болезнью Бехтерева, характеризующихся выраженной ригидностью данного сегмента и требующих проведения резекции структур краниовертебральной области для полноценной декомпрессии содержимого позвоночного канала, в нашем наблюдении все компоненты деформации удалось устранить за счет мобильности пораженного сегмента [10].

Поражение суставов шейного отдела позвоночника редко является первым признаком ревматоидного артрита, но наличие болевого синдрома в шейном отделе, особенно в сочетании с неврологическими проявлениями, должно настораживать врачей любой специальности: у пациентов с системной, полиартикулярной и энтезит-ассоциированной формами заболевания воспалительные изменения шейного отдела позвоночника являются типичным проявлением ювенильного идиопатического артрита [7, 8], а хронический воспалительный процесс может привести к выраженным анатомическим изменениям, проявлением которых и является атлантоаксиальная нестабильность с потенциальным риском компрессии спинного мозга [3] и инвалидизации больного.

Заключение

Атлантоаксиальная дислокация нетравматического генеза у детей и подростков должна являться поводом для комплексного обследования, включающего исследование на ювенильный идиопатический артрит. Быстрое и правильное установление диагноза может обеспечить своевременную этиопатогенетическую терапию, позволяющую предотвратить развитие жизнеугрожающих осложнений.

Непрямая декомпрессия спинного мозга и репозиция дислокации C_1–C_2 в гало-аппарате с последующей задней стабилизацией по Harms позволила восстановить правильные взаимоотношения в позвоночно-двигательном сегменте, полностью купировать неврологические нарушения с использованием при этом минимальной протяженности фиксации. Выполненное последовательное и этапное вмешательство позволило постепенно вывести позвоночно-двигательный сегмент в физиологически правильную позицию, ликвидировать стеноз содержимого позвоночного канала и неврологические расстройства, воссоздать стабильность сегмента и сохранить достигнутый результат в отдаленном периоде.

Авторы выражают благодарность врачу-рентгенологу Т.В. Мурашко и врачу-неврологу И.Ю. Солохиной за помощь в подготовке материалов исследования.
Исследование не имело спонсорской поддержки. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Литература/References

1. **Львов И.С., Гринь А.А., Некрасов М.А., Кордонский А.Ю., Сытник А.В.** Методы вентральной декомпрессии у пациентов с атлантоаксиальными дислокациями травматического и нетравматического генеза // Вопросы нейрохирургии им. Н.Н. Бурденко. 2018. Т. 82. № 1. С. 33–40. DOI: 10.17116/neiro201882133-40. [Lvov IS, Grin' AA, Nekrasov MA, Kordonskiy AYu, Sytnik AV. Ventral decompression techniques in patients with traumatic and non-traumatic atlanto-axial dislocations. Zh Vopr Neirokhir Im N N Burdenko. 2018;82(1):33–40. In Russian].
2. **Brockmeyer DL, Sivakumar W, Mazur D, Sayama CM, Goldstein HE, Lew SM, Hankinson TC, Anderson RCE, Jea A, Aldana PR, Proctor M, Hedequist D, Riva-Cambrin JK.** Identifying factors predictive of atlantoaxial fusion failure in pediatric patients: lessons learned from a retrospective pediatric craniocervical society study. Spine. 2018;43:754–760. DOI: 10.1097/BRS.0000000000002495.
3. **Roonprapunt C, Kokoszka MA, Ulkatan S, Ghatan S.** Value of neurophysiologic monitoring in confirming indirect decompression of severe pediatric non-traumatic C1–C2 subluxation. A case report. Interdiscip Neurosurg. 2018;13:95–99. DOI:10.1016/j.inat.2018.04.005.
4. **Martinez-Del-Campo E, Turner JD, Rangel-Castilla L, Soriano-Baron H, Kalb S, Theodore N.** Pediatric occipitocervical fixation: radiographic criteria, surgical technique, and clinical outcomes based on experience of a single surgeon. J Neurosurg Pediatr. 2016;18:452–462. DOI:10.3171/2016.2.PEDS15544.
5. **Fath L, Cebula H, Santin MN, Coca A, Debry C, Proust F.** The Grisel's syndrome: a non-traumatic subluxation of the atlantoaxial joint. Neurochirurgie. 2018;64:327–330. DOI:10.1016/j.neuchi.2018.02.001.

6. **Bodakci E, Uskudar Cansu D, Erturk A, Calisir C, Korkmaz C.** Can neck pain be an initial symptom of rheumatoid arthritis? A case report and literature review. Rheumatol Int. 2018;38:925–931. DOI:10.1007/s00296-018-4019-z.
7. **Dai Y, Jian FZ, Huang JY.** Research progress of the pathogenesis of atlantoaxial dislocation caused by rheumatoid arthritis. Chin J Contemp Neurol Neurosurg. 2018;185:366–371. DOI: 10.3969/j.issn.1672-6731.2018.05.012.
8. **Pinto JRR, Pedron IG, Utumi ER, Miranda ME, Pinto ECP, Nucci LP.** Temporomandibular joint disorders as the only manifestation of juvenile idiopathic arthritis: a case report. Einstein (Sao Paulo). 2018;16:eRC4003. DOI: 10.1590/S1679-45082018RC4003.
9. **Лисицкий И.Ю., Киселев А.М., Киселев С.Е.** Атлантоаксиальные дислокации ревматоидного генеза: хирургическая тактика. Вопросы нейрохирургии им. Н.Н. Бурденко. 2018. Т. 82. № 1. С. 41–47. DOI: 10.17116/neiro201882141-47. [Lisitskiy IYu, Kiselev AM, Kiselev SE. Rheumatoid atlanto-axial dislocation: a surgical approach. Zh Vopr Neirokhir Im N N Burdenko. 2018;82(1):41–47. In Russian].
10. **Бурцев А.В., Губин А.В., Рябых С.О., Котельников А.О., Павлова О.М.** Синдромальный подход при оценке хирургической патологии шейного отдела позвоночника // Гений ортопедии. 2018. Т. 24. № 2. С. 216–220. DOI: 10.18019/1028-4427-2018-24-2-216-220. [Burtsev AV, Gubin AV, Ryabykh SO, Kotel'nikov AO, Pavlova OM. Syndromic approach in assessing the surgical pathology of the cervical spine. Genii Ortopedii. 2018;24(2):216–220. In Russian].

Адрес для переписки:
Мурашко Владислав Валерьевич
196603, Россия, Санкт-Петербург, Пушкин, ул. Парковая, 64–68,
Научно-исследовательский детский ортопедический институт
им. Г.И. Турнера,
v.murashko@gmail.com

Address correspondence to:
Murashko Vladislav Valeryevich,
The Turner Scientific Research Institute for Children's Orthopaedics,
Parkovaya str., 64–68, Pushkin, St. Petersburg, 196603, Russia,
v.murashko@gmail.com

Статья поступила в редакцию 25.09.2018
Рецензирование пройдено 26.11.2018
Подписано в печать 30.11.2018

Received 25.09.2018
Review completed 26.11.2018
Passed for printing 30.11.2018

Сергей Валентинович Виссарионов, д-р мед. наук, проф., заместитель директора по научной и учебной работе, Научно-исследовательский детский ортопедический институт им. Г.И. Турнера, Россия, 196603, Санкт-Петербург, Пушкин, ул. Парковая, 64–68, ORCID: 0000-0003-4235-5048, vissarionovs@gmail.com;
Вадим Анатольевич Мануковский, д-р мед. наук, проф., заместитель директора по клинической работе, Санкт-Петербургский НИИ скорой помощи им. И.И. Джанелидзе, Россия, 192242, Санкт-Петербург, Будапештская, 3а, ORCID: 0000-0003-0319-814X, vadim@neuro.spb.ru;
Владислав Валерьевич Мурашко, врач травматолог-ортопед, заведующий операционным блоком, Научно-исследовательский детский ортопедический институт им. Г.И. Турнера, Россия, 196603, Санкт-Петербург, Пушкин, ул. Парковая, 64–68, ORCID: 0000-0002-2201-6906, v.murashko@gmail.com.

Sergei Valentinivich Vissarionov, DMSc, Prof., Deputy Director for science and academic work, The Turner Scientific Research Institute for Children's Orthopaedics, Parkovaya str., 64–68, St. Petersburg, 196603, Russia, ORCID: 0000-0003-4235-5048, vissarionovs@gmail.com;
Vadim Anatolyevich Manukovskiy, DMSc, Prof., Merited Doctor of the Russian Federation, Deputy Director for clinical works; St. Petersburg I.I. Dzhanelidze Research Institute of Emergency Medicine, Budapeshtskaya str., 3a, St. Petersburg, 192242, Russia, ORCID: 0000-0003-0319-814X, vadim@neuro.spb.ru;
Vladislav Valeryevich Murashko, traumatologist-orthopedist, Head of the operating unit, The Turner Scientific Research Institute for Children's Orthopaedics, Parkovaya str., 64–68, St. Petersburg, 196603, Russia, ORCID: 0000-0002-2201-6906, v.murashko@gmail.com.