

临床论著

慢性寰枢关节旋转固定或脱位的临床及影像学特征——52 例病例资料分析

闫明, 王超, 王圣林

(北京大学第三医院骨科 100191 北京市)

【摘要】目的:总结慢性寰枢关节旋转固定或脱位(atlantoaxial rotatory fixation/dislocation, AARF/AARD)患者的临床和影像学特征,探讨其诊治经验。**方法:**回顾性分析 2004 年 9 月~2017 年 2 月在我院收治的 52 例慢性寰枢关节旋转固定或脱位患者的临床资料,男 23 例,女 29 例,发病年龄 5~17 岁,平均 11.04±2.73 岁;32 例有明确发病诱因,其中 18 例有过颈部轻微外伤史;46 例有明确记载从发病到我院就诊时间,为 2~18 个月,平均 6.0±3.2 个月;患者均有斜颈、颈部疼痛和活动受限等症状体征,3 例有轻微神经损害。所有患者通过影像学测量寰齿前间隙(ADI)并观察寰枢侧块关节旋转和脱位的移位方向。根据影像学表现进行分类,探讨不同分类的治疗方法及其效果。**结果:**根据影像学表现分为三种类型。A 类:ADI<5mm,一侧寰椎侧块向前移位,另一侧后移位,共 7 例,称之为寰枢关节旋转固定(atlanto-axial rotatory fixation, AARF);B 类:ADI>5mm,寰椎侧块出现旋转移位,矢状位和水平位可见寰枢侧块关节面之间失去接触,共 44 例,称之为寰枢关节旋转脱位(atlanto-axial rotatory dislocation, AARD),其中 11 例一侧寰椎侧块向前脱位,另一侧原位(B1 类),24 例一侧寰椎侧块向前脱位,另一侧向后脱位(B2 类),9 例双侧寰椎侧块不对称性向前脱位,两侧轻重有别(B3 类);C 类:ADI>5mm,寰枢关节旋转脱位合并寰枕关节反向旋转脱位,共 1 例,称之为枕寰枢关节旋转脱位(occipital-atlanto-axial rotatory dislocation, OAARD)。4 例 A 类患者通过牵引治愈,3 例 A 类患者经保守治疗失败后来我院行寰枢椎间植骨融合术,A 类患者的病程在 3 个月左右。26 例 B 类患者颅骨牵引复位后行后路寰椎侧块枢椎椎弓根螺钉钛板固定融合术;18 例 B 类患者需要经口咽入路松解复位寰枢关节后行后路寰椎侧块枢椎椎弓根螺钉钛板固定融合术。B 类患者的病程在 6 个月左右。1 例 C 类患者病程 4 个月,经颅骨牵引复位失败,放弃治疗。手术患者术后随访均获骨性融合。**结论:**AARF/AARD 多发生于儿童,无明显性别差异;颈部轻微创伤是常见诱因;A 类患者病程短,保守治疗有治愈的可能性,B 类患者病程长,需要手术复位和融合寰枢关节。目前还没有 C 类患者的治疗经验。本文观察到的影像学表现有助于更加全面地认识本病。

【关键词】寰枢椎;旋转固定;旋转半脱位;Grisel 综合征

doi:10.3969/j.issn.1004-406X.2019.09.02

中图分类号:R684.7 文献标识码:A 文章编号:1004-406X(2019)-09-0782-09

The manifestation and imaging characteristics of the chronic atlantoaxial rotatory fixation or dislocation/YAN Ming, WANG Chao, WANG Shenglin/Chinese Journal of Spine and Spinal Cord, 2019, 29 (9): 782-790

【Abstract】 Objectives: To investigate the clinical and radiographic features of patients with chronic atlantoaxial rotatory fixation or dislocation(AARF/AARD), and to explore the diagnosis and treatment experience. **Methods:** A series of 52 cases were diagnosed and treated in our hospital from September 2004 to February 2017, including 23 males and 29 females, with the mean age of 11.04 years and the mean course of 6 month. The clinical materials and images of the patients were all reviewed. 32 patients had a clear cause, of which 18 had a history of minor trauma to the neck. All patients had torticollis, diminished range of the rotatory motion and neck pain. Only 3 patients had minor neurological deficit. The anterior atlantoid space(ADI) was measured on imaging materials in all patients, the rotation and dislocation directions of atlantoaxial mass joints were observed. According to the classification on the basis of imaging findings, different treatment

第一作者简介:男(1963-),主任医师,医学博士,研究方向,脊柱外科

电话:(010)82267372 E-mail:yanm2195@163.com

methods and outcomes were explored. **Results:** According to ADI and atlantoaxial rotatory displacement on X ray and CT, imaging types were divided into three: the first was atlantoaxial rotatory fixation (AARF) with normal ADI and two sides of the lateral mass displacing to anterior and posterior respectively (Type A); the second was atlantoaxial rotatory dislocation(AARD) with abnormal ADI(more than 5mm) and two sides of the lateral mass displacing in different directions and degrees respectively(Type B); the third was occipital-atlanto-axial rotatory dislocation(OAARD) with abnormal ADI(Type C). There were 7 cases of AARF, 44 cases of AARD and 1 case of OAARD. Four cases with AARF healed by traction and collar; 3 cases with AARF were treated with halo vest fixation combined with surgical fusion, the mean course of AARF was 3 months. All cases with AARD were treated with surgical internal fixation and fusion, the mean course of AARD was 6 months. One case with OAARD failed to reduction and gave up the treatment. **Conclusions:** AARF/AARD mostly occurred in children. Patients of type A has shorter course than patients of type B, and may healed by conservative therapy. Meanwhile, patients of type B need surgical reduction and fusion, but no therapeutic experience of OAARD was obtained. Moreover, the imaging characteristics in the study were more comprehensive than previous classification.

[Key words] Atlantoaxial; Rotatory fixation; Rotatory subluxation; Grisel's syndrome

[Author's address] Peking University Third Hospital, Beijing, 100191, China

寰枢关节旋转固定(atlantoaxial rotatory fixation, AARF)主要发病于儿童^[1],发病前骨关节及其连接结构是正常的。发病的诱因多种多样,多见于轻微的颈部外伤和耳鼻咽喉或口腔周围感染(Grisel 综合征)^[2-8]。发病的急性期,表现为寰枢旋转运动学异常,即寰椎相对于枢椎旋转至一定位置后不能回复至原位,出现了“绞锁”现象,即旋转固定状态^[9-13],并没有出现关节面之间“脱位”,但很多文献称之为寰枢旋转半脱位(atlantoaxial rotatory subluxation, AARS)^[7-9, 14-16]。临床表现为斜颈,颈痛和颈部活动受限。如果没有及时“解锁复位”,延误超过 4 周以上到了慢性期,会逐渐出现寰枢侧块关节面变形、关节脱位和脊髓受压等,外观上除了斜颈外,还会逐渐出现面部发育不对称等美容学方面的问题,在治疗上增加了“复位和维持复位”的难度,甚至需要手术复位和内固定融合寰枢关节^[14, 15, 17-19]。几乎所有学者都认为治疗的及时程度对本病的预后有着重要的影响,为了有助于治疗方法的选择,提出各种分期或分型。如发病 1 个月以内为急性期,1~3 个月为亚急性期,3 个月以上为慢性期。有学者认为超过 4 周就属于慢性期^[12, 14, 17, 20, 21]。Feilding 分型是应用最广泛的分型,包括了旋转固定和旋转固定性脱位^[22]。Pang 等对旋转固定进行了深入研究,根据“复位”的难易程度提出了分型^[10-13],但没有谈及旋转脱位方面的问题。笔者就我院经治病例的资料进行了总结,提出自己的见解,为本病的深入研究提供参考文献。

1 资料与方法

1.1 一般资料

2004 年 9 月~2017 年 2 月,共 52 例慢性寰枢关节旋转固定或脱位患者在我院诊治,男 23 例,女 29 例,年龄 5~17 岁(平均 11.04 ± 2.73 岁),38 例在 7~12 岁之间,50 例在 7~15 岁之间。49 例记录了病程时间,即发病至到我院就诊时间是 2~18 个月(平均 6.0 ± 3.2 个月)。27 例院前经过各种治疗如按摩、牵引、支具或颈围领制动。患者均有斜颈、颈部疼痛和活动受限。仅 3 例有轻微神经损害,表现为肢体无力。

1.2 发病诱因

20 例病因不明,32 例有明确发病诱因,其中颈部轻微外伤史 18 例(包括早晨睡醒后起床动作后 8 例、颈部扭伤后 7 例、张口用力哈气后 1 例、长时间低头写作业后 2 例);其他部位手术后 7 例(包括锁骨骨折局麻手术 1 例、颈部浅表肿瘤切除 3 例、耳部手术 1 例、扁桃体手术 1 例、甲状腺手术 1 例等,术中头部处于旋转体位);耳鼻咽喉周围炎症 5 例(包括感冒期间突然扭头后 1 例、带状疱疹 1 例、口腔感染 1 例、腮腺炎 2 例);强直性脊柱炎 2 例。

1.3 观测指标及方法

完整收集并仔细阅读患者的影像学资料,包括颈椎动力位 X 线片、CT 平扫及重建和 MRI 检查。根据 X 线片中立侧位和 CT 横截面测量寰齿前间隙(ADI),通过 CT 横截面和矢状位重建观察寰枕关节、寰枢侧块关节和寰枢椎侧块间的位置

关系。记录每一位患者的病程与对应的影像学表现。根据影像学测量及观测结果对患者进行分类,并总结分类情况与治疗效果间的关系。结果由 3 位研究者共同认定。

2 结果

2.1 影像表现

通过 X 线平片观察发现,所有都出现寰椎向前下方倾斜、寰枢椎间后凸畸形,寰椎侧块旋转移位较重的患者同时合并侧方移位和侧倾。用侧位片测量寰齿前间隙 (ADI),7 例 $ADI < 5\text{mm}$, 其余 45 例 $ADI > 5\text{mm}$ 。在 MRI 观察到 45 例 $ADI > 5\text{mm}$ 的患者均有高位颈脊髓受压的表现,但仅 3 例有轻微临床症状。CT 可以更加详细、准确地观察到局部变化,笔者将在横断面和矢状面重建影像观察到的特征归类如下。

A 类:寰枢关节旋转固定(atlanto-axial rotatory fixation, AARF), $ADI < 5\text{mm}$, 一侧寰椎侧块向前移位,另一侧后移位(图 1)。共 7 例,病程时间分别是 2、5、7 个月各 1 例,3 个月 4 例,平均 3.71 ± 1.58 个月。

B 类:寰枢关节旋转脱位(atlanto-axial rotatory dislocation, AARD), $ADI > 5\text{mm}$, 寰椎两侧侧

块与枢椎侧块的位置关系有 3 种情况:B1, 一侧寰椎侧块向前脱位,另一侧原位(图 2),共 11 例,病程时间分别是 2、3、10 个月各 1 例,4、6、7、12 个月各 2 例,平均 6.64 ± 3.28 个月;B2, 一侧寰椎侧块向前脱位,另一侧向后脱位(图 3),共 24 例,有 23 例记载病程时间,分别是 2、7、9、12 个月各 1 例,3 个月 4 例,4 个月 3 例,5 个月 2 例,6、8 个月各 5 例,平均 5.83 ± 2.39 个月;B3, 双侧寰椎侧块不对称性向前脱位,两侧轻重有别(图 4),共 9 例,有 7 例记载病程时间,分别是 5、9、12、18 个月各 1 例,6 个月 3 例,平均 8.86 ± 4.36 个月。

C 类:枕寰枢关节旋转脱位(occipital-atlanto-axial rotatory dislocation, OAARD), $ADI > 5\text{mm}$, 寰枢关节旋转脱位合并寰枕关节反向旋转脱位(图 5),共 1 例,病程 4 个月。

2.2 不同分类患者的治疗方法

(1)枕颌带或颅骨牵引,共 5 例;其中 4 例是 A 类,1 例是 C 类。4 例 A 类患者发病后未采取任何治疗措施,入院后 3 例(发病 3 个月)经颅骨牵引复位后,根据患者的耐受程度继续维持牵引 2~3 周,再用颈围领固定 1 个月;另 1 例(发病 2 个月)经枕颌牵引复位后继续维持牵引 4 周,再用颈围领固定 1 个月;这 4 例 A 类患者经过治疗后随

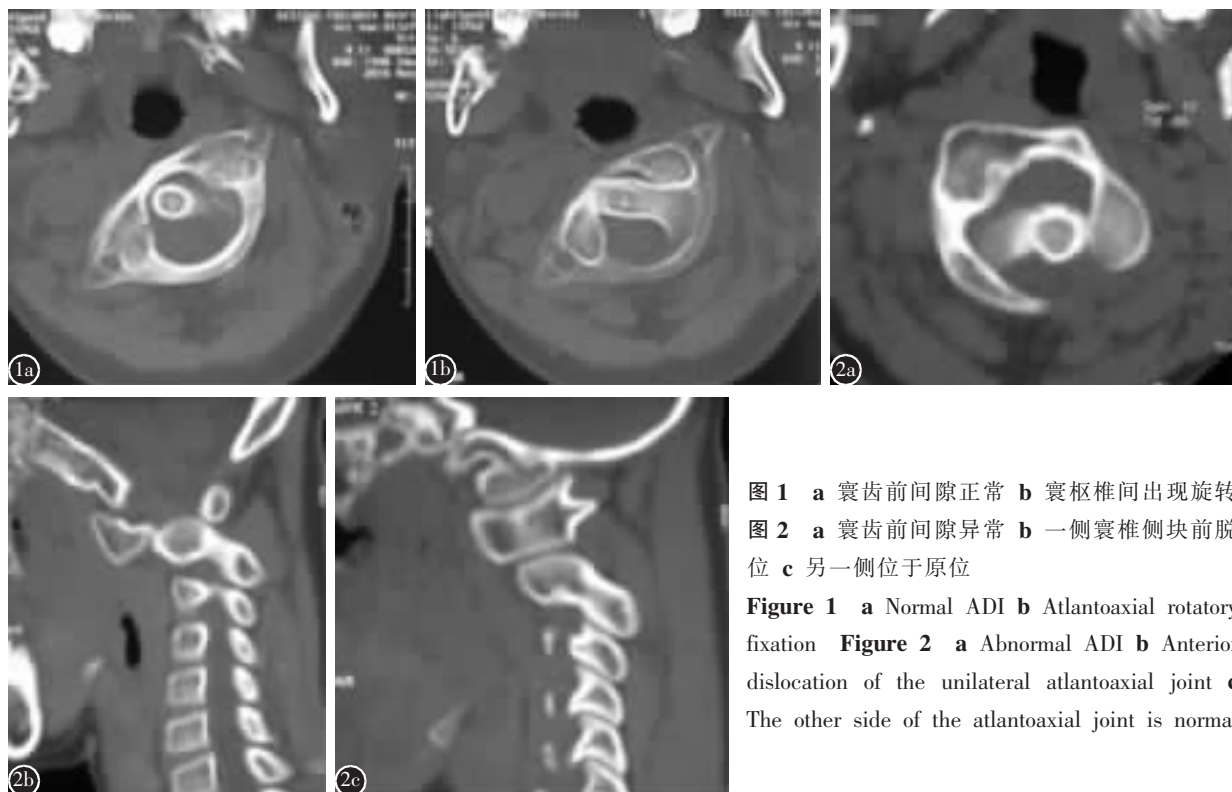


图 1 a 寰齿前间隙正常 b 寰枢椎间出现旋转
图 2 a 寰齿前间隙异常 b 一侧寰椎侧块前脱位 c 另一侧位于原位

Figure 1 a Normal ADI b Atlantoaxial rotatory fixation
Figure 2 a Abnormal ADI b Anterior dislocation of the unilateral atlantoaxial joint c The other side of the atlantoaxial joint is normal

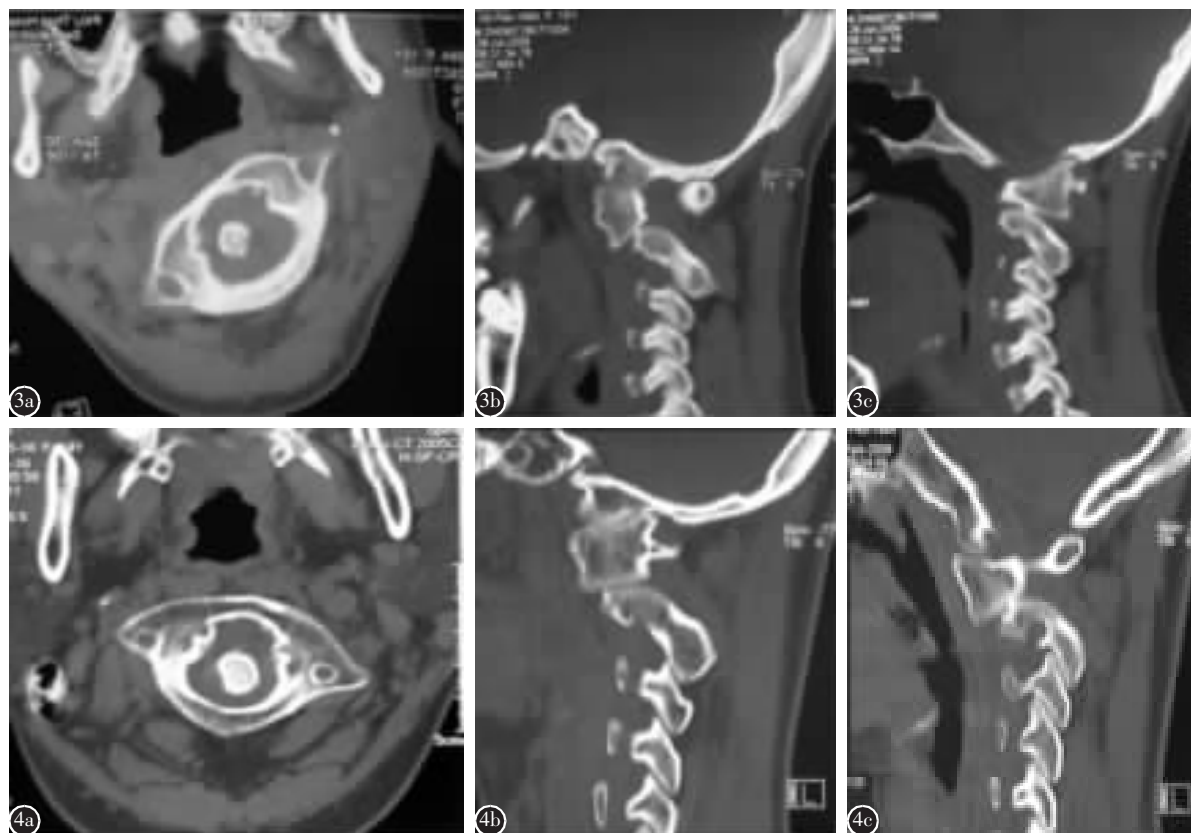


图 3 a 寰齿前间隙异常 b 一侧寰椎侧块前脱位 c 另一侧后脱位 图 4 a 寰齿前间隙异常 b、c 双侧寰椎侧块不对称性前脱位

Figure 3 a Abnormal ADI b anterior dislocation of one side lateral mass of atlas c posterior dislocation of the other side **Figure 4** a Abnormal ADI b, c anterior dislocation of bilateral lateral mass of atlas

访 12 个月,完全治愈。1 例 C 类患者发病 4 个月,轻微斜颈、颈痛和活动受限明显,入院后经颅骨牵引 5d(4kg)后增加至 6kg 继续牵引 1 周,患者不能坚持牵引,复位失败,患者和家属放弃治疗,1 年电话追访临床症状无变化,未获得随访影像资料。

(2) 颅骨牵引复位,维持牵引 2 周,安装 Halovest 外固定,然后全麻下手术,术中取髂后松质骨,剪成碎骨粒植于寰椎后弓与枢椎椎板棘突间,术后维持 Halovest 外固定 3 个月,直至骨性融合后去除外固定,均获成功骨性融合(图 6)。共 3 例 A 类患者接受了这种治疗方法。这 3 例患者入院前都有经过颅骨牵引或较长时间外固定治疗后失败的经历,入院后担心保守治疗后再失败,采用融合治疗。

(3) 全麻后颅骨牵引下复位,后路寰椎侧块枢椎椎弓根螺钉钛板固定、髂后取骨植骨融合术,共 26 例,其中 B1 类 7 例,B2 类 17 例,B3 类 2 例。

这些患者术中通过颅骨牵引或内固定装置都可获得复位,随访至术后 4 个月,均获成功骨性融合(图 7)。

(4) 全麻颅骨牵引下,经口咽入路松解复位寰枢关节、后路寰椎侧块枢椎椎弓根螺钉钛板固定、髂后取骨植骨融合术,共 18 例,B1 类 4 例,B2 类 7 例,B3 类 7 例。这些患者属于难复性脱位,需要经口咽松解寰枢关节才能获得满意复位,随访至术后 4 个月,均获骨性融合。

2.3 分类与治疗方式的选择

A 类 7 例:4 例牵引治愈;3 例外固定下手术融合寰枢关节。B1 类 11 例:7 例钉板内固定融合、4 例经口咽松解复位钉板内固定融合寰枢关节。B2 类 24 例:17 例钉板内固定融合、7 例经口咽松解复位钉板内固定融合寰枢关节。B3 类 9 例:2 例钉板内固定融合、7 例经口咽松解复位钉板内固定融合寰枢关节。C 类:1 例颅骨牵引复位失败,放弃治疗。

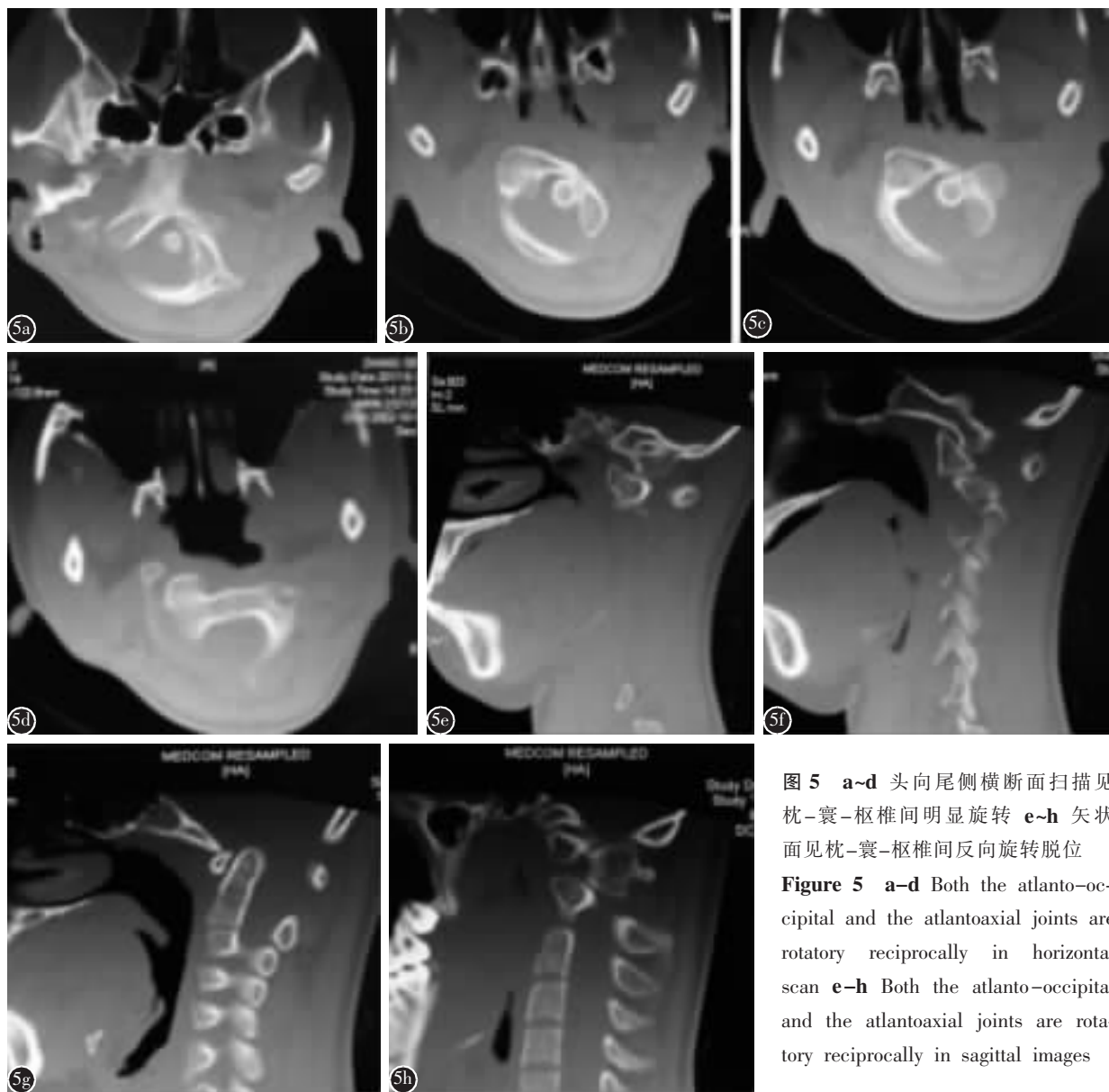


图 5 a~d 头向尾侧横断面扫描见枕-寰-枢椎间明显旋转 e~h 矢状面见枕-寰-枢椎间反向旋转脱位

Figure 5 a~d Both the atlanto-occipital and the atlantoaxial joints are rotatory reciprocally in horizontal scan e~h Both the atlanto-occipital and the atlantoaxial joints are rotatory reciprocally in sagittal images

3 讨论

寰枢关节旋转固定是儿童斜颈的常见原因,表现为头侧倾、下颌转向对侧(即 cock robin 位),伴有颈痛和颈部活动受限^[1,2,7-9]。这些患者的骨关节结构在发病前是完全正常的。发病诱因多种多样,如颈部轻微外伤、口咽和上呼吸道感染、头颈部手术等^[2-10]。由于就诊时间对治疗方法选择、疗效和预后影响很大,因此早诊早治非常重要。及早发现,处理方法简单,效果良好,不留任何后遗症,若早期没有重视或未得到恰当治疗,会使治疗变得复杂,疗程延长,甚至需要做寰枢椎间融合手术。慢性期患者如果斜颈没有尽快纠正,会影响面骨发育和牙齿的生长,出现面部不对称、牙齿咬合

欠佳等美容学方面的问题。如果病情发展,出现寰枢关节旋转脱位,会压迫脊髓或牵拉枕大神经出现神经损害的表现,需要手术复位内固定融合寰枢关节^[16,20-26]。

3.1 病因

寰枢关节旋转固定发病前的相关原因有多种多样,大致有三个方面:第一,Grisel 综合征^[2-6],即口咽或上呼吸道感染如扁桃体炎、中耳炎、口咽溃疡、感冒等,这是文献最早报道引起寰枢关节旋转固定的原因,本组 5 例;第二,颈部轻微扭伤或撞伤后^[8,9,15,19,27],本组 18 例,发生于锁骨骨折后的报道并不罕见;第三,头颈部术后,本组 7 例。另外,强直性脊椎炎患者易发,本组 2 例。

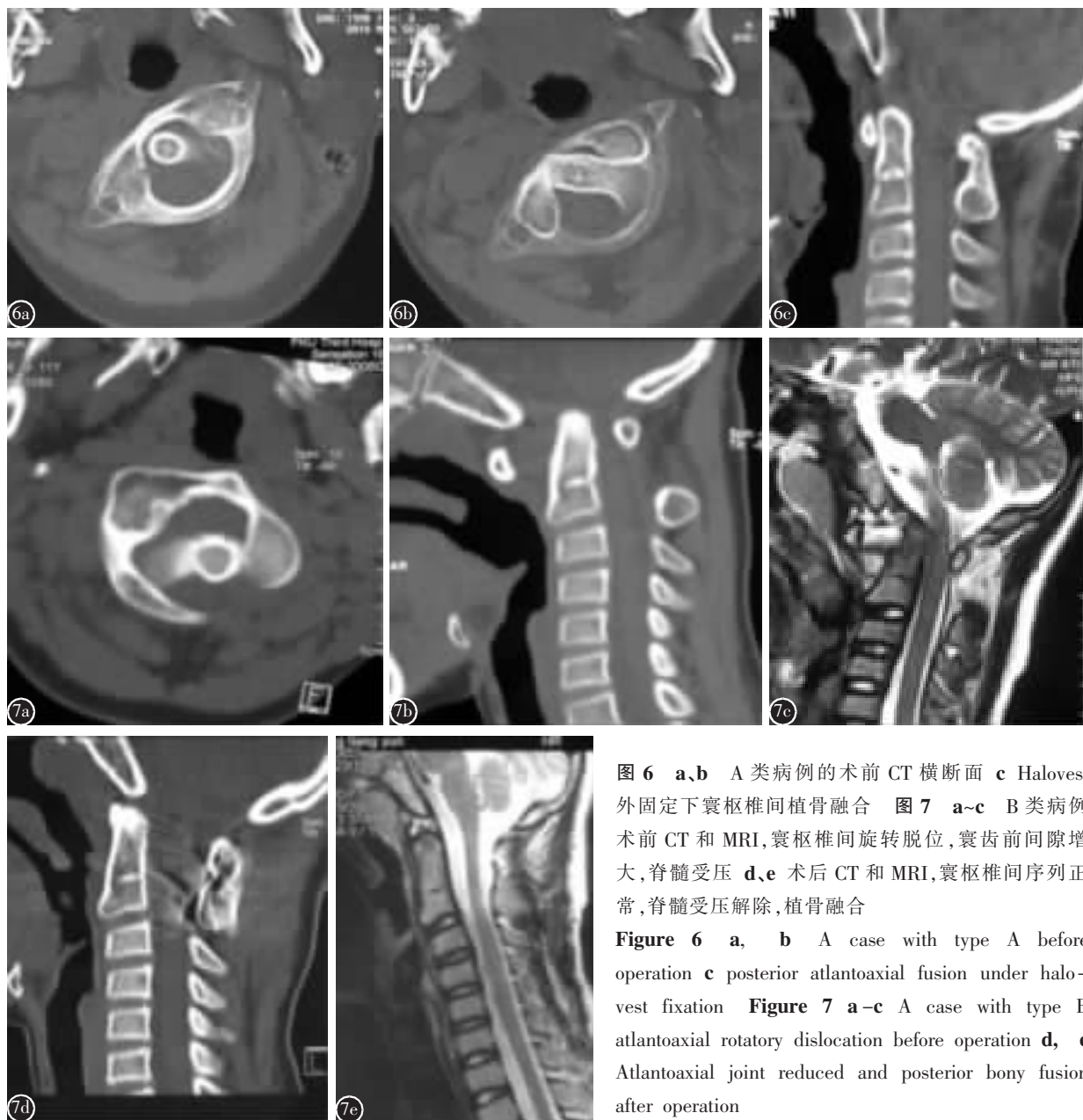


图 6 a,b A 类病例的术前 CT 横断面 c Halovest 外固定下寰枢椎间植骨融合 图 7 a~c B 类病例术前 CT 和 MRI,寰枢椎间旋转脱位,寰齿前间隙增大,脊髓受压 d,e 术后 CT 和 MRI,寰枢椎间序列正常,脊髓受压解除,植骨融合

Figure 6 a, b A case with type A before operation c posterior atlantoaxial fusion under halo-vest fixation Figure 7 a~c A case with type B atlantoaxial rotatory dislocation before operation d, e Atlantoaxial joint reduced and posterior bony fusion after operation

3.2 发病机制

早期有人认为感染性炎症通过咽椎之间静脉或淋巴吻合丛波及骨关节,导致韧带骨性附着点脱钙,失去稳定作用,引起关节出现旋转和脱位。随着病例的积累,不仅口咽鼻周围感染可以致病,颈部外伤、尤其轻微外伤致病的患者也越来越多,“脱钙说”不能完全解释其发病机制,发病过程可能有关节内和关节外因素^[3,4,8,9,22,27]。“关节内”学说认为儿童的关节滑膜非常丰富,感染性或损伤性炎症反应波及寰枢或寰枕关节后,出现滑膜充血、水肿和肥大,形成滑膜皱襞嵌入关节间隙,引起关节“绞锁”,阻碍关节活动。另有人研究发现儿

童寰枢和寰枕关节滑膜有着成人没有的、类似半月板样结构伸入关节间隙,炎性反应可以促其肥大^[28]。儿童头/体比重大,寰枢侧块关节稳定性差,易受损伤。“关节外”学说认为,炎性反应引起寰枢关节周围的肌肉持续痉挛,使得寰枢椎之间处于固定旋转状态,旋转活动受到限制,甚至出现旋转侧寰椎侧块突破关节囊,呈“纽扣孔”样绞锁,直至关节周围软组织挛缩,甚至骨结构出现变形^[28-30]。

3.3 分型探讨

迄今有关寰枢关节旋转固定或脱位的文献中,引用最多的分型是 Feilding 分型,是基于 17 例患者的 X 线片分型^[22],分 I 型、II 型、III 型和 IV

型。随着 CT 和 MRI 的出现,尤其多维 CT 重建影像准确地呈现了这一疾病的病理表现,Feilding 分型的不足之处显而易见。第一,Ⅳ型是齿突破坏或断裂的情况下出现寰椎后脱位,在寰枢关节旋转固定的患者中几乎不存在,因此作者认为不应该将其归在 AARF 的分型中;第二,正常成人的寰齿前间隙 $<2\text{mm}$ 、儿童 $<5\text{mm}$,Feilding Ⅱ型中寰齿前间隙 $3\sim 5\text{mm}$,这一数值对成人来说有重要意义,如果 $>3\text{mm}$,表明寰椎横韧带松弛或断裂,对儿童来说寰齿前间隙 $<5\text{mm}$ 属于正常,即对于儿童来说的寰齿前间隙 $<5\text{mm}$ 表明寰椎横韧带是正常的,由于寰枢关节旋转固定的患者绝大多数是儿童,在 ADI $3\sim 5\text{mm}$ 的情况下,作者认为Ⅰ型(寰齿前间隙 $<3\text{mm}$)和Ⅱ型之间的区别对儿童来说没有任何意义;第三,Feilding Ⅲ型是指 ADI $>5\text{mm}$ 、双侧寰椎侧块向前脱位,从我们的患者资料看,大多数 ADI $>5\text{mm}$ 的患者不是双侧前脱位,而是寰椎一侧侧块前脱位、另一侧侧块在原位或者后脱位,这种情况与 Feilding Ⅲ型明显不符合;第四,少部分 AARF/D 的患者并发寰枕关节脱位,而 Fielding 分型中并未包括此种情况。关于寰枢关节旋转固定或脱位后,出现寰枕关节代偿性松弛和活动范围增大,甚至出现寰枕关节脱位的报道不多^[11,30-34],鲜有关于其预后的报道,还没有引起足够的重视,本文病例中就有 1 例,因此有学者曾对 Fielding 分型的全面性提出过质疑^[27,35]。作者认为应该将其纳入其中。

Pang 等^[10-13]对寰枢关节旋转固定(AARF)的深刻研究结果,对学术界产生了重要的影响。他详细研究了寰枢关节旋转运动力学,并提出了相关分型,共分Ⅰ型、Ⅱ型、Ⅲ型和 DGZ(诊断灰区)4 组类型,包括了急性和慢性病例,但其分型依据是旋转固定的病程和“复位”(实际上就是“解锁”)的难易程度,并没有展示寰枢关节旋转固定后期出现脱位的病例,在分型中也没有关于脱位的论述,因此可以认为 Pang 分型只是对 Feilding 分型中Ⅰ型和Ⅱ型的细化,没有涉及脱位的问题。因此,理想的分型应该是将 Pang 分型和本文提出的影像特征综合在一起。

寰椎横韧带和翼状韧带是颅椎区重要的稳定结构。寰椎横韧带完整时,儿童寰齿前间隙 $<5\text{mm}$,成人 $<2\text{mm}$ 。翼状韧带的正常长度是 $11\sim 13\text{mm}$,翼状韧带限制寰枢之间过度旋转^[36]。正常情况下,寰

枢椎间的最大旋转角度 $<45^\circ$,如果 $>56^\circ$,寰枢侧块关节面几乎失去了接触^[10,27]。通过复习文献和本文总结的病例,根据病程和病情发展,AARF/D 分为 2 个阶段:第一,旋转固定阶段(AARF),寰枢椎之间处于旋转固定状态,表现为寰椎相对于枢椎旋转至一定位置后不能回复原位,寰枢椎骨之间并未“脱位”,并未超出正常允许的最大活动范围。如本组病例的 A 类患者,寰齿前间隙正常,说明寰椎横韧带和翼状韧带完整,寰枢之间的稳定性好,此时治疗的目标是“解锁”,即解除旋转固定状态,恢复正常旋转运动,早期患者都在这一阶段,也包括部分慢性期患者;第二阶段,长时间旋转移位逐渐发展为寰枢关节脱位(AARD),寰椎的一侧侧块明显脱离枢椎侧块,脱向枢椎前下方,寰椎整体向前下方倾斜,寰枢椎之间出现明显后凸,另一侧寰椎侧块向后脱位或者双侧不对称性向前脱位,寰齿前间隙明显增大,齿状突尖与枕骨髁之间距离(即翼状韧带的长度)明显变大,说明寰椎横韧带和翼状韧带都已经失去了稳定作用,此时的治疗目标除了“解锁复位”,恢复寰枢椎之间的正常对合关系,还要稳定寰枢关节,将寰枢关节融合,这一阶段都是慢性期患者,即本文的 B 类患者。就目前对这一疾病的认识水平而言,本研究的 B 类患者都采取了寰枢复位和固定融合的方法,至于 B 类的各亚类与 A 类和 C 类之间的病理生理关系、各型的病理解剖学差别、对相邻关节如寰枕关节和下颈椎的近期和远期影响、对治疗方法的指导改良作用,以及目前统一采取复位和固定融合后的治疗结果还有待于进一步研究观察。关于本文所见的 C 类,因既往文献报道较少,多认为是慢性寰枢旋转固定或脱位的代偿性表现,有的作者采用寰枢固定融合,有的作者采用枕颈固定融合,无最终随访结果,对治疗方法的选择和结果没有参考意义。

3.4 早期治疗的必要性

早期患者发病在 4 周之内,寰枢关节的稳定结构是正常的,此时的治疗目标是将旋转固定状态的寰枢椎“解锁”,使其恢复正常的旋转运动力学状态,往往通过牵引,即刻或很快获得“解锁复位”,其后依患儿的耐受程度,尽可能维持一段时间牵引。牵引结束后用颈围领或支具制动 4 周左右,辅用镇痛消炎和解痉药物,可以使患者获得痊愈^[2,4,8-10,15,20,22]。如果诊治时间延误,到了慢性阶

段,尤其病史 3 个月以上,复位或维持复位变得困难,如果影像表现寰齿前间隙正常,其稳定结构如寰椎横韧带、翼状韧带是完整的,仍有闭合复位治愈的机会,应努力争取闭合复位,避免融合手术,但需要长时间颅骨牵引和外固定^[14-17,19,21,22,25,26],患者需要付出较长的治疗时间。即使如此,少部分患者仍有可能“解锁”失败或病情反复,最终需要手术“复位”并融合关节。本文共 7 例 A 类慢性患者,4 例入院前未经过任何治疗,入院后通过保守治疗痊愈;另 3 例患者入院前都经过牵引和外固定等保守治疗,结果失败,入院后通过牵引“复位”后行外固定(Halovest)下融合术,其优点是无内固定置入并发症之忧,骨性融合后无须再次手术取出内固定物,但必须在外固定期间、骨性融合之前能够始终保持“复位”状态。对寰齿前间隙超过正常范围的慢性病例,发展到 AARD 阶段,即使通过各种方法闭合复位成功,由于寰枢椎间的稳定结构(寰椎横韧带和翼状韧带)失效,寰枢关节失去了稳定性,需要手术融合寰枢关节^[4,7-10,13,19,22,23]。尽管 B 类患者个别病例没有完全纠正寰枢椎间旋转移位,但均获得骨性融合。各亚类间尽管影像学表现不同,但从治疗策略选择上来说,没有差别,都需要施行复位和内固定融合术,每个亚类中都有难复性脱位病例,就复位的难易程度而言,因病例相对较少,各亚类间无可比性。内固定方法是相同的。如果出现了寰枕关节的代偿性脱位或半脱位(OAARD)^[31-34],更增加了治疗的复杂性和不确定性。既往文献报道 OAARD 的病例较少,可能漏诊了一部分患者。寰枕关节的脱位增加了寰枢关节复位的难度,治疗方法和理念也有明显不同,也无最终治疗结果的后续报道^[34]。

4 参考文献

- Herman MJ, Wolg M. Pediatric orthopaedics. Torticollis in children[J]. Current Orthopaedic Practice, 2013, 24(6): 598-603.
- Spiegel D, Shrestha S, Sitoula P, et al. Atlantoaxial rotatory displacement in children[J]. World J Orthop, 2017, 8(11): 836-845.
- Mathern GA, Atzendorf U. Grisel's syndrome: cervical spine clinical, pathologic, and neurologic manifestations [J]. Clin Orthop Relat Res, 1989, 244: 131-146.
- Osiro S, Tiwari KJ, Matusz P, et al. Grisel's syndrome: a comprehensive review with focus on pathogenesis, natural history, and current treatment options [J]. Childs Nerv Syst, 2012, 28: 821-825.
- Karkos PD, Benton J, Leong SC, et al. Grisel's syndrome in otolaryngology: a systematic review[J]. Int J Pediatr Otorhinolaryngol, 2007, 71(12): 1823-1827.
- Reichman EF, Shah J. Grisel syndrome: an unusual and often unrecognized cause of torticollis[J]. Pediatr Emer Care, 2015, 31(8): 577-580.
- Powell EC, Leonard JR, Olsen CS, et al. Atlantoaxial rotatory subluxation in children[J]. Pediatr Emer Care, 2017, 33(2): 86-91.
- Kinon MD, Nasser R, Nakhla J, et al. Atlantoaxial rotatory subluxation: a review for the pediatric emergency physician[J]. Pediatric Emergency Care, 2016, 32(10): 710-716.
- Neal KM, Mohamed AS. Atlantoaxial rotatory subluxation in children[J]. J Am Acad Orthop Surg, 2015, 23(6): 382-392.
- Pang D. Atlantoaxial rotatory fixation[J]. Neurosurgery, 2010, 66(3): 161-183.
- Pang D, Li V. Atlanto-axial rotatory fixation: part I: biomechanics of normal rotation at the atlanto-axial joint in children[J]. Neurosurgery, 2004, 55(3): 614-626.
- Pang D, Li V. Atlanto-axial rotatory fixation: part II: new diagnostic paradigm and a new classification based on motion analysis using computed tomographic imaging[J]. Neurosurgery, 2005, 57(5): 941-953.
- Pang D, Li V. Atlanto-axial rotatory fixation: part 3: a prospective study of the clinical manifestation, diagnosis, management and outcome of children with atlantoaxial rotatory fixation[J]. Neurosurgery, 2005, 57(5): 954-972.
- Ishii K, Matsumoto M, Momoshima S, et al. Remodeling of C2 facet deformity prevents recurrent subluxation in patients with chronic atlantoaxial rotatory fixation[J]. Spine, 2011, 36(4): E256-E262.
- Harms J, Ruf M, Stoltze D. Diagnosis and treatment of the missed atlantoaxial rotatory subluxation of C1/C2. Poster presented at the Cervical Spine Research Society Annual Meeting[C]. Seattle, 1999, September. 22-25.
- Jeszenszky D, Fekete T, Kleinstuck F, et al. Transoral closed reduction of fixed atlanto-axial rotatory subluxation (AARS) in childhood and adolescence[J]. Clin Spine Surg, 2018, 31(5): E252-E256.
- Ishii K, Toyamak Y, Nakamura M, et al. Management of chronic atlantoaxial rotatory fixation[J]. Spine, 2012, 37(5): E278-E285.
- Tauchi R, Imagama S, Kanemura T, et al. The treatment of refractory atlanto-axial rotatory fixation using a halo vest: results of a case series involving seven children [J]. J Bone Joint Surg Br, 2011, 93(8): 1084-1087.
- Weisskopf M, Naeve D, Ruf M, et al. Therapeutic options and results following fixed atlantoaxial rotatory dislocations[J]. Eur Spine J, 2005, 14(1): 61-68.
- Mihara H, Onari K, Hachiya M, et al. Follow-up study of

- conservative treatment for atlantoaxial rotatory displacement [J]. *J Spinal Disord*, 2001, 14(6): 494-499.
21. Glotzbecker MP, Wasser AM, Hresko MT, et al. Efficacy of nonfusion treatment for subacute and chronic atlanto-axial rotatory fixation in children[J]. *J Pediatr Orthop*, 2014, 34(5): 490-495.
 22. Fielding JW, Hawkins RJ. Atlanto-axial rotatory fixation. (Fixed rotatory subluxation of the atlanto-axial joint)[J]. *J Bone Joint Surg Am*, 1977, 59(1): 37-44.
 23. Wang SL, Yan M, Passias PG, et al. Atlantoaxial rotator y fixed dislocation[J]. *Spine*, 2016, 41(12): E725-E732.
 24. Crossman JE, David K, Hayward R, et al. Open reduction of pediatric atlantoaxial rotatory fixation: long-term outcome study with functional measurements [J]. *J Neurosurg*, 2003, 100(3 Suppl Spine): 235-240.
 25. Chazono M, Saito S, Liu K, et al. Continuous skull traction followed by closed reduction in chronic pediatric atlantoaxial rotatory fixation[J]. *Acta Neurochir*, 2011, 153(7): 1443-1445.
 26. Matsumoto Y, Mizutani J, Suzuki N, et al. Temporary internal fixation using C1 lateral mass screw and C2 pedicle screw (Goel-Harms technique) without bone grafting for chronic atlantoaxial rotatory fixation[J]. *World Neurosurgery*, 2017, 102: 696.
 27. Roche CJ, O'Malley M, Dorgan JC, et al. A pictorial review of atlanto-axial rotatory fixation: key points for the radiologist[J]. *Clin Radiol*, 2001, 56(12): 947-958.
 28. Kawabe N, Hirotani H, Tanaka O. Pathomechanism of atlantoaxial rotatory fixation in children [J]. *J Pediatr Orthop*, 1989, 9(5): 569-574.
 29. Hosono N, Yonenobu K, Tada K, et al. Lateral atlantoaxial joint arthrography in atlantoaxial rotatory fixation[J]. *J Spinal Disord Tech*, 2003, 16(2): 216-220.
 30. Ono K, Yonenobu K, Fuji T, et al. Atlantoaxial rotatory fixation, radiographic study of its mechanism[J]. *Spine*, 1985, 10(7): 602-608.
 31. Fusco MR, Hankinson TC, Rozzelle CJ. Combined occipitoatlantoaxial rotatory fixation[J]. *J Neurosurg Pediatr*, 2011, 8(2): 198-204.
 32. Clark CR, Kathol MH, Walsh T, et al. Atlantoaxial rotatory fixation with compensatory counter occipitatlantal subluxation[J]. *Spine*, 1986, 11(10): 1048-1050.
 33. Shehan H, Chou N, Ian S. Nontraumatic atlantooccipital and atlantoaxial rotatory subluxation: case report[J]. *Neurosurgery*, 1998, 43(1): 162-164.
 34. Kashii M, Masuhara K, Kaito T, et al. Rotatory subluxation and facet deformity in the atlanto-occipital joint in patients with chronic atlantoaxial rotatory fixation: two case reports[J]. *J Orthop Case Rep*, 2017, 7(6): 59-63.
 35. Erman T, Gezeran Y. Is the fielding classification system enough for managing atlantoaxial rotatory dislocation?[J]. *Neurosurg Q*, 2013, 23(3): 145-147.
 36. Dvorak J, Panjabi MM. Functional anatomy of the alar ligament[J]. *Spine*, 1987, 12(2): 183-189.

(收稿日期:2019-05-21 修回日期:2019-09-06)

(英文编审 唐翔宇/谭 啸)

(本文编辑 彭向峰)