

OS ODONTOIDEUM
SYNDRÔME NEUROLOGIQUE APRÈS RÉDUCTION ORTHOPÉDIQUE
D'UNE SUBLUXATION C1-C2

O. HIMMER¹, A. VANCALSTER², L. LOOTVOET¹, J. P. GHOSEZ¹

SUMMARY : *Os odontoideum.*

A case of os odontoideum associated with a C1-C2 subluxation is described. During the reduction procedure by external manipulation, bulging of the membrana tectoria resulted into medullary compression followed by a neurological syndrome.

An occipito-C2 arthrodesis was performed later on when the neurological status recovered back to normal. The case reported underlines the possibility of neurological damage following closed reduction of a C1-C2 subluxation, while the surgical procedure should not be incriminated. The pathogenic mechanism may not be properly understood if closed reduction is followed by surgical treatment during the same session.

Keywords : os odontoideum ; subluxation ; closed reduction ; neurological syndrome.

Mots-clés : os odontoideum ; subluxation ; réduction orthopédique ; syndrome neurologique.

INTRODUCTION

La présence d'une subluxation C1-C2 sur anomalie de l'odontoïde peut être asymptomatique ou s'accompagner d'un déficit neurologique. S'il paraît judicieux de vouloir réduire le déplacement, cela n'est pas sans risque, notamment chez les patients neurologiques, porteurs d'un syndrome de Down ou présentant un déplacement fixé (4). L'altération du statut neurologique est-elle imputable à la réduction ou à la technique d'arthrodèse qui lui est associée ? Nous décrivons le cas d'une subluxation C1-C2 asymptomatique chez un enfant qui a développé un syndrome neurologique après réduction orthopédique.

OBSERVATION

Melle ST..., âgée de 4 ans et demi, était admise dans le service pour mise au point d'un ressaut survenant lors de l'extension du rachis cervical. Ce ressaut fut découvert lors de l'instillation de gouttes nasales. L'enfant était né prématurément (7 mois et demi) par césarienne. Il s'agissait d'une grossesse gémellaire bivitelline. Le poids à la naissance était de 1,9 kg. Un séjour de 15 jours en couveuse a été nécessaire. Au 8^{ème} mois postnatal, l'enfant tombait dans les escaliers. L'examen clinique réalisé par le pédiatre était négatif et aucune radiographie n'a été réalisée.

Jusqu'à l'hospitalisation, l'enfant et son frère jumeau ont présenté un développement psychomoteur normal. A l'examen clinique d'entrée, l'enfant avait un poids de 13 kg 800 pour une taille de 98,5 cm. La mobilité du rachis cervical était normale en flexion, limitée en rotation. La sensation de ressaut était reproductible lors de l'extension. Cela ne s'accompagnait d'aucun phénomène douloureux. L'examen neurologique était normal.

La radiographie à l'admission mettait en évidence une subluxation antérieure (11 mm) de C1 sur C2 avec une solution de continuité au sein de la dent (Fig. 1A). Les clichés dynamiques ne montraient aucune aggravation du déplacement

¹ Service d'orthopédie, Clinique Saint-Luc, 5004 Namur, Belgique.

² Service de médecine physique, Clinique Saint-Luc, 5004 Namur, Belgique.

Correspondance et tirés à part : O. Himmer.

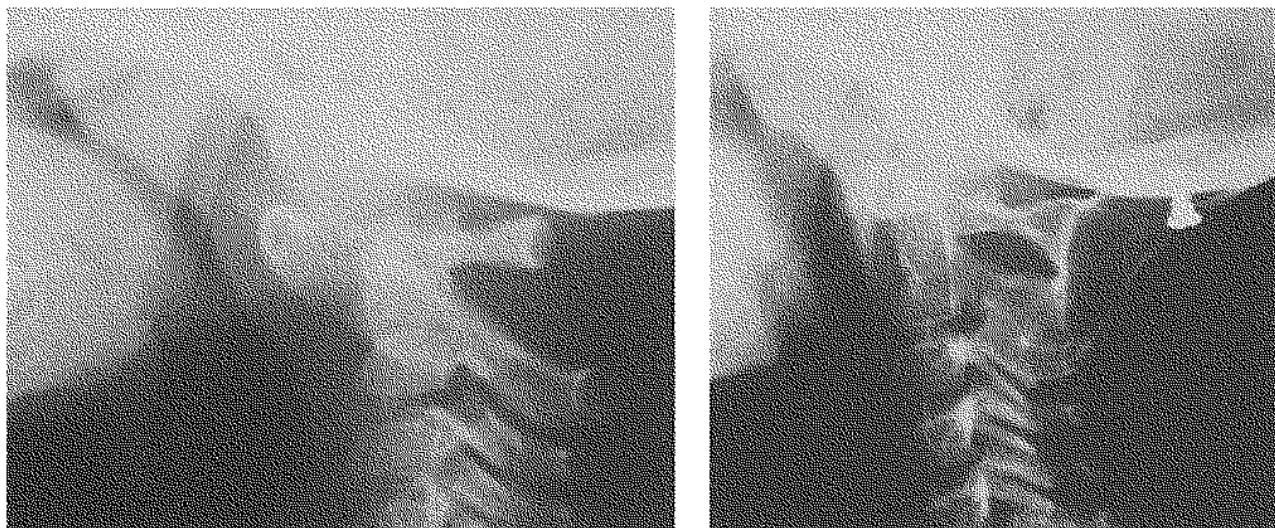


Fig. 1. — A : Subluxation antérieure de 11 mm de C1 sur C2. Anomalie de l'odontoïde : os odontoïdeum. — B : Radiographie à 4 ans de recul. Arthrodèse occiput-C3 solide. Canal cervical normalisé.

lors de la flexion et confirmaient la réduction de la subluxation en extension. Il n'existait pas d'instabilité postérieure.

Le fragment distal de l'odontoïde restait parfaitement solidaire de l'arc antérieur de C1. Il n'existait pas d'autre anomalie de la charnière occipito-cervicale. Le scanner avec reconstruction tridimensionnelle confirmait la subluxation avec rétrécissement du canal médullaire à 9 mm.

Au vu de ces images radiographiques, nous avons posé le diagnostic d'os odontoïdeum.

L'enfant a été immobilisé en position de réduction par un «HALO-CAST» en fibre de carbone. Après réduction, l'examen neurologique mettait en évidence une hyperreflexie des membres inférieurs associée à un Babinski bilatéral. Il n'y avait aucun déficit moteur.

Au niveau des membres supérieurs, l'évaluation neurologique était plus difficile à réaliser du fait de l'appareillage d'une part et de la mauvaise collaboration de l'enfant d'autre part. Les potentiels évoqués somesthésiques se situaient dans les limites de la normale.

La résonance magnétique nucléaire montrait un rétrécissement canalaire à 8 mm au niveau C1-C2 et cela malgré la réduction de subluxation. Ce rétrécissement était dû à un bombement de la

membrana tectoria (Fig. 2A). Il existait à ce niveau un discret oedème de la moelle.

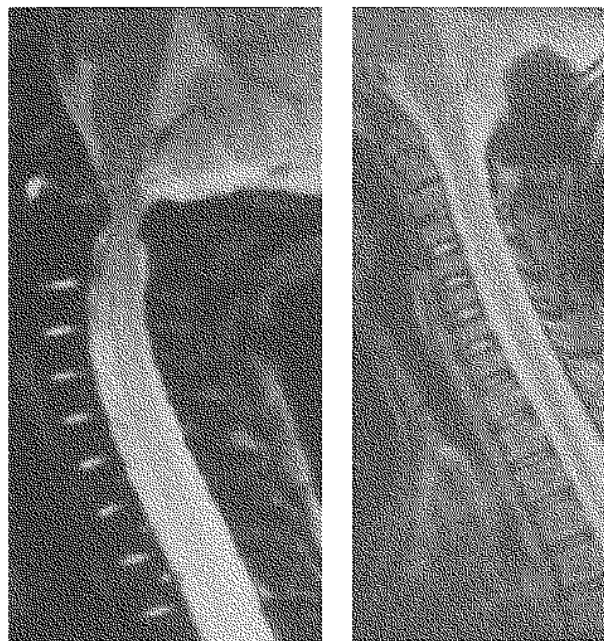


Fig. 2. — A : Résonance magnétique nucléaire post-réduction (T2). Compression médullaire par un bombement de la membrana tectoria. — B : Résonance magnétique nucléaire à 2 ans de recul (T2). Absence de compression médullaire.

Deux mois après la réduction orthopédique de la subluxation, l'enfant normalisait son examen neurologique. Une arthrodèse occiput-C2 était réalisée sans aucun geste de décompression associée. La greffe a été apposée après avivement des surfaces receveuses. Aucun cerclage n'a été utilisé. La greffe a été fixée à l'occiput par une vis. Un complément de greffe était réalisé à 4 mois pour pseudarthrose entre l'atlas et l'axis. Ce geste est à l'origine de l'extension de l'arthrodèse à C3.

Le «HALO-CAST» était retiré 8 mois après sa pose.

A 2 ans de recul, la résonance magnétique nucléaire montrait la restauration d'un canal de diamètre normal sans signe de souffrance médullaire (Fig. 2B). A 4 ans de recul, la radiographie confirmait la solidité de l'arthrodèse qui allait de l'occiput à C3 (Fig. 1B). L'enfant vivait normalement. L'examen clinique du rachis cervical ne montrait pas de déficit de la mobilité. Le statut neurologique était normal.

DISCUSSION

L'os odontoïdeum est une anomalie rare de l'odontoïde qui a longtemps été considérée comme une malformation congénitale. Fielding *et al.* (2) furent les premiers à évoquer l'origine traumatique de cette anomalie. L'os odontoïdeum peut être asymptomatique ou s'accompagner de manifestations cliniques allant de la céphalée à la myélopathie cervicale. La symptomatologie est liée à l'instabilité. Le déplacement anormal de C1 par rapport à C2 va entraîner soit un rétrécissement du canal cervical responsable dans certains cas d'une compression médullaire (5), soit d'une baisse de flux ou d'une lésion de l'artère vertébrale avec une symptomatologie centrale (1).

Pour Hardy *et al.* (3), le diamètre critique du canal cervical serait de 10 mm. Dans la série de Spierings et Braakman (5), les patients avec des plaintes neurologiques permanentes avaient un canal réduit à 9,4 mm.

Dans le cas que nous décrivons, le diamètre canalaire a été mesuré à 9 mm au scanner avant réduction. L'absence de symptômes neurologiques

peut s'expliquer par la déformation de la dent rendant la sténose moins agressive pour le névraxe et l'absence d'instabilité en flexion. La présence d'une instabilité de 10 mm ou plus entre C1 et C2 est pour Smith *et al.* (4) une indication chirurgicale surtout si une progression est notée dans l'instabilité ou si des douleurs ou une symptomatologie neurologique sont attribuables à cette instabilité.

La chirurgie par arthrodèse ou réduction-arthrodèse n'est pas un geste anodin pouvant présenter des complications neurologiques sérieuses notamment dans les syndromes de Down, les subluxations fixées et les cas avec symptômes neurologiques préexistants (4).

Aucune publication ne relate la survenue d'un syndrome neurologique après réduction orthopédique d'une subluxation C1-C2. L'originalité du cas présenté réside dans le fait que la réduction a normalisé le diamètre du canal osseux, mais a entraîné un bombement de la membrana tectoria, réduisant l'espace disponible pour le névraxe à 8 mm. La subluxation s'est installée progressivement, comme en témoigne la déformation de la base de l'odontoïde, avec étirement des éléments ligamentaires. Lors de la réduction du déplacement, cet excès tissulaire a fait protrusion dans la canal.

Il ne s'agit pas d'un épaississement des structures ligamentaires comme on peut en voir dans certains syndromes malformatifs associés à une instabilité C1-C2 (6).

Si nous avons réalisé une arthrodèse dans le même temps que la réduction avec passage d'un cerclage sous l'arc de C1, on aurait vraisemblablement aggravé la sténose et ses conséquences neurologiques. La responsabilité de l'arthrodèse aurait été évoquée dans la genèse des complications neurologiques. Face à une subluxation C1-C2 non fixée, nous préconisons la réduction orthopédique suivie d'une immobilisation pour surveillance neurologique. L'arthrodèse ne sera réalisée que si l'examen neurologique est normal. Si la subluxation est fixée, une tentative de réduction sous traction progressive sera effectuée. Si la traction n'a pas d'effet, une arthrodèse in situ devra être discutée, associée ou non à un geste décompressif.

BIBLIOGRAPHIE

1. Bhatnagar M., Sponseller P. D., Carroll C. H., Tolo V. T. Pediatric atlantoaxial instability presenting as cerebral and cerebellar infarcts. Case report. *J. Pediatr. Orthop.*, 1991, 11, 103-107.
2. Fielding J. W., Hensinger R. N., Hawkins R. J. Os odontoideum. *J. Bone Joint Surg.*, 1980, 62-A, 376-383.
3. Hardy J. R., Pouliquen J. C., Pennecot. Les arthrodèses postérieures du rachis cervical supérieur chez l'enfant et l'adolescent. *Rev. Chir. Orthop.*, 1985, 71, 153-166.
4. Smith M. D., Phillips W. A., Hensinger R. N. Fusion of the upper cervical spine in children and adolescents. An analysis of 17 patients. *Spine*, 1990, 16, 695-715.
5. Spierings E. L. H., Braakman R. The management of os odontoideum. *J. Bone Joint Surg.*, 1982, 64-B, 422-427.
6. Stevens J. M., Kendall B. E., Crockard H. A., Ransford A. The odontoid process in Morquio-Brailsford's disease. The effects of occipitocervical fusion. *J. Bone Joint Surg.*, 1991, 73-B, 851-858.

SAMENVATTING

O. HIMMER, A. VANCALSTER, L. LOOTVOET, J. P. GHOSEZ. Os odontoideum.

De auteurs stellen een geval van een os odontoideum voor, gepaard met een subluxatie van C1-C2. Bij de

orthopedische reductie is een neurologisch syndroom ontstaan door een compressie van het ruggemerg, door het uitpuilen van de membrana tectoria. Een arthrodese occiput-C2 werd na normalisering van de neurologische toestand uitgevoerd. Door deze gevalsbeschrijving willen de auteurs de mogelijkheid aantonen van neurologische complicaties na reductie arthrodese van een subluxatie C1-C2, niet te wijten aan de chirurgische techniek.

RÉSUMÉ

O. HIMMER, A. VANCALSTER, L. LOOTVOET, J. P. GHOSEZ. Os odontoideum.

Les auteurs présentent le cas d'un os odontoideum associé à une subluxation C1-C2. Lors de sa réduction orthopédique, un syndrome neurologique est apparu du fait d'une compression médullaire par un bombement de la membrana tectoria. Une arthrodèse occiput-C2 a été réalisée secondairement après normalisation de l'état neurologique. Par la présentation de ce cas, les auteurs expliquent la possibilité de complications neurologiques après réduction-arthrodèse d'une subluxation C1-C2 sans que la technique chirurgicale n'en soit responsable.