

# OSSIFICAÇÃO DO LIGAMENTO LONGITUDINAL POSTERIOR

## Relato de caso

Oswaldo Inácio de Tella Jr<sup>1</sup>, Marco Antonio Herculano<sup>2</sup>, Manoel Antonio Paiva Neto<sup>3</sup>, Atilio Faedo Neto<sup>3</sup>, João Francisco Crosera<sup>3</sup>

**RESUMO** - Ossificação do ligamento longitudinal posterior (OLLP) cervical é patologia rara em nosso meio que pode ser tratada por abordagem anterior ou posterior da coluna. Relatamos o caso de um homem japonês de 42 anos com paraparesia progressiva e TC e RM comprovando o diagnóstico de OLLP, submetido a correção anterior com artrodese. A fisiopatologia desta entesopatia, prevalência racial, quadro clínico, características radiológicas e opções do procedimento cirúrgico são revistos.

**PALAVRAS-CHAVE:** ossificação-ligamento longitudinal posterior, laminectomia, laminoplastia, via anterior.

### Posterior longitudinal ligament ossification: case report

**ABSTRACT** - Posterior longitudinal ligament ossification of cervical spine is a rare condition among caucasians. A 42 years old japanese patient with progressive walking difficulty was diagnosed with this pathology by CT scan and MRI and treated surgically by an anterior approach with art h rodesis. Pathophysiology, racial prevalence, clinical picture, radiological characteristics and surgical approaches options are revised.

**KEY WORDS:** ossification posterior longitudinal ligament, laminectomy, laminoplasty, anterior approach.

O ligamento longitudinal posterior (LLP) é uma lâmina longa de tecido conjuntivo localizada na região posterior dos corpos vertebrais, que se estende do forame magno ao sacro. É composto por duas camadas, uma superficial e outra profunda, sendo mais espesso na região lombar, onde pode medir 1,5 mm de espessura. Na coluna cervical sua espessura média é 0,8 mm, contendo fibras colágenas, orientadas longitudinalmente e fibras elásticas. Hipertrofia, calcificação e ossificação do ligamento podem ocorrer, segmentarmente, em associação a doença degenerativa do disco, o que pode representar processo degenerativo benigno da idade<sup>1,2</sup>. A ossificação do ligamento longitudinal posterior (OLLP) é considerada a entesopatia (inflamação de tendões ou ligamentos) com manifestação neurológica mais freqüente. Foi primeiramente descrita por Key, em 1938. De acordo com o Comitê em OLLP do Ministério de Saúde Pública do Japão, a prevalência radiográfica desta doença na-

quele país é 2%; no entanto, é ainda maior em pacientes maiores que 50 anos podendo chegar até 11%. É muito menos freqüente na raça branca com incidência estimada em 0,16%, existindo uma tendência familiar em 30% dos parentes em primeiro grau acometidos<sup>3,4</sup>.

Relatamos um caso de OLLP tratado cirurgicamente por abordagem via anterior.

### CASO

Homem japonês de 42 anos, com dificuldade progressiva de marcha há dois anos. Referia, também, dificuldade para realizar movimentos finos com as mãos. Ao exame neurológico apresentava marcha paraparética-espática, tetraparesia grau IV com sinais de liberação piramidal nos quatro membros, simétrica. Sensibilidade e esfíncteres preservados. A tomografia computadorizada (TC) e o exame de ressonância magnética (RM) da coluna cervical mostraram ossificação do ligamento longitudinal posterior ao nível de C4 e C5, com provável aderência da calcificação à dura-máter.

<sup>1</sup>Professor Adjunto Livre Docente da Disciplina de Neurocirurgia da Universidade Federal de São Paulo (UNIFESP) e do Hospital Professor Edmundo Vasconcelos, São Paulo SP, Brasil; <sup>2</sup>Professor Adjunto da Disciplina de Neurocirurgia da Faculdade de Medicina de Jundiaí e do Hospital Professor Edmundo Vasconcelos; <sup>3</sup>Médico Neurocirurgião do Hospital São Paulo e do Hospital Professor Edmundo Vasconcelos.

Recebido 18 Março 2005, recebido na forma final 25 Agosto 2005. Aceito 14 Outubro 2005.

Dr. Oswaldo Inácio de Tella Jr. - Rua São Paulo Antigo 145 / Bloco F / Apto 11 - 05864-010 São Paulo - SP Brasil. E-mail: detella@globo.com

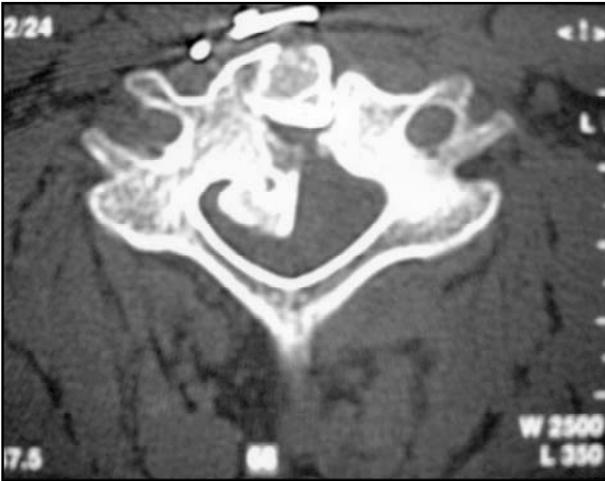


Fig 1. Tomografia computadorizada de coluna cervical mostrando descompressão parcial ao nível de C5 com enxerto de crista ilíaca e placa anterior.

O paciente foi submetido a corpectomia de C4 e C5 com remoção aparentemente parcial da calcificação, com ruptura da membrana dural durante a separação da ossificação. Por não ser possível a sutura da dura-máter, optamos pelo uso de Surgicel e cola de fibrina para prevenção de fístula líquórica. Utilizado enxerto de crista ilíaca para substituição dos corpos vertebrais. Foi feita art rodese com placa (Fig 1). Foi deixada drenagem lombar externa por 5 dias.

O paciente evoluiu satisfatoriamente por um ano, mas como houve piora da marcha e funções dos membros superiores, optou-se por nova abordagem com ampliação da corpectomia súpero-inferior e lateralmente. Não reutilizamos o enxerto ósseo e utilizamos sistema de espaçador de falha ósseo (*fuser*) para a manutenção da lordose cervical (Fig 2). O paciente evoluiu satisfatoriamente estando em acompanhamento ambulatorial.

## DISCUSSÃO

Histopatologicamente, na OLLP observa-se ossifi-

cação encondral e intramenbranosa do ligamento, não se tendo certeza se é precedido ou não por hipertrofia do ligamento<sup>5</sup>. Proliferação de pequenos vasos é observada nos estágios iniciais, sendo uma doença, possivelmente, de herança autossômica dominante. Yamamoto et al., estudaram o provável envolvimento do CTGF/Hcs24 (fator de crescimento multifuncional de fibroblastos, condrócitos e células de endotélio vascular) na formação da OLLP<sup>5,6</sup>.

A maioria dos pacientes com evidência radiográfica dessa doença é assintomática. Manifestações clínicas são mais exuberantes em pacientes com estenose congênita de canal<sup>7,8</sup>. A localização cervical corresponde a 90% dos casos. Nos EUA o número médio de corpos vertebrais acometidos é 2,25; o segundo local mais acometido é o torácico (9%)<sup>9,10</sup>.

A mielopatia é conseqüente a degeneração articular terminal dos ramos perfurantes centrais da medula com comprometimento da substância cinzenta e tratos longos secundários a necrose isquêmica e edema<sup>11</sup>. É sugerido que não somente a compressão pela ossificação mas também fatores dinâmicos de instabilidade sejam responsáveis pela OLLP. A presença de estenose do canal também é importante. A maioria dos pacientes, com compressões do canal maior que 60%, sofrerão mielopatia<sup>5,12,13</sup>.

As manifestações clínicas devem-se a mielopatia, radiculopatia ou ambas. Dor e disestesia estão presentes em 48% dos casos, dor cervical em 42%, dor ou disestesia em membros inferiores em 19%, disfunção motora em membros inferiores em 10,4%, disfunção motora de membros superiores e distúrbio urinário em 1%. A maioria dos casos tem desenvolvimento lento, com piora após pequenos traumas, ocorrendo em 21-38% dos casos<sup>3,13,14</sup>. É mais comum em pacien-

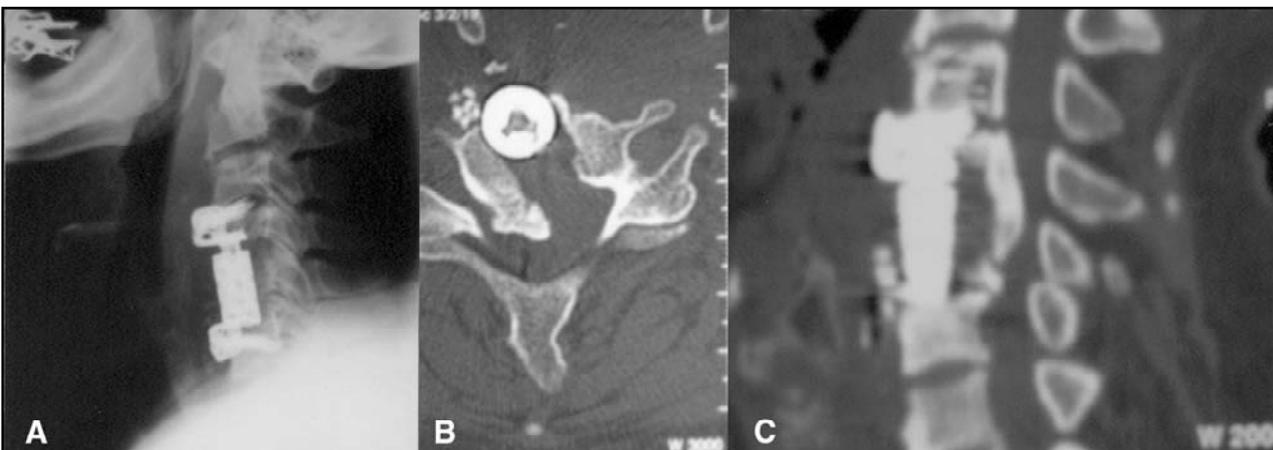


Fig 2. Radiografia (A) e tomografia computadorizada de coluna cervical (B), com reconstrução sagital (C), mostrando descompressão no canal raquiano e presença de espaçador (*fuser*) com parafusos acoplados.

tes obesos com intolerância a glicose, indicando uma relação próxima entre a ossificação e o metabolismo de glicose. Também pode complicar acromegalia, hipoparatiroidismo e raquitismo<sup>15</sup>.

De acordo com forma observada em radiografias laterais a OLLP foi classificada em segmentar (sítio de ossificação adjacente a um único corpo vertebral - 36%), contínua (dois ou mais corpos contíguos - 27%), mista (29%) e localizada (8%); é mais frequentemente observada em C5. Os pacientes geralmente apresentam, concomitantemente, OLLA (ossificação do ligamento longitudinal anterior) em 62%, OLLP toracolombar em 37% e calcificação do ligamento amarelo em 37%<sup>3</sup>.

Seguimentos tardios dos pacientes, em dez anos, mostraram que durante o curso natural da doença há aumento da espessura e comprimento em até 76% dos casos; em 40% maior que 2 mm, sendo menor nas formas segmentares<sup>16</sup>. O crescimento é marcadamente aumentado após laminectomia, talvez pelo aumento da mobilidade da coluna nestes casos. Recrescimento é bem menos freqüente após via anterior ou laminoplastia<sup>16-18</sup>.

Devido a OLLP consistir massa ossificada, a TC é o método mais confiável para sua identificação. Na RM aparece imagem hipointensa em T1 e T2, entre o corpo vertebral e o saco dural. Porém, a RM é melhor para avaliar o dano medular, que se apresenta como hipersinal medular em T2, com severidade proporcional ao do grau clínico<sup>19</sup>.

A descompressão da coluna cervical para tratar a mielopatia pode ser realizada por via anterior ou posterior. A escolha da melhor via depende do alinhamento cervical, multiplicidade de níveis vertebrais acometidos (geralmente posterior quando três ou mais níveis são acometidos) e preferência do cirurgião<sup>20,21</sup>. A laminectomia é considerada uma técnica cirúrgica eficaz, mas acarreta risco de instabilidade pós-operatório e cifose em até 47% dos casos, que é menos observado na laminoplastia. A laminectomia também esta associada à formação de membrana fibrótica que pode causar re-estenose. Também pode haver progressão de ossificação anterior em até 70% casos. Houten e Cooper adicionaram o uso de fixação com parafusos de massa lateral, obtendo bons resultados<sup>21</sup>.

A laminoplastia confere maior estabilidade que a laminectomia, promove proteção óssea da coluna e minimiza a invasão da dura-máter pela cicatriz, além de possuir as outras vantagens relacionadas à

via posterior como: tecnicamente mais fácil, estabilidade pós-operatória imediata maior, manutenção de certo grau de mobilidade da coluna. No entanto, a descompressão completa é mais difícil na OLLP<sup>17,18,22</sup>.

A via anterior pode ser realizada com a extirpação da OPLL, que pode gerar sangramento de plexo venoso e lesão dural. No método "floating", diminui o índice de fístula de 16-25% para 5,1%. Na técnica "floating" a OPLL é isolada das estruturas ósseas e certo grau de hiperostose é deixado, com a expectativa de que, com o passar do tempo, a massa se desloque anteriormente<sup>23</sup>. O sucesso da via anterior depende de manipulação atraumática, pequenas ilhas de ossificação podem ser deixadas grudadas para se evitar fístula liquórica.

A via anterior permite abordagem direta da lesão para descompressão. O uso de placa anterior oferece a vantagem de estabilidade imediata, aumento do índice de fusão e menor incidência de extrusão do enxerto. Quando construções em vários níveis são planejadas, principalmente quando mais que dois níveis associados, a percentagem de falência do sistema é de até 20%, devendo-se considerar a via combinada, anterior e posterior<sup>10,18,24</sup>.

A capacidade de antecipar se a dura-máter ventral esta ausente, ao se realizar a via anterior, pode facilitar o planejamento cirúrgico. O sinal tomográfico de dupla camada, caracterizado por linhas anteriores e posteriores de calcificação separados por LLP hipertrofiado é o mais fidedigno para predizer a ausência de dura-máter. O sinal do "C", que mostra massa irregular com formato de gancho, serve para predizer a penetração dural com acurácia moderada. Alguns autores consideram ser alto o grau de invasão dural quando mais que 50% do canal está acometido<sup>25,26</sup>. Defeitos na dura podem ser recobertos por fascia. Yamamura advoga não retirar e somente isolar a OLLP muito aderida a dura-máter, isolando-a do corpo vertebral<sup>23</sup>.

Geralmente, para avaliar efeito de descompressão, a RM é utilizada visibilizando o grau em que a medula esta liberada das estruturas vizinhas. O estudo da velocidade de fluxo liquórico, por cineressonância, permite avaliação quantitativa da descompressão medular<sup>9,10,24</sup>.

Melhores resultados cirúrgicos geralmente são observados em pacientes mais jovens e com grau de mielopatia menos severa, o que recomenda terapia mais precoce<sup>10,16,17,24</sup>. Tani et al., em estudo retrospectivo com 26 pacientes submetidos a tratamento

cirúrgico, compararam o resultado da descompressão anterior em 14 pacientes, com a posterior em 12, considerando mais segura a primeira, que não apresentou complicações no pós-operatório imediato, em contrapartida com 33% dos pacientes em que utilizou laminoplastia, onde houve piora neurológica. Segundo os autores, o resultado pior na laminoplastia pode ser decorrente da diminuição da lordose, que aumenta o vetor de compressão anterior e também por limitação na descompressão dos limites laterais<sup>18</sup>. Epstein reviu os resultados cirúrgicos em seis séries de casos publicados na literatura, que compararam resultados de acordo com estado neurológico dos pacientes no pré-operatório. Não houve diferença em relação a via de abordagem utilizada e resultado cirúrgico<sup>9</sup>. Iwasaki et al., observaram progressão radiológica pós-operatória da calcificação para níveis adjacentes em 70% de 92 casos submetidos a laminoplastia, sendo somente 3% destes sintomáticos. Consideraram como principais fatores de risco para a progressão da doença: a idade precoce de aparecimento de sintomas e calcificação do tipo contínua<sup>17</sup>.

Nosso paciente, pertencente à raça amarela, apresentava forma contínua da OLLP com comprometimento neurológico progressivo. A descompressão via anterior, acompanhada com fixação com placa e parafusos, foi escolhida visando a descompressão direta do canal e a fixação evitar instabilidade tardia, visto tratar-se de doente jovem. A expansão sintomática da lesão de maneira precoce, que geralmente é menos frequente quando se utiliza a via anterior, determinou a reabordagem cirúrgica com melhora sintomática.

## REFERÊNCIAS

- Scola HR, Werneck LC, Iwamoto FM, et al. Ossificação do ligamento longitudinal posterior da coluna cervical: relato de caso. *Arq Neuropsiquiatr* 1998;56:480-485.
- Mizuno J, Nakagawa H, Hashizuma Y. Analysis of hypertrophy of the posterior longitudinal ligament of the cervical spine, on the basis of clinical and experimental studies. *Neurosurgery* 2000;49:1091-1098.
- Tsuyama N. The ossification of the posterior longitudinal ligament of spine: report of the investigation comite on OPLL of the Japanese Ministry of Public Health and Welfare. *J JPN Orthop Assoc* 1981;55:425-440.
- Ohtsuka K, Terayama K, Yanagihara M. A radiological population study on the ossification of posterior longitudinal ligament in the spine: incidence of roentgenographic findings. *J Neurol Sci* 1973;19:375-391.
- Matsunaga S, Kukita M, Hayashi K, et al. Pathogenesis of myelopathy in patients with ossification of the posterior longitudinal ligament. *J Neurosurg* 2002;96(Suppl):168-172.
- Yamamoto Y, Furukawa K, Ueyama K, Nakanishi T, Takigawa M, Harata S. Possible roles of CTGF/Hcs24 in the initiation and development of ossification of the posterior longitudinal ligament. *Spine* 2002;27:1852-1857.
- Koyanagi I, Iwasaki Y, Hida K, Imamura H, Fujimoto S, Akino M. Acute cervical cord injury associated with ossification of the posterior longitudinal ligament. *Neurosurgery* 2003;53:887-892.
- Matsunaga S, Sakou T, Hayashi K, Ishidou Y, Hirotsu M, Komiya S. Trauma-induced myelopathy in patients with ossification of the posterior longitudinal ligament. *J Neurosurg* 2002;97(Suppl):172-175.
- Epstein NE. Ossification of the posterior longitudinal ligament in evolution in 12 patients. *Spine* 1994;19:673-681.
- Epstein N. Diagnosis and surgical management of cervical ossification of the posterior longitudinal ligament. *Spine J* 2002;2:436-449.
- Ono K, Ota H, Tada K. Ossified posterior longitudinal ligament: a clinical pathological study. *Spine* 1977;2:109-127.
- Ohishi H, Furukawa K, Iwasaki K, et al. Role of prostaglandin I2 in the gene expression induced by mechanical stress in spinal ligament cells derived from patients with ossification of the posterior longitudinal ligament. *J Pharmacol Exp Ther* 2003;305:818-824.
- Sugimori K, Kawaguchi Y, Ohmori K, Kanamori M, Ishihara H, Kimura T. Significance of bone formation markers in patients with ossification of the posterior longitudinal ligament of the spine. *Spine* 2003;28:378-379.
- Vasudevan A, Knuckey NW. Ossification of the ligamentum flavum. *J Clin Neurosci* 2002;9:311-313.
- Kobashi G, Washio M, Okamoto K, et al and the Japan Collaborative Epidemiological Study Group for Evaluation of Ossification of the Posterior Longitudinal Ligament of the Spine Risk. High body mass index after age 20 and diabetes mellitus are independent risk factors for ossification of the posterior longitudinal ligament of the spine in Japanese subjects: a case-control study in multiple hospitals. *Spine* 2004;29:1006-1010.
- Matsunaga S, Sakou T, Taketomi E, Komiya S. Clinical course of patients with ossification of the posterior longitudinal ligament: a minimum 10-year cohort study. *J Neurosurg Spine* 2004;100:245-248.
- Iwasaki M, Kawaguchi Y, Kimura T, Yonenobu K. Long-term results of expansive laminoplasty for ossification of the posterior longitudinal ligament of the cervical spine: more than 10 years follow up. *J Neurosurg* 2002;96(Suppl):180-189.
- Tani T, Ushida T, Ishida K, Iai H, Noguchi T, Yamamoto H. Relative safety of anterior microsurgical decompression versus laminoplasty for cervical myelopathy with a massive ossified posterior longitudinal ligament. *Spine* 2002;27:2491-2498.
- Bonneville F, Grossman RL. [Quid? Ossification of the posterior common vertebral ligament] Quid? L'ossification du ligament vertébral commun postérieur (OLVCP). *J Radiol* 2003;84:1991-1993.
- Maiuri F, Iaconetta G, Gambardella A, Buonamassa S. Cervical spine stenosis due to ossification of the posterior longitudinal ligament in Italian patients: surgical treatment and outcome. *Arch Orthop Trauma Surg* 2000;120:441-444.
- Houten J, Cooper P. Laminectomy and posterior cervical palting for multilevel cervical spondylotic myelopathy and OLLP: effects on cervical alignment, spinal cord compression and neurological outcome. *Neurosurgery* 2003;52:1081-1089.
- Kamizono J, Matsunaga S, Hayashi K, et al. Occupational recovery after open-door type laminoplasty for patients with ossification of the posterior longitudinal ligament. *Spine* 2003;28:1889-1892.
- Yamura I. Anterior approach ( anterior floating method) and its surgical results for cervical myelopathy caused by ossification of the posterior longitudinal ligament. *J West Pac Orthop Assoc* 1990;27:47-55.
- Epstein NE. Circumferential cervical surgery for ossification of the posterior longitudinal ligament: a multianalytic outcome study. *Spine* 2004;29:1340-1345.
- Tanno M, Furukawa KI, Ueyama K, Harata S, Motomura S. Uniaxial cyclic stretch induces osteogenic differentiation and synthesis of bone morphogenetic proteins of spinal ligament cells derived from patients with ossification of the posterior longitudinal ligaments. *Bone* 2003;33:475-484.
- Bougaki M, Sawamura S, Matsushita F, Hanaoka K. Difficult intubation due to ossification of the anterior longitudinal ligament. *Anaesthesia* 2004;59:303-304.