

Caso Clínico

Subluxación atlantoaxial en artritis reumatoidea. Resolución por odontoidectomía endonasal endoscópica y fusión e instrumentación por abordaje posterior. Reporte de caso

Atlantoaxial subluxation in rheumatoid arthritis. Resolution by endoscopic endonasal odontoidectomy and fusion and instrumentation by posterior approach. Case report

José Kuzli¹

Pablo Maidana¹

Diego Servián¹

Javier Labín¹

Gustavo Duré¹

Gabriel Estigarribia¹

Kamila Prieto¹

¹Ministerio de Salud Pública y Bienestar Social, Centro Médico Nacional-Hospital Nacional, Departamento de Neurología, Servicio de Neurocirugía. Itauguá, Paraguay


Editor responsable: Ángel Ricardo Rolón Ruíz Díaz. Ministerio de Salud Pública y Bienestar Social, Centro Médico Nacional-Hospital Nacional. Itauguá, Paraguay

Revisor 1: Carlos Feltes. Sociedad Paraguaya de Neurocirugía. Asunción, Paraguay.

Revisor 2: Elio Arnaldo Marín. Instituto de Previsión Social, Hospital Central “Dr. Emilio Cubas”. Asunción, Paraguay.

Autor de Correspondencia: José Kuzli. Ministerio de Salud Pública y Bienestar Social, Centro Médico Nacional-Hospital Nacional, Departamento de Neurología, Servicio de Neurocirugía. Itauguá, Paraguay. Correo electrónico: kuzlipy1976@gmail.com

Artículo recibido: 01 de abril de 2024. **Artículo aprobado:** 21 de mayo de 2024

 Este es un artículo de acceso abierto, distribuido bajo los términos de [Licencia de Atribución Creative Commons](https://creativecommons.org/licenses/by/4.0/), que permite uso, distribución y reproducción en cualquier medio, siempre que se acredite el origen y la fuente originales.

Como citar este artículo: Kuzli J, Maidana P, Servián D, Labín J, Duré G, Estigarribia G, et al. Subluxación atlantoaxial en artritis reumatoidea. Resolución por odontoidectomía endonasal endoscópica y fusión e instrumentación por abordaje posterior. Reporte de caso. Rev. Nac. (Itauguá). 2024;16(2):145-154.

RESUMEN

La subluxación atlantoaxial es la lesión más frecuente en la columna cervical causada por la artritis reumatoidea. Se manifiesta por rigidez de nuca, dolor cervical y déficit neurológico. El diagnóstico se realiza con tomografía computarizada e imágenes de resonancia magnética. El intervalo atlanto dental anterior mayor a 5mm indica inestabilidad atlantoaxial, el intervalo atlanto dental posterior menor a 14mm advierte riesgo neurológico. Las indicaciones más frecuentes de cirugía son: dolor cervical severo, inestabilidad y síntomas de mielopatía. Cuando existe compresión medular es necesaria la descompresión cervical alta sea por vía posterior o por vía anterior (odontoidectomía endonasal versus transoral). La línea rinopalatina nos indicará la factibilidad de una odontoidectomía endonasal endoscópica. El objetivo de la presentación del presente caso es compartir nuestra experiencia con la primera odontoidectomía endonasal endoscópica realizada en nuestro país y fomentar la utilización de la técnica. La cirugía fue realizada en un paciente con cuadriparesia espástica por subluxación atlantoaxial por artritis reumatoidea y que presentó excelente evolución pos operatoria, con recuperación casi completa. La odontoidectomía endonasal endoscópica es una técnica operatoria mínimamente invasiva, ideal para pacientes con múltiples comorbilidades y que ofrece de buenos a excelentes resultados.

Palabras clave: artritis reumatoide cervical, odontoidectomía endonasal endoscópica, subluxación atlantoaxial, inestabilidad atlantoaxial.

ABSTRACT

Atlantoaxial subluxation is the most common injury to the cervical spine caused by rheumatoid arthritis. It is manifested by neck stiffness, neck pain and neurological deficit. Diagnosis is made with computed tomography and magnetic resonance imaging. The anterior dental atlanto interval greater than 5mm indicates atlantoaxial instability, the posterior dental atlanto interval less than 14mm warns of neurological risk. The most frequent indications for surgery are: severe neck pain, instability and symptoms of myelopathy. When there is spinal cord compression, upper cervical decompression is necessary, either via a posterior or anterior approach (endonasal versus transoral odontoidectomy). The rhinopalatine line will indicate the feasibility of an endoscopic endonasal odontoidectomy. The objective of the presentation of this case is to share our experience with the first endoscopic endonasal odontoidectomy performed in our country and to promote the use of the technique. The surgery was performed on a patient with spastic quadriparesis due to atlantoaxial subluxation due to

rheumatoid arthritis and who presented excellent postoperative evolution, with almost complete recovery. Endoscopic endonasal odontoidectomy is a minimally invasive surgical technique, ideal for patients with multiple comorbidities and offering good to excellent results.

Key words: Cervical rheumatoid arthritis, endonasal odontoidectomy, atlantoaxial subluxation, atlantoaxial instability.

INTRODUCCIÓN

Los pacientes con Artritis Reumatoidea (AR) desarrollan daño neurológico por afectación de la columna cervical en hasta el 34 % de los casos^(1,2,3), esto es debido a la proliferación del tejido sinovial⁽⁴⁾ (*pannus*) que erosiona a las estructuras discoligamentarias y óseas alrededor de las facetas articulares, sobre todo a nivel C1-C2, causando: subluxación atlantoaxial (65 %), migración vertical de la odontoides (20 % o subluxación subaxial (15 %). Las manifestaciones clínicas más frecuentes son la rigidez y el dolor suboccipital. Varias mediciones y líneas trazadas en las imágenes radiológicas convencionales son utilizadas para el diagnóstico de la subluxación y de la migración vertical de la odontoides así como para el planeamiento quirúrgico. Las más utilizadas son el índice de Ranawat, el intervalo atlanto dental anterior (AADI), el intervalo atlanto dental posterior (PADI) y la línea de Wackenheim (**Figura 1a, 1b y 1c**). La subluxación atlantoaxial es la causa más frecuente de inestabilidad cervical en la AR pudiendo ser reductibles o no, dependiendo de ello la técnica quirúrgica a ser utilizada.

Presentamos el caso de un paciente con AR que presentaba cuadriparesia espástica por mielopatía cervical debido a subluxación atlantoaxial, con retroceso y leve migración de la apófisis odontoides hacia el foramen magno, que requirió de doble abordaje quirúrgico para su descompresión y estabilización. Primeramente realizamos una OEE y posteriormente fusión e instrumentación por un abordaje posterior. La OEE es una técnica mínimamente invasiva, descrita por primera vez por Kassam *et al*⁽⁵⁾ en el 2005 y que se ha transformado en una excelente opción para los pacientes con AR⁽⁶⁾. No existen reportes de la utilización de esta innovación quirúrgica en nuestro país.



Figura 1: a. Índice de Ranawat. Mide la distancia entre el centro del pedículo de C2 (línea vertical) y el eje transversal del atlas (línea horizontal). Se consideran alterados los valores menores a 15 mm en el varón y 13 mm en la mujer. **b. AADI** (línea verde). Superior a 5mm indica inestabilidad, en AR es tolerable hasta 7mm. **PADI** (línea roja). Inferior a 14 mm indica riesgo neurológico. **c. Línea de Wackenheim.** Línea que sigue la dirección del clivus. Si la apófisis odontoides se encuentra por detrás de esta línea indica mal pronóstico.

CASO CLÍNICO

Paciente masculino de 66 años con diagnóstico de artritis reumatoide, sin tratamiento. Ingresó por dolor cervical y disminución de la fuerza muscular en las 4 extremidades, más acentuada en los miembros inferiores, de 2 meses de evolución pero exacerbado en los últimos 7 días.

Al examen físico presentaba cuadriparesia espástica con fuerza muscular 2/5 en MMII y 3/5 en MMSS. Reflejos osteotendinosos +++ en las 4 extremidades. Babinski y Hoffmann presentes. Dedo en ojal del pulgar derecho y del meñique izquierdo. *Hallux valgus* y dedos en martillo en ambos pies. El paciente se encontraba encamado, totalmente dependiente de sus familiares para la realización de sus actividades (mRS 5). Se inició metotrexato y se instaló collarín cervical como primera medida.

Radiografía simple y tomografía computarizada (TAC) de columna cervical con aumento del AADI, 2cm (Figura 1b) y disminución del PADI, 7.05mm (Figura 1b). Índice de Ranawat por debajo de 15 mm (Figura 1a). Apófisis odontoides por detrás de la línea de Wackenheim (Figura 1c). Las imágenes por resonancia magnética (IRM) mostraron hipointensidad en T2 preodontoides correspondiente a *pannus*, con retroceso y leve migración vertical de la odontoides causando compresión medular y mielopatía a ese nivel. Además presentaba subluxación subaxial y mielopatía asociada (Figura 2a, 2b y 2c).



Figura 2: IRM ponderada en T2, corte sagital. **a.** Hipointensidad preodontoides correspondiente a *pannus*, **b.** AADI 2cm, **c.** PADI 7.05 mm y mielopatía asociada.

Con el diagnóstico de mielopatía cervical por subluxación atlantoaxial con retroceso y ascenso de la odontoides secundaria a AR, se instaló tracción cervical con halo de Gardner para intentar reducir la lesión, lo cual no fue posible. Al tratarse de una lesión irreductible se planteó descompresión anterior a través de una OEE con posterior fusión y estabilización por un abordaje posterior.

Con la OEE se logró la descompresión completa de la unión C0-C1-C2 (Figura 3 y 4), egresando el paciente de cirugía con tracción cervical. En un segundo tiempo se realizó la fusión y estabilización C1-C2 con técnica de Gallie e instrumentación tipo Halifax (Figura 5), se retiró la tracción cervical y se instaló ortesis tipo SOMI.

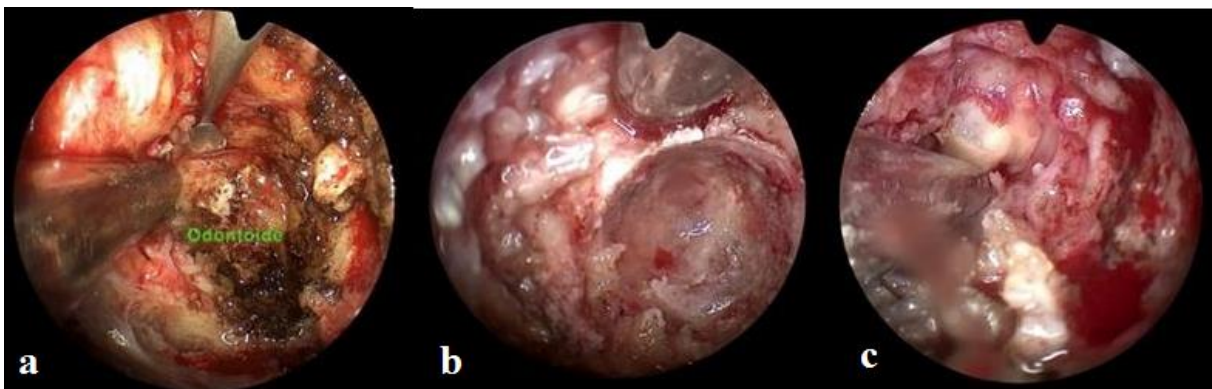


Fig. 3 Imagen endoscópica **a.** Exposición de la apófisis odontoides, **b.** Cavitación de la odontoides a fin de extraer la misma como una fina cáscara, **c.** Liberación completa del canal espinal luego de extraer la odontoides.

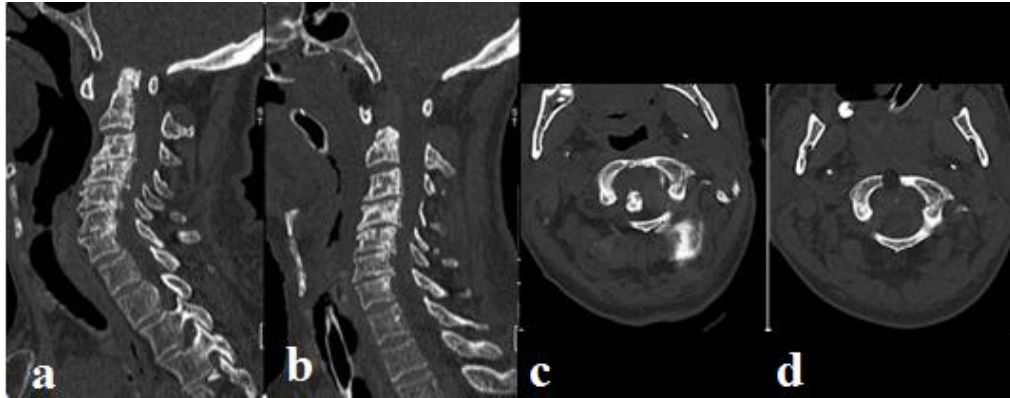


Figura 4: a y b. TAC columna cervical, corte sagital pre y post operatorio. Liberación completa del canal espinal. c y d: Corte axial a nivel de la unión C0-C1 pre y post operatorio. Nótese la pequeña resección del arco anterior de C1 por la que se accedió a la apófisis odontoides.

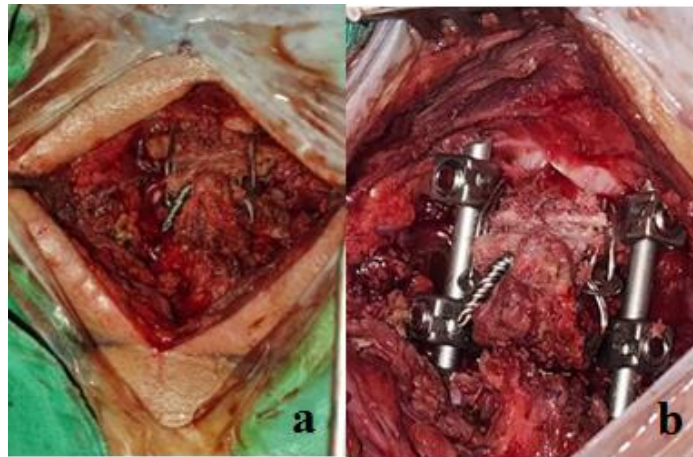


Figura 5: Imágenes quirúrgicas. a. Fusión y estabilización atlanto axial con técnica de Gallie, b. Imagen quirúrgica una vez culminada la instrumentación con barras y ganchos interlaminares tipo Hallifax.

El paciente presentó excelente evolución posoperatoria y fue dado de alta con ortesis tipo SOMI por 3 meses y metotrexato por vía oral. Actualmente, a los 18 meses de seguimiento, el paciente camina con ayuda de una muleta y lleva una vida casi totalmente independiente (mRS 2). Queda pendiente repetir IRM para darle seguimiento a la subluxación subaxial.

DISCUSIÓN

La evolución de la AR es unidireccional⁽⁷⁾, la subluxación atlantoaxial genera importante morbimortalidad, con 10 % de muerte súbita reportada^(8,9). Existe compromiso neurológico entre el 7 y el 34 % de los casos^(1,2,3), pero a menudo es difícil detectarlo ya que esta enmascarado por la

debilidad inherente de la AR. Si bien existen nuevas drogas para detener o disminuir la progresión de la enfermedad, no existe tratamiento médico para restaurar la estabilidad, corregir deformidades o descomprimir el canal espinal, por lo que el tratamiento quirúrgico se impone.

Los síntomas cardinales de la afectación cervical en la AR son la rigidez y el dolor suboccipital que se exagera con la rotación o flexión de la cabeza. Pueden aparecer además, síntomas de afectación vertebrobasilar como: tinnitus, vértigo o disfagia. De mucha utilidad para la estadificación clínica es la clasificación de Ranawat⁽¹⁰⁾, el caso que presentamos corresponde a la peor puntuación neurológica, es decir, IIIB.

Las radiografías simples y la TAC de la columna cervical ofrecen mucha información de la calidad ósea, de los cambios segmentarios y de la alineación. Varias líneas que se orientan en puntos de referencias óseos de la columna cervical permiten cuantificar el grado de subluxación y de migración vertical (impresión basilar). Para la toma de decisiones resultan de mucha utilidad las siguientes mediciones: AADI, PADI, índice de Ranawat, ángulo cervicomedular^(11,12,13,14), línea Wackenheim (Figura 1) y, la línea más importante para la decisión del abordaje quirúrgico a ser realizado, la línea rinopalatina (Figura 6).



Figura 6: Línea rinopalatina. La línea va del rinion al borde posterior del paladar duro.

Las IRM ofrecen visualización directa de los tejidos blandos con relación al tejido nervioso. La compresión bulbomedular por el *pannus* sólo puede ser visualizada con esta técnica, por lo que deben realizarse a todos los pacientes.

Las indicaciones más frecuentes de cirugía son el dolor cervical severo, la inestabilidad y los síntomas de mielopatía.

Los objetivos generales del tratamiento quirúrgico son: eliminar la inestabilidad, restaurar la alineación anatómica, descomprimir las estructuras neurológicas y prevenir la descompensación de los segmentos adyacentes⁽¹⁵⁾. Si existen síntomas de mielopatía, la descompresión y estabilización está indicada a fin de prevenir daños mayores^(16,17). Son de mucha utilidad los indicadores de cirugía basados en las imágenes^(17,18,19) (espacio para la médula espinal en flexión menor a 6 mm, PADI en flexión menor a 14 mm y distancia desde la base del cuerpo de C2 al foramen magno menor a 31,5 mm). En nuestro caso el paciente presentaba mielopatía por inestabilidad atlantoaxial irreductible (debido al extenso *pannus* preodontoideo) y compresión bulbomedular por retroceso y migración vertical de la odontoides, con PADI de 7.05 mm, por lo que se decidió realizar descompresión anterior a través de una OEE y posteriormente fusión y estabilización atlantoaxial por un abordaje posterior. En cuanto a las técnicas quirúrgicas realizadas en este paciente, vale la pena mencionar la importancia de la conjunción de las técnicas clásicas con las mínimamente invasivas. La odontoidectomía y resección del *pannus* odontoideo por vía endonasal endoscópica es posible toda vez que las estructuras a ser resecadas se encuentren por arriba de la línea rinopalatina^(20,21,22)(Figura 6). Con relación a las técnicas de fusión y estabilización en la subluxación atlantoaxial, si bien existen nuevas técnicas con tornillos articulares que ofrecen menor incidencia de pseudoartrosis^(23,24), estas son de alto costo, lo que hace improbable su implementación rutinaria en un servicio público.

Como conclusión podemos decir que el compromiso neurológico en la subluxación atlanto axial en la AR es frecuente y generalmente afecta a pacientes añosos con múltiples comorbilidades, por lo que la odontoidectomía endonasal endoscópica, al ser menos invasiva, se posiciona como una excelente opción de tratamiento.

Conflictos de intereses

No se cuenta con conflicto de intereses.

Fuente de financiamiento

Los autores declaran no haber recibido financiación externa para la realización de este trabajo.

Disponibilidad de datos y materiales

El manuscrito contiene toda la evidencia que respalda los hallazgos. Para obtener mayor información, previa solicitud razonable, el autor correspondiente puede proporcionar detalles más completos y un conjunto de datos.

Declaración de contribución de los autores:

Todos los autores han contribuido en la concepción del estudio, la recolección y análisis de datos, y han dado su consentimiento para la publicación del manuscrito.

REFERENCIAS

1. Pellici PM, Ranawat CS, Tsairis P, Bryan WJ. A prospective study of the progression of rheumatoid arthritis of the cervical spine. *J Bone Joint Surg.* 1981;63(3):342-346.
2. Krainz PE. Artritis reumatoide la columna cervical: aspectos clave para el cirujano ortopédico. *Rev Chil Ortop Traumatol* 2022; 63(3):e195-e204.
3. Mannion AF, Elfering A. Predictors of surgical outcome and their assessment. *Eur Spine J* 2006; 15(Suppl 1)93–108. doi: 10.1007/s00586-005-1045-9.
4. Grob D. Atlantoaxial immobilization in rheumatoid arthritis: a prophylactic procedure? *Eur Spine J.* 2000;9(5):404–409. doi: 10.1007/s005860000174.
5. Kassam AB, Snyderman C, Gardner P, Horowitz MB, Carrau RL, Snyderman CH. The expanded endonasal approach: a fully endoscopic transnasal approach and resection of the odontoid process: technical case report. *Neurosurgery* 2006;59(1 Suppl 1):ONSE162-5. doi: 10.1227/01.NEU.0000220047.25001.F8.
6. Fernandes Joaquim A, Osorio JA, Riew KD. Transoral and endoscopic endonasal odontoidectomies – surgical techniques, indications, and complications. *Neurospine* 2019;16(3):462-469. doi: 10.14245/ns.1938248.124
7. Matsunaga S, Sakou T, Onishi T, Hayashi K, Taketomi E, Sunahara N, *et al.* Prognosis of patients with upper cervical lesions caused by rheumatoid arthritis: comparison of occipitocervical fusion between C1 laminectomy and nonsurgical management. *Spine* 2003;15(28):1581–1587.
8. Mikulowski P, Wollheim FA, Rotmil P, Olsen I. Sudden death in rheumatoid arthritis with atlanto-axial dislocation. *Acta Med Scand.* 1975;198(6):445- 451. doi: 10.1111/j.0954-6820.1975.tb19573.x.
9. Sunahara N, Matsunaga S, Mori T, Ijiri K, Sakou T. Clinical course of conservatively managed rheumatoid arthritis patients with myelopathy. *Spine* 1997;22(22):2603-7. doi: 10.1097/00007632-199711150-00004.
10. Ranawat CS, O'Leay P, Pellecci P, Tsairis P, Marchisello P, Dorr L. Cervical spine fusion in rheumatoid arthritis. *J Bone Joint Surg.* 1979;61(7):1003–1010.
11. Guo X, Han Z, Xiao J, Chen Q, Chen F, Guo Q, *et al.* Cervicomedullary angle as an independent radiological predictor of postoperative neurological outcome in type A basilar invagination. *Sci Rep.* 2019;9(1):19364. doi: 10.1038/s41598-019-55780-w.

12. Xia ZY, Duan WR, Zhao XH, Jian FZ, Chen, Z. Computed tomography imaging study of basilar invagination and atlantoaxial dislocation. *World Neurosurg.* 2018;114:e501–e507. doi: 10.1016/j.wneu.2018.03.016.
13. Goel A. Basilar invagination, Chiari malformation, syringomyelia: a review. *Neurol India.* 2009;57(3):235–246. doi: 10.4103/0028-3886.53260.
14. Goel A. Instability and basilar invagination. *J Craniovertebr Junction Spine* 2012;3(1):1–2. doi: 10.4103/0974-8237.110115
15. Beaulieu LL, Vial S, Delgadó J, et al. Artritis reumatoidea en columna cervical: algoritmos de tratamiento. *Cóluna/Cólmna* 2005;4(01):42–49.
16. Boden SC, Dodge LD, Bohlman HH, Rehtine GR. Rheumatoid arthritis of the cervical spine. Long term analysis with predictors of paralysis and recovery. *J Bone Joint Surg* 1993;75A(9):1282–1297.
17. Dvorak J, Grob D, Baumgarther H, Gschwend N, Grauer W, Larsson S. Functional evaluation of the spinal cord by magnetic resonance imaging in patients with rheumatoid arthritis and instability of upper cervical spine. *Spine.* 1989;14(10):1057–1064.
18. Dvorák J, Panjabi MM, Grob D, Novotny JE, Antinnes JA. Clinical validation of functional flexion/extension radiographs of the cervical spine. *Spine* 1993;18(1):120–127. doi: 10.1097/00007632-199301000-00018.
19. Kawaida H, Sakou T, Mórizon Y, Yóshikuni N. Magnetic resonance imaging of upper cervical disorders in rheumatoid arthritis. *Spine* 1989;14(11):1144–1148. doi: 10.1097/00007632-198911000-00003.
20. La Corte E, Aldana PR, Ferroli P, Greenfield JP, Härtl R, AnandVK, *et al.* The rhinopalatine line as a reliable predictor of the inferior extent of endonasal odontoidectomies. *Neurosurg Focus.* 2015;38(4):E16,2015. doi: 10.3171/2015.1.FOCUS14777.
21. Liu JK, Patel J, Goldstein IM, Anderson J. Endoscopic endonasal transclival transodontoid approach for ventral decompression of the craniovertebral junction: operative technique and nuances. *Neurosurg Focus.* 2015; 38(4):E17. doi: 10.3171/2015.1.FOCUS14813.
22. Morales-Valero SF, Serchi E, Zoli M, Mazzatenta D, Van Gompel JJ. Endoscopic endonasal approach for craniovertebral junction pathology: a review of the literature. *Neurosurg Focus.* 2015;38(4):E 15. doi: 10.3171/2015.1.FOCUS14831.
23. Dickman CA, Sonntag VK. Posterior C1-C2 transarticular screw fixation for atlantoaxial arthrodesis. *Neurosurgery.* 1998;43(2):275-80.
24. Farey ID, Nadkarni S, Smith N. Modified Gallie technique versus transarticular screw fixation in C1-C2 fusion. *Clin Orthop Relat Res.* 1999;(359):126-35. doi: 10.1097/00003086-199902000-00013.