

OSSIFICAÇÃO DO LIGAMENTO LONGITUDINAL POSTERIOR NA COLUNA CERVICAL

RELATO DE CASO

*ROSANA HERMINIA SCOLA**, *LINEU CESAR WERNECK***, *FABIO MASSAITI IWAMOTO****,
*NORBERTO LUIS CABRAL*****, *GUSTAVO HENRIQUE BOFF MAEGAWA******, *ENIO ROGACHESKI**

RESUMO - A ossificação do ligamento longitudinal posterior (OLLP) é causa incomum de mielopatia compressiva na população caucasiana. É relatado o caso de um paciente do sexo masculino com um quadro de paraparesia espástica, cuja investigação radiológica mostrou OLLP. O raio-X de coluna cervical mostrou imagem laminar, vertical, com densidade óssea, posterior aos corpos vertebrais, que se estendia de C2 a T1. A tomografia computadorizada (TC) e a mielotomografia mostravam OLLP causando compressão medular ântero-posterior no segmento descrito. Na ressonância magnética, observou-se área de hiperintensidade em T2 no segmento C7-T1, compatível com mielomalácia. O paciente foi submetido a laminoplastia tipo "open-door", com melhora do quadro parético dos membros inferiores. A OLLP deve entrar no diagnóstico diferencial das mielopatias cervicais, sendo facilmente diagnosticada através de radiografias e TC da coluna cervical. São revisados os aspectos clínicos e radiológicos e o tratamento da OLLP.

PALAVRAS-CHAVE: ossificação do ligamento longitudinal posterior, mielopatia cervical, tomografia computadorizada, ressonância magnética.

Ossification of the posterior longitudinal ligament in the cervical spine: case report

ABSTRACT - Ossification of the posterior longitudinal ligament (OPLL) is an uncommon cause of compressive myelopathy in the Caucasian population. A case of spastic paraparesis in a Caucasian man whose radiological investigation showed OPLL is presented. The radiographs of the cervical spine showed a strip of bony density posterior to the vertebral bodies, extending from C2 to T1. Computerized tomography (CT) and CT myelography showed OPLL at the same level. Magnetic resonance showed an area of increased signal on T2-weighted sequences at C7-T1 level suggestive of myelomalacia. The patient underwent an open-door laminoplasty (C2 to C7) with improvement of the paraparesis. OPLL should be included in the differential diagnosis of cervical myelopathy. It can be easily detected by plain radiographs and CT of the cervical spine. A review of the clinical and radiological features and the treatment of OPLL is presented.

KEY WORDS: ossification of the posterior longitudinal ligament, cervical myelopathy, computerized tomography, magnetic resonance.

A ossificação do ligamento longitudinal posterior (OLLP) é causa frequente e bem estudada de mielopatia cervical no Japão^{1,2}. A maior série de OLLP existente na literatura foi publicada pelo Ministério da Saúde do Japão, com 2125 casos^{1,3} e estima-se que mais de 3% da população japonesa

Especialidades de Neurologia e Radiologia do Departamento de Clínica Médica do Hospital de Clínicas da Universidade Federal do Paraná (UFPR): *Professor Assistente; **Professor Titular; ***Acadêmico de Medicina, Bolsista de Iniciação Científica (PIBIC/CNPq); ****Médico Neurologista; *****Acadêmico de Medicina. Aceite: 17-março-1998.

Dra. Rosana Scola - Serviço de Neurologia, Hospital de Clínicas da UFPR - Rua General Carneiro 181 80069-900 Curitiba PR - Brasil. FAX 041 264 3606. E-mail: scola@hc.ufrpr.br

acima de 50 anos apresenta OLLP⁴. Em contraste, a OLLP é causa relativamente rara de mielopatia compressiva na população caucasiana. Trojan et al., revisando os relatos de OLLP publicados até 1992, encontraram apenas 81 casos em pacientes não-orientais⁵.

Neste estudo relatamos o caso de um paciente com paraparesia espástica cuja investigação radiológica demonstrou OLLP.

RELATO DO CASO

VF, 64 anos, sexo masculino, branco, casado, há 2 anos da admissão começou a apresentar dor lombar, seguida de fraqueza em membros inferiores (MMII) e posteriormente no membro superior direito (D). Não tinha queixas urinárias, mas apresentava impotência sexual e obstipação intestinal. O paciente era hipertenso, em uso de hidroclorotiazida e nifedipina, e já havia apresentado três episódios de infarto agudo do miocárdio, sendo o último há 6 anos. Ao exame, o paciente apresentava-se em bom estado geral, com pressão arterial de 160x90 mmHg; a ausculta do precórdio mostrava bulhas cardíacas hipofonéticas, com extra-sístoles eventuais. O restante do exame físico geral era normal. O exame físico neurológico mostrou funções cognitivas normais e exame de nervos cranianos sem alterações. O tônus muscular apresentava-se aumentado nos MMII e era normal nos membros superiores (MMSS). O paciente apresentava atrofia global da musculatura de MMII e trofismo normal em MMSS. A força muscular era grau III nos MMII e grau IV nos MMSS. Os reflexos profundos eram grau +++/IV nos MMII e grau ++/IV nos MMSS. O reflexo cutâneo abdominal era normal e o cutâneo plantar apresentava-se em extensão, bilateralmente. As sensibilidade superficial e profunda estavam preservadas. Apresentava marcha espástica com desvio para a D. A investigação laboratorial mostrou hemograma, sódio, potássio, glicemia de jejum e bilirrubinas normais. Uréia e creatinina apresentavam-se discretamente elevadas. A dosagem de cálcio, fósforo e paratormônio foram normais. O líquido apresentava-se límpido e incolor, com: leucócitos 2/mm³, glicose 55 mg/dl, proteínas 374 mg/dl, reação de Pandy positiva, reação do VDRL negativa, bacterioscopia e cultura negativas. O eletrocardiograma mostrava bradicardia sinusal com extra-sístoles ventriculares e alteração difusa da repolarização ventricular. O raio-X de coluna cervical evidenciava imagem laminar, vertical, contínua, com densidade óssea, posterior aos corpos vertebrais, que se estendia de C2 a T1, compatível com OLLP (Fig 1). A tomografia computadorizada (TC) mostrava OLLP causando compressão medular ântero-posterior no mesmo



Fig 1. Radiografia simples de coluna cervical mostrando OLLP de C2 a T1 (setas).

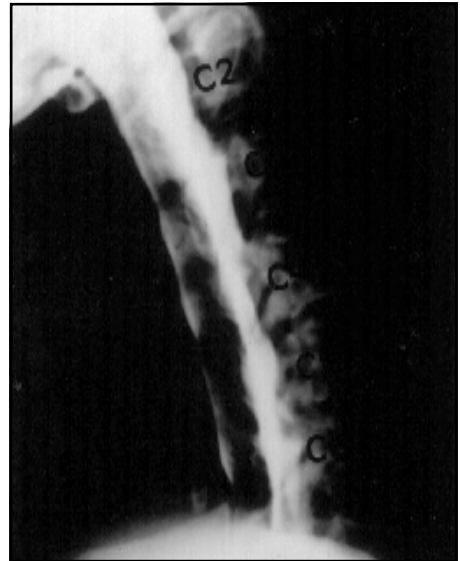


Fig 2. Mielografia de coluna cervical mostrando compressão da OLLP sobre a margem anterior da coluna de contraste. Nota-se justaposição da densidade da coluna de contraste à da OLLP.

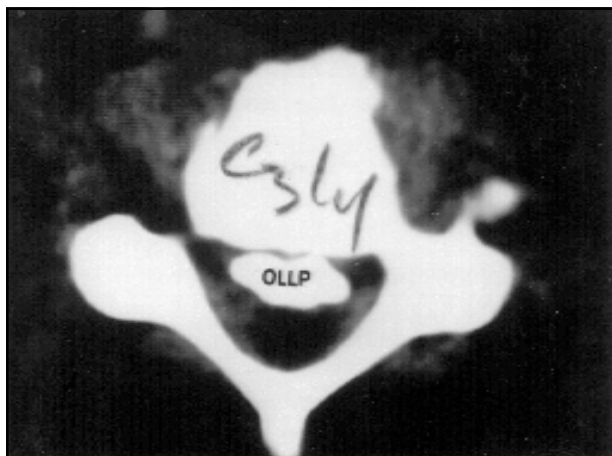


Fig 3. Corte axial de tomografia computadorizada mostrando OLLP ao nível de C3-C4.

segmento (Fig 3). A mielografia confirmou a compressão sobre a margem anterior do saco tecal, embora, às vezes, seja difícil separar a densidade cálcica da OLLP da coluna de contraste no espaço subaracnóideo (Fig 2). A mielotomografia mostrou calcificação grosseira do ligamento longitudinal posterior, com níveis críticos de estenose do canal vertebral ósseo e hérnia de saco tecal no segmento compreendido entre C5-C6 e C7-T1 (Fig 4). Na ressonância magnética (RM), observou-se área de hiperintensidade em T2 no segmento C7-T1 da medula espinhal, compatível com mielomalácia (Fig 5). O paciente foi submetido a laminoplastia tipo "open-door". Com o paciente em decúbito ventral foi

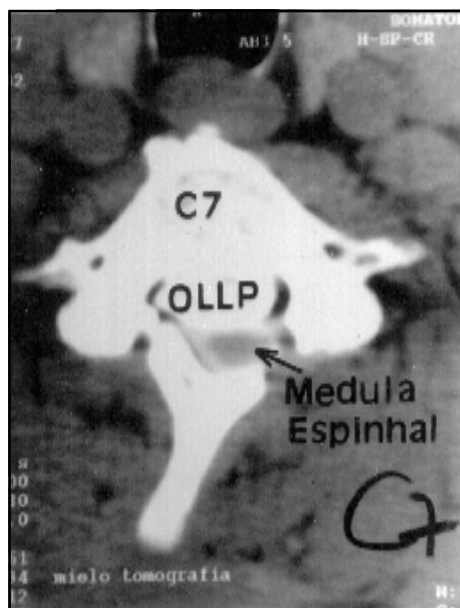


Fig 4. Corte axial de mielotomografia mostrando compressão da OLLP sobre o saco tecal e estenose do canal vertebral, ao nível de C7.

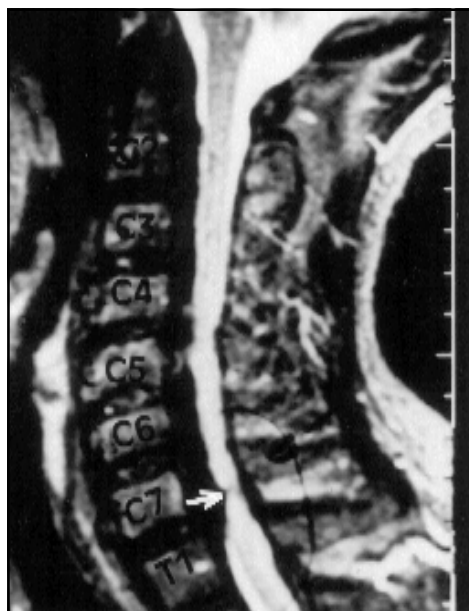


Fig 5. Corte sagital mediano de ressonância magnética, sequência "spin-echo" ponderada em T2, mostrando compressão sobre o saco tecal e cordão medular, sobretudo no segmento C4 a C7-T1. A OLLP é representada por sinal hipointenso. Hiperintensidade no segmento C7-T1 denota mielomalácia (seta).

realizada incisão na linha média de C1 a T1, dissecação por planos e hemilaminectomia de C2 a C7 à esquerda (E). Com o "drill" desgastou-se a cortical externa das lâminas de C2 a C7 à D. Os processos espinhosos e a porção das lâminas que restaram foram inclinados para a D e presos à fásia muscular e às apófises espinhosas. O canal vertebral ficou bastante aberto e à E foi colocado tecido celular subcutâneo; sutura dos planos após hemostasia. Na evolução de 2 anos e 4 meses pós-cirurgia, o paciente apresentava melhora do quadro parético dos MMII, permanecendo com dor discreta em MMSS.

DISCUSSÃO

Apesar de sido descrita por Key em 1838 na Inglaterra, apenas na década de 60, com a publicação de diversos estudos no Japão, a OLLP foi caracterizada como uma entidade clínica própria^{5,6}. No Japão a prevalência radiográfica de OLLP em adultos é de 2% e aumenta para 3,7% naqueles com mais de 50 anos de idade^{1,4}. Em países ocidentais a prevalência de OLLP em radiografias de coluna cervical tem variado de 0,1% a 1,7%⁵. Como nem sempre a OLLP é visualizada na radiografia simples, esses dados podem estar subestimados. Contudo, é importante salientar que o achado de OLLP em radiografias não implica na ocorrência de mielopatia ou qualquer outro distúrbio clínico aparente, podendo ser totalmente assintomática⁶. A incidência de casos de OLLP sintomáticos não é conhecida nos países ocidentais e no Japão é estimada em 19 casos por milhão de pessoas¹ e corresponde a 20% das indicações de cirurgia em pacientes com mielopatia cervical⁷.

A OLLP tem maior prevalência em pacientes do sexo masculino, com pico de incidência na sexta década de vida. A localização é predominantemente cervical, onde ocorre em até 95% dos casos^{1,8}. O quadro clínico mais temido é a mielopatia, que ocorre como sintoma inicial da doença em 18% dos pacientes com OLLP sintomática e em mais 16% na evolução da doença². Outros sintomas importantes são dor nas regiões cervical e lombar e dor ou parestesia em membros superiores ou inferiores¹. Esses sintomas apresentam-se de forma insidiosa e sem fator desencadeante em 85% dos pacientes. Sintomas com início abrupto ou após trauma ocorrem em aproximadamente 20% dos pacientes¹.

A etiologia exata da OLLP é desconhecida, mas acredita-se que exista algum componente genético, pela maior incidência da doença em famílias com um paciente afetado⁹. Há associação com espondilite anquilosante e hiperostose esquelética difusa idiopática em até 40 a 50% dos casos^{5,10,11}. Pacientes com OLLP apresentam incidência aumentada de obesidade, intolerância à glicose e diabetes melito do tipo II. De 535 pacientes japoneses com OLLP submetidos ao teste de tolerância a glicose, 28% eram diabéticos e 18% apresentavam intolerância a glicose¹. Matsunaga et al. encontraram incidência maior de diabetes melito, hipertensão e "angina pectoris" em pacientes com OLLP e mielopatia, quando comparados com aqueles que não apresentavam comprometimento da medula espinhal². Isso pode indicar que um fator circulatório também pode estar envolvido na patogênese da doença, embora isso seja difícil de ser comprovado pela inexistência de um método clínico eficaz para a avaliação da circulação espinhal². O hipoparatiroidismo pode predispor à calcificação ectópica e ossificação mas não parece estar relacionado à hiperostose esquelética difusa ou à OLLP⁵.

O ligamento longitudinal posterior estende-se da região occipital ao sacro ao longo das margens posteriores dos corpos vertebrais e discos intervertebrais. O ligamento longitudinal posterior tem ligação com os discos intervertebrais e as vértebras, mas geralmente é separado destes pelo plexo venoso⁵. Quando o ligamento se torna hipertrofiado ou ossificado, ocorre estreitamento do canal espinhal, com compressão da medula espinhal e raízes nervosas, resultando em mielopatia e radiculopatia¹². Os pacientes com déficits neurológicos geralmente apresentam diâmetro ântero-posterior residual de 9mm ou menos². Contudo, não existe relação direta entre o diâmetro e grau do déficit neurológico¹³. Tsuyama encontrou em média um estreitamento de 40,9% do diâmetro ântero-posterior nos pacientes com a forma contínua da OLLP¹. No caso descrito, a porcentagem de estenose no canal medular foi 38%.

O diagnóstico da OLLP baseia-se nos achados radiológicos. Pela radiografia de coluna pode-se classificar a OLLP em quatro tipos: contínua, segmentar, mista e localizada^{1,2}. Como a espondilose vertebral tem alta incidência em pacientes com mais de 50 anos e apresenta-se como imagem calcificada, esta deve ser diferenciada da OLLP. Na espondilose a calcificação é localizada apenas ao nível dos discos intervertebrais, enquanto nas formas contínua, segmentar e mista de OLLP ocorre calcificação também ao nível dos corpos vertebrais. Contudo, a forma localizada da OLLP é difícil de ser diferenciada da espondilose pela sua localização ao nível dos discos intervertebrais^{5,14,15}.

Embora a OLLP possa ser diagnosticada através da radiografia simples de coluna, a presença de estruturas superpostas torna muitas vezes o diagnóstico difícil. Além disso, a incidência dos raios deve ser exatamente lateral porque, na presença de obliquidade, as margens posteriores dos corpos vertebrais podem simular a OLLP⁵. A TC é a técnica mais útil no diagnóstico de OLLP, pois permite melhor visualização de detalhes ósseos, mostrando a espessura, a extensão lateral da OLLP e a medida do grau de estenose e compressão da medula espinhal^{13,16,17}.

A mielografia, a mielotomografia e a RM são exames úteis na avaliação da extensão e gravidade da compressão da medula espinhal. Como a mielografia e a mielotomografia são procedimentos invasivos e podem estar associados a grande número de efeitos colaterais, os métodos menos invasivos devem ser utilizados antes^{5,10,15}. Estudos indicam que o diagnóstico de OLLP através da RM pode ser difícil, pois o ligamento ossificado aparece semelhante ao córtex ósseo nas sequências ponderadas de T1 e T2. Na sequência T1 a hipointensidade da OLLP pode ser confundida com o sinal do Líquor subjacente. O diagnóstico é mais fácil na sequência T2, na qual o Líquor pode ser facilmente diferenciado da OLLP. Embora a TC seja o melhor método para o diagnóstico da ossificação do ligamento, a RM é superior na avaliação da extensão e severidade da compressão da medula espinhal^{15,18-20}. A reconstrução de imagens em três dimensões, pela TC helicoidal, pode ser útil na avaliação pré-cirúrgica, pois mostra o volume da massa ossificada e sua relação com a medula espinhal e as raízes nervosas^{15,21}.

O tratamento da OLLP pode ser conservador ou cirúrgico. Em casos assintomáticos o paciente deve ser acompanhado anualmente, com avaliação neurológica e TC pois a ossificação pode aumentar e progredir para outros níveis^{1,2}. O paciente deve evitar atividades que predisponham a lesão por hiperextensão cervical como esqui, hipismo e esportes de alto impacto. Em pacientes com disfunção neurológica pode-se tentar o tratamento conservador com tração cervical, associada ou não a dexametasona para reduzir o edema. Em pacientes com mielopatia persistente ou progressiva apesar do tratamento conservador e em pacientes com dor importante indica-se o tratamento cirúrgico¹⁷. O papel da cirurgia em pacientes assintomáticos com estenose grave ainda não está definido. O objetivo do tratamento cirúrgico é aliviar a pressão sobre a coluna e/ou remover o ligamento ossificado. As opções cirúrgicas incluem a descompressão posterior com laminectomia, foraminotomia, fusão cervical anterior para estabilização e descompressão anterior com discectomia, corpectomia, remoção do ligamento e/ou fusão entre os corpos vertebrais^{5,7,22,23}.

Existe grande controvérsia na literatura em relação a melhor forma de tratamento cirúrgico para OLLP⁵. Alguns autores defendem a descompressão anterior porque esta retira diretamente a compressão do ligamento ossificado sobre a medula espinhal e raízes nervosas e diminui o risco de progressão da OLLP e maior comprometimento neurológico^{1,17}. Contudo, a descompressão anterior é procedimento de maior dificuldade técnica e com riscos potenciais de complicação⁵. Epstein revisou 112 pacientes com OLLP submetidos a tratamento cirúrgico e encontrou resultados melhores naqueles submetidos a descompressão posterior²³. Contudo, analisando apenas os 43 pacientes atendidos no seu serviço, Epstein encontrou resultados melhores naqueles pacientes submetidos a descompressão anterior²³. Cheng et al. sugerem que a descompressão anterior através da ressecção do ligamento associada a corpectomia ou discectomia deve ser realizada somente em casos de OLLP limitada a até três corpos vertebrais. Nos pacientes com maior extensão longitudinal da OLLP deve-se preferir a laminoplastia²².

A OLLP não é condição restrita ao Japão e cada vez mais casos estão sendo descritos em países ocidentais^{1,5,8,23,24}. Embora frequentemente assintomática, a OLLP pode causar mielopatia grave com déficit neurológico importante. Todos os pacientes com sinais de compressão medular ou suspeita de OLLP devem ser submetidos a radiografia de coluna cervical e TC¹⁵. Com o diagnóstico precoce, é possível prevenir ou minimizar as complicações neurológicas associadas à OLLP^{5,15}.

REFERÊNCIAS

1. Tsuyama N. Ossification of the posterior longitudinal ligament of the spine. *Clin Orthop* 1984;184:71-84.
2. Matsunaga S, Sakou T, Takemoti E, Yamaguchi M, Okano T. The natural course of myelopathy caused by ossification of the posterior longitudinal ligament in the cervical spine. *Clin Orthop* 1994;305:168-77.
3. Investigation Committee on OPLL of the Japanese Ministry of Public Health and Welfare. The ossification of the posterior longitudinal ligament of the spine. *J Jpn Orthop Assoc* 1984;55:425-40.
4. Ohtsuka K, Terayama K, Yanagihara M, et al. A radiological population study of the ossification of the posterior longitudinal ligament in the spine. *Arch Orthop Trauma Surg* 1987;106:89-93.
5. Trojan DA, Pouchot J, Pokrupa R, Ford RM, Adamsbaum C, Esdaile JM. Diagnosis and treatment of ossification of the posterior ligament of spine: report of eight cases and literature review. *Am J Med* 1992;92:296-306.
6. Bakay L, Cares HL, Smith RJ. Ossification in the region of the posterior longitudinal ligament as a cause of cervical myelopathy. *J Neurol Neurosurg Psychiatry* 1970;33:263-268.
7. Kokubun S, Sato T, Ishii Y, Tanaka Y. Cervical myelopathy in the Japanese. *Clin Orthop* 1996;323:129-138.
8. McAfee PC, Regan JJ, Bohlman HH. Cervical cord compression from ossification of the posterior longitudinal ligament in non-Orientals. *J Bone Joint Surg Br* 1987;69:569-575.
9. Koga H, Hayashi K, Takemoti E, et al. Restriction fragment length polymorphism of genes of the alpha 2(XI) collagen, bone morphogenetic protein-2, alkaline phosphatase, and tumor necrosis factor-alpha among patients with ossification of posterior longitudinal ligament and controls from the Japanese population. *Spine* 1996;21:469-473.
10. Griffiths ID, Fitzjohn TP. Cervical myelopathy, ossification of the posterior longitudinal ligament, and diffuse idiopathic skeletal hyperostosis: problems in investigation. *Ann Rheum Dis* 1987;46:166-168.
11. Olivieri I, Fiandra E, Muscat C, Barozzi L, Tomassini C, Gerli R. Cervical myelopathy caused by ossification of the posterior longitudinal ligament in ankylosing spondylitis. *Arthritis Rheum* 1996;39:2074-2077.
12. Rozario RA, Levine H, Stein BM. Cervical myelopathy and radiculopathy secondary to ossification of the posterior longitudinal ligament. *Surg Neurol* 1978;10:17-20.
13. Yamamoto I, Kageyama N, Nakamura K, Takahashi T. Computed tomography in ossification of the posterior longitudinal ligament in the cervical spine. *Surg Neurol* 1979;12:414-418.
14. Nakanishi T, Mannen T, Toyokura Y, Sakaguchi R, Tsuyama N. Symptomatic ossification of the posterior longitudinal ligament of the cervical spine. *Neurology* 1974;24:1139-1143.
15. Gaucher A, Dellestable F, Blum A, Péré P, Régent D. Ossification of the posterior longitudinal ligament of the cervical spine. *Arthritis Rheum* 1993;36:273-276.
16. Hanai K, Adachi H, Ogasawara H. Axial transverse tomography of the cervical spine narrowed by ossification of the posterior longitudinal ligament. *J Bone Joint Surg Br* 1977;59:481-484.
17. Harsh GR, Sypert GW, Winstein PR, Ross DA, Wilson CB. Cervical spine stenosis secondary to ossification of the posterior longitudinal ligament. *J Neurosurg* 1987;67:349-357.
18. Luetkehans TJ, Coughlin BF, Weinstein MA. Ossification of the posterior longitudinal ligament in Caucasians diagnosed by MR. *Am J Neuroradiol* 1987;8:924-925.
19. Widder DJ. MR imaging of ossification of the posterior longitudinal ligament. *Am J Roentgenol* 1989;153:194-195.
20. Yamashita Y, Takahashi M, Matsuno Y, et al. Spinal cord compression due to ossification of ligaments: MR imaging. *Radiology* 1990;175:843-848.
21. Terada A, Sakou T, Matsunaga S, Takemoti E, Kouichi O. 3-dimensional computed tomography of ossification of the spinal ligament. *Clin Orthop* 1997;336:137-142.
22. Cheng WC, Chang CN, Lui TN, Lee ST, Wong CH, Lin TK. Surgical treatment for ossification of the posterior longitudinal ligament of the cervical spine. *Surg Neurol* 1994;41:90-97.
23. Epstein NE. The surgical management of ossification of the posterior longitudinal ligament in 43 North Americans. *Spine* 1994;19:664-672.
24. Heller JG, Johnston RB, Goodrich A. Ossification of the posterior longitudinal ligament: a report of nine cases in non-Oriental patients. *Skeletal Radiol* 1994;23:601-606.