

ESCOLA SUPERIOR DE CIÊNCIAS DA SANTA CASA DE MISERICÓRDIA DE
VITÓRIA – EMESCAM

LUIS FELIPE SCAMPINI SIQUEIRA RANGEL
MATHEUS KUSTER RONCONI
PATRICK BOLZAN GUIDONI

**SÍNDROME DE GRISEL RELATO DE CASO E REVISÃO DE LITERATURA:
FOLLOW UP DE 7 ANOS DE EVOLUÇÃO COM TRATAMENTO INCRUENTO**

VITÓRIA
2022

LUIS FELIPE SCAMPINI SIQUEIRA RANGEL
MATHEUS KUSTER RONCONI
PATRICK BOLZAN GUIDONI

**SÍNDROME DE GRISEL RELATO DE CASO E REVISÃO DE LITERATURA:
FOLLOW UP DE 7 ANOS DE EVOLUÇÃO COM TRATAMENTO INCRUENTO**

Trabalho de Conclusão de Curso apresentado à
Escola Superior de Ciências da Santa Casa de
Misericórdia de Vitória – EMESCAM, como
requisito parcial para obtenção do grau de médico.

Orientador: Charbel Jacob Junior

VITÓRIA
2022

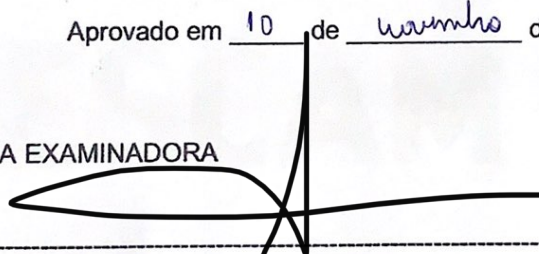
LUIS FELIPE SCAMPINI SIQUEIRA RANGEL
MATHEUS KUSTER RONCONI
PATRICK BOLZAN GUIDONI

**SÍNDROME DE GRISEL RELATO DE CASO E REVISÃO DE LITERATURA:
FOLLOW UP DE 7 ANOS DE EVOLUÇÃO COM TRATAMENTO INCRUENTO**

Trabalho de Conclusão de Curso apresentado ao curso de Medicina da Escola Superior de Ciências da Santa Casa de Misericórdia de Vitória – EMESCAM, como requisito parcial para obtenção do grau de médico.

Aprovado em 10 de novembro de 2022

BANCA EXAMINADORA



Prof. Dr. Charbel Jacob Junior
Escola Superior de Ciências da Santa Casa de
Misericórdia de Vitória – EMESCAM
ORIENTADOR



Prof. Dr. Igor Machado Cardoso
Escola Superior de Ciências da Santa Casa de
Misericórdia de Vitória – EMESCAM
AVALIADOR



Prof. Dr. Igor de Barcellos Zanon
Escola Superior de Ciências da Santa Casa de
Misericórdia de Vitória – EMESCAM
AVALIADOR

Queremos dedicar, em primeiro lugar, a Deus, que iluminou nosso caminho durante toda esta caminhada. Aos nossos pais, irmãos, e toda nossa família que, com muito carinho e apoio, não mediram esforços para que chegássemos até essa etapa da nossa vida. Aos professores, pela paciência na orientação e incentivo que tornaram possível a conclusão deste trabalho.

Aos nossos familiares, por todo apoio e amor incondicional, vocês são a nossa base.

Ao Dr. Charbel Jacob Junior, grande fonte de inspiração, e a Dra. Marcela por
toda disponibilidade e atenção.

“Acreditar na medicina seria a suprema loucura se não acreditar nela não fosse uma maior ainda, pois desse acumular de erros, com o tempo, resultaram algumas verdades.” (Proust)

RESUMO

Objetivo: Relatar a eficácia terapêutica do tratamento incruento para um caso de Síndrome de Grisel, em paciente de 9 anos. **Relato de Caso:** Paciente masculino, 16 anos atualmente, deu entrada em nosso serviço com 9 anos de idade, apresentando quadro de cervicalgia de etiologia atraumática, deformidade, limitação da amplitude de movimentos e infecção de vias aéreas superiores (IVAS) três semanas antes do início dos sintomas. Inicialmente, tratado como torcicolo espasmódico, com resolução parcial após uso de sintomáticos. Foi submetido a radiografias e tomografia computadorizada (TC) em que foi visualizada subluxação rotatória C1-C2 e à aplicação de halo craniano e tração em centro cirúrgico, no qual se manteve por 15 dias em cadeira de Stagnara com tração progressiva, e, posteriormente, usou um halo vest por 12 semanas. **Discussão:** Com a terapia incruenta obteve-se redução C1-C2 com índice mensurado no plano coronal e axial de 5 mm. Após 7 anos de seguimento clínico, não foi observada perda funcional ou limitações de quaisquer natureza, parâmetros avaliados por questionários de qualidade de vida e funcionalidade da coluna cervical. Além dos exames de imagem não evidenciarem alterações cervicais importantes. **Considerações Finais:** Não houve relato do paciente a respeito de episódios de recorrência desde a realização do tratamento proposto. Ficou claro para a equipe deste trabalho o sucesso da abordagem terapêutica conservadora no caso exposto.

Palavras-chave: Síndrome de Grisel

ABSTRACT

Objective: Report the therapeutic therapy of conservative treatment for a case of Grisel Syndrome in a 9-year-old patient. **Case Report:** A 16-year-old male patient came to our service at the age of 9 years, presenting with atraumatic mobility neck pain, deformity, limited range of motion and upper airway infection (URI) three weeks before onset of symptoms. Initially, was treated as spasmodic torticollis, with partial resolution after symptomatic use. Progressive CT application and maintenance that was kept computerized was visualized C1-C2 rotational subluxation and surgical halo traction on surgical days, in which if for 15 years of operation, and subsequently wearing a halo vest for 12 weeks. **Discussion:** With non-surgical therapy, there was a reduction in C1-C2 with an index measured in the coronal and axial planes of 5 mm. After 7 years of clinical follow-up, no functioning of any kind was observed, preserving the parameters of quality of life and functionality of the cervical spine. In addition to imaging exams, they do not show important cervical changes. **Final Considerations:** There was no patient report regarding repetition since the proposed treatment was performed. It was clear to the team of this work the success of the conservative therapeutic approach in the exposed case.

Keywords: Grisel Syndrome.

LISTA DE FIGURAS

Figura 1 – A, tipo I; B, tipo II; C, tipo III; D, tipo IV.....	2
Figura 2 – Imagem clínica de paciente com inclinação da cabeça para a direita e mento rodado contralateralmente.....	5
Figura 3 – Tomografia computadorizada; corte axial mostrando subluxação rotatória em C1-C2.....	5
Figura 4 – Tomografia computadorizada; corte coronal mostrando subluxação rotatória em C1-C2.....	6
Figura 5 – Radiografia transoral de coluna cervical mostrando subluxação em C1-C2.....	6
Figura 6 – Primeiras intervenções.....	7
Figura 7 – Tomografia computadorizada; corte frontal mostrando redução aceitável da subluxação em C1-C2.....	7
Figura 8 – Tomografia computadorizada; corte axial mostrando redução aceitável da subluxação em C1-C2.....	8
Figura 9 – Imagem clínica do paciente em vista anteroposterior e perfil após redução.....	8
Figura 10 – Classificação de Fielding para Subluxação Atlantoaxial.....	11
Figura 11 – Classificação de Fielding e Hawking.....	11
Figura 12 – Tomografia Computadorizada da coluna cervical. Corpos vertebrais com altura e alinhamento posterior preservados, com mínimo deslocamento à esquerda do eixo em relação ao atlas.....	14
Figura 13 – Fotos em consultório mostrando amplitude dos movimentos de flexão e extensão preservada.....	14

LISTA DE SIGLAS

EMESCAM – Escola Superior de Ciências da Santa Casa de Misericórdia de Vitória

HSCMV – Hospital Santa Casa de Misericórdia de Vitória

TCLE – Termo de Consentimento Livre e Esclarecido

SG - Síndrome de Grisel

IVAS - Infecção das vias aéreas superiores

TC - Tomografia computadorizada

RNM - Ressonância Nuclear Magnética

SUMÁRIO

1 INTRODUÇÃO	1
1.1 OBJETIVOS.....	2
1.2 JUSTIFICATIVA.....	2
1.3 TIPO DE ESTUDO.....	3
1.4 LOCAL DA INVESTIGAÇÃO.....	3
1.5 ASPECTOS ÉTICOS.....	3
1.6 TÉCNICA DE COLETA DE DADOS.....	4
1.6.1 Entrevista com paciente e família	4
1.6.2 Pesquisa bibliográfica	4
2 RELATO DE CASO	4
3 DISCUSSÃO	8
4 CONSIDERAÇÕES FINAIS	14
REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS	15

1 INTRODUÇÃO

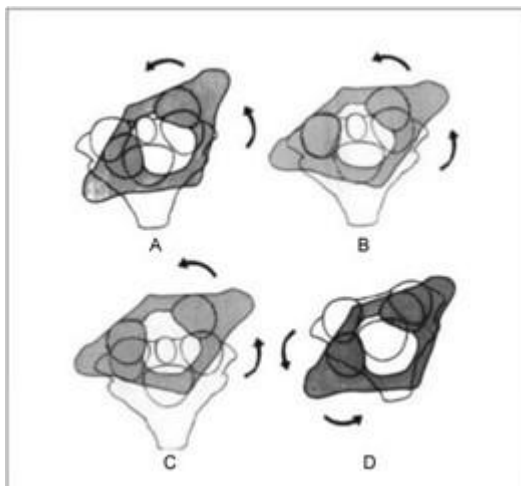
A síndrome de Grisel (SG) foi descrita pela primeira vez por Sir Charles Bell em 1830, mas só ganhou seu nome homônimo depois que uma série de dois pacientes foi descrita por Pierre Grisel em 1930⁶. É uma condição rara caracterizada por subluxação rotatória não traumática da articulação atlantoaxial, causada por inflamação prévia ao redor da cabeça e pescoço¹¹.

A patogênese dessa síndrome ainda permanece obscura. Embora várias teorias tenham sido discutidas até agora, a mais aceita é o aumento da flexibilidade ligamentar durante a inflamação local, que é a principal razão para a subluxação atlantoaxial¹⁰. Acredita-se que a infecção se espalhe da orofaringe e nasofaringe para os ligamentos atlanto-axiais por via hematogênica, por meio de veias faringovertebrais que perfuram a fáscia pré-vertebral e drenam para os plexos ao redor do odontóide. A resposta inflamatória leva então à hiperemia dos ligamentos e cápsulas articulares, causando uma frouxidão patológica que permite a rotação anormal do atlas sobre o eixo⁶.

Deve-se suspeitar de SG em pacientes com torcicolo doloroso e febre, amplitude de movimento restrita e dor na tentativa de redução, na ausência de trauma, mas com história de infecções de vias aéreas superiores ou de cabeça e pescoço ou cirurgia otorrinolaringológica¹⁶. Acomete frequentemente a população pediátrica, sendo 90% dos pacientes menores de 21 anos. Pode ser acompanhada de sintomas neurológicos que variam de parestesias nos membros superiores a disfunção da bexiga, tetraplegia e insuficiência respiratória⁷.

Radiografias e tomografias computadorizadas (padrão-ouro) da coluna cervical são necessárias para confirmar o diagnóstico e descrever o grau de deslocamento da articulação atlantoaxial, o que permite a classificação no sistema de graduação Fielding-Hawkins¹⁶ que em 1977, foram os primeiros a agrupar essas lesões e utilizar o termo deformidade rotatória fixa para denominá-las. São lesões classificadas em quatro tipos (Figura 1): tipo I, II, III e IV; que serão melhor descritas a seguir neste trabalho.

Figura 1 – A, tipo I; B, tipo II; C, tipo III; D, tipo IV.



Fonte: *Roncaglio et al., 2020.*

O tratamento das lesões é variado e depende da sua classificação. As lesões rotacionais nas crianças, geralmente decorrentes de processos infecciosos, têm curso benigno. São tratadas com medicamentos analgésicos e anti-inflamatórios e com imobilização cervical para melhora da dor. Se a subluxação persistir, tração mentoniana ou com halo craniano deve ser instituída. A cirurgia de artrodese entre C1 e C2 consiste em uma opção de exceção e é utilizada na falha dos tratamentos anteriores²⁶.

1.1 OBJETIVOS

O trabalho tem como objetivo avaliar e compreender os impactos e a evolução a longo prazo da Síndrome de Grisel em que foi realizado tratamento incruento e sete anos de seguimento. Além disso, realizar uma revisão de literatura acerca da síndrome estudada.

1.2 JUSTIFICATIVA

Com a descrição do presente relato de caso, propõe-se contribuir para a comunidade médica, de uma maneira ímpar e inovadora uma vez que não foram encontrados relatos de casos de Síndrome de Grisel com tratamento incruento e

segmento expressivo (sete anos). Dessa forma, pretende-se não só relatar um caso de subluxação rotatória não traumática da articulação atlantoaxial, mas também disponibilizar informações sobre a conduta e propedêutica a ser tomada diante de novos casos similares que possam surgir, além de colaborar para o aumento do conhecimento sobre o assunto e suas repercussões a curto e longo prazo.

1.3 TIPO DE ESTUDO

Trata-se de um estudo descritivo, qualitativo, de relato de caso, com follow up de 7 anos e revisão da literatura, com artigos obtidos na base de dados PubMed e informações coletadas a partir de consultas presenciais, entrevistas por ligação telefônica com a família e com o paciente em estudo. Os exames complementares foram fornecidos pelos mesmos.

1.4 LOCAL DA INVESTIGAÇÃO

O estudo foi realizado pelos acadêmicos integrantes da pesquisa em um ambiente acadêmico na EMESCAM - Escola Superior de Ciências da Santa Casa de Misericórdia de Vitória, localizada na Av. Nossa Sra. da Penha, 2190 - Bela Vista, Vitória - ES, 29027-502.

1.5 ASPECTOS ÉTICOS

Por se tratar do acompanhamento de um paciente menor de idade, ao longo da realização da coleta de informações, buscou-se estabelecer sempre contato prévio com os responsáveis legais, tanto para confirmar informações quanto para solicitar autorização necessária para a exposição dos dados contidos neste trabalho. Para resguardo e proteção tanto do paciente quanto dos responsáveis pelo estudo, foi utilizado um Termo Consentimento Livre e Esclarecido (TCLE).

1.6 TÉCNICA DE COLETA DE DADOS

1.6.1 Entrevista com paciente e família

A família foi informada previamente pelo Dr. Charbel Jacob, orientador deste trabalho, sobre a realização da pesquisa de relato de caso do paciente com SG. Após esse momento inicial, foi combinado entre as partes uma data oportuna para ligação telefônica e coleta de dados necessários para a escrita do trabalho. Foram realizadas duas ligações, a primeira com a mãe e a segunda com o próprio paciente, na qual também foram aplicados questionários para avaliação da qualidade de vida e funcionalidade (Questionário de Qualidade de Vida SF-36 e Índice de Incapacidade do Pescoço - Questionário de Coluna Cervical de Veron e Mior).

1.6.2 Pesquisa bibliográfica

A base de dados utilizada para a revisão da literatura foi o PubMed. Como estratégia de busca, foi utilizada como palavra-chave: Grisel's syndrome. Os filtros utilizados foram: idioma, data de publicação e disponibilização gratuita do texto completo, limitando o resultado a estudos em inglês e publicados nos últimos cinco anos. Foram encontrados vinte e oito artigos e após leitura do título e resumo foram excluídos seis artigos do total, resultando em vinte e dois artigos para serem incluídos na pesquisa. À medida que o trabalho foi escrito, foram adicionados artigos pesquisados individualmente para enriquecimento didático de conteúdos relacionados com a síndrome em discussão.

2 RELATO DE CASO

Paciente masculino, 16 anos atualmente, deu entrada em nosso serviço com 9 anos de idade, apresentando quadro de dor cervical, deformidade e limitação da amplitude de movimentos há 50 dias, sem história de trauma, tratado previamente como torcicolo espasmódico. Na história pregressa, apresentou quadro de infecção de vias aéreas superiores (IVAS) nas 3 semanas anteriores ao início dos sintomas,

com resolução parcial após uso de sintomáticos. Ao exame clínico, foi observada limitação da amplitude de movimentos cervicais, com inclinação da cabeça para a direita e desvio do mento contralateral, sem déficit neurológico (Figura 2).

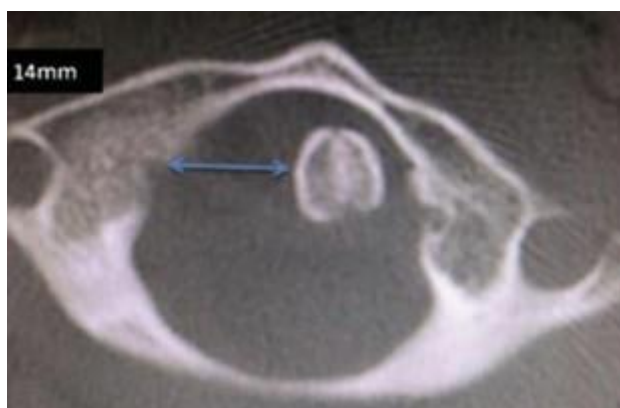
Figura 2 – Imagem clínica de paciente com inclinação da cabeça para a direita e mento rodado contralateralmente



Fonte: *Roncaglio et al., 2020.*

Foi submetido a radiografias e tomografia computadorizada (TC) em que foi visualizada subluxação rotatória C1-C2 (Figuras 3, 4 e 5).

Figura 3 – Tomografia computadorizada; corte axial mostrando subluxação rotatória em C1-C2.



Fonte: *Roncaglio et al., 2020.*

Figura 4 – Tomografia computadorizada; corte coronal mostrando subluxação rotatória em C1-C2.



Fonte: *Roncaglio et al., 2020.*

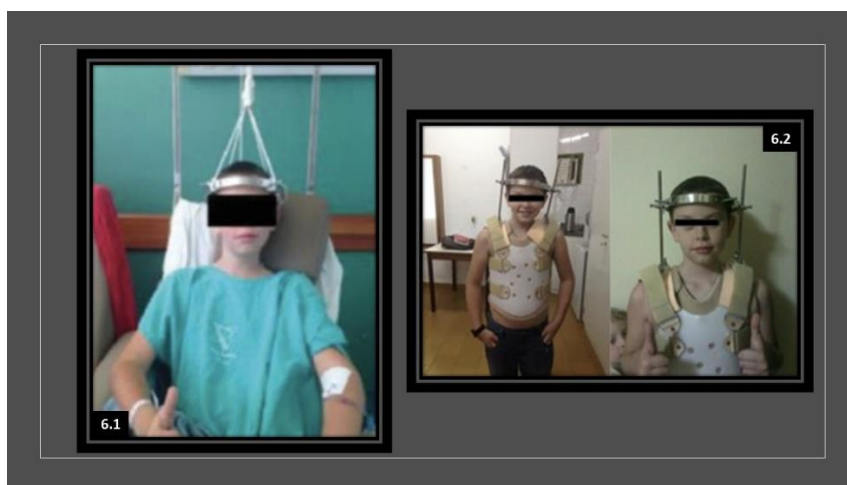
Figura 5 – Radiografia transoral de coluna cervical mostrando subluxação em C1-C2.



Fonte: *Roncaglio et al., 2020.*

O paciente foi submetido à aplicação de halo craniano e tração em centro cirúrgico, no qual se manteve por 15 dias em cadeira de Stagnara com tração progressiva (Figura 6.1), e, posteriormente, usou um halo vest por 12 semanas (Figura 6.2), obtendo redução C1-C2 com índice mensurado no plano coronal e axial de 5mm (Figuras 7 e 8).

Figura 6 – Primeiras intervenções. **6.1:** Paciente em cadeira de Stagnara com tração progressiva; **6.2:** Foto clínica imediata à instalação do halo vest para redução incruenta, à esquerda, e após 15 dias de utilização, à direita.



Fonte: autoria própria.

Figura 7 – Tomografia computadorizada; corte frontal mostrando redução aceitável da subluxação em C1-C2.



Fonte: Roncaglio et al., 2020.

Figura 8 – Tomografia computadorizada; corte axial mostrando redução aceitável da subluxação em C1-C2.



Fonte: *Roncaglio et al., 2020.*

O paciente apresentou boa evolução com o tratamento proposto e não evoluiu com limitação funcional da amplitude de movimento da coluna cervical (Figura 9) após 6 meses do tratamento.

Figura 9 – Imagem clínica do paciente em vista anteroposterior e perfil após redução.



Fonte: *Roncaglio et al., 2020.*

3 DISCUSSÃO

A síndrome de Grisel é uma subluxação rotatória inflamatória das articulações atlantoaxial; apresenta-se clinicamente como torcicolo ou cervicalgia, e observa-se diminuição da mobilidade cervical, com hiperfrouxidão dos ligamentos alares

transversos da articulação atlantoaxial, evidenciados em intervenções cirúrgicas^{8,9,13,17}. Dentre os sinais e sintomas é possível encontrar também disfagia e febre⁸.

É uma condição rara predominantemente descrita na população pediátrica^{13,14,17}. A alta predominância de casos em crianças provavelmente está ligada à combinação de alguns fatores, como: maior frouxidão ligamentar da região cervical, hiper mobilidade de C1 sobre C2 com maior intervalo atlas-Dens, músculos cervicais fracos, formação óssea imatura, articulações facetárias orientadas horizontalmente, dobras sinoviais maiores nas articulações occipito-atlanto-axiais, hipertrofia adenotonsilar e uma maior taxa de infecções das vias aéreas superiores^{16,17}.

A síndrome é atraumática, aparecendo após infecções otorrinolaringológicas por disseminação hematogênica, com distúrbios ósseos, oculares, ligamentares, psiquiátricos ou neurológicos após cirurgias de cabeça e pescoço^{9,10}. Além disso, o torcicolo na infância pode estar associado a agentes infecciosos, incluindo *Streptococcus pyogenes*, *Bacteroides ureolyticus*, *Mycobacterium*, *Pseudomonas aeruginosa*, *Staphylococcus aureus*, *Staphylococcus epidermidis* resistente à meticilina, vírus Epstein-Barr e doença de Kawasaki^{9,17}.

As infecções de faringe posterior seguidas de disseminação hematogênica para as articulações cervicais superiores com hiperemia e relaxamento anormal do ligamento transversal desempenham papel central na explicação etiológica do quadro¹⁰. Isso se deve ao fato de que o plexo venoso periodontal drena a região faríngeo pósterio-superior e não possui linfonodo, a inflamação séptica, portanto, pode se espalhar facilmente da faringe para as articulações cervicais superiores¹⁰. O principal estabilizador da articulação atlantoaxial é o ligamento transversal, enquanto estabilizadores secundários são ligamentos alares¹⁰. Somando-se a isso, a infecção e inflamação nasofaríngea causam hiperemia que pode enfraquecer os ligamentos entre o atlas e o eixo, resultando em subluxação^{10,14}.

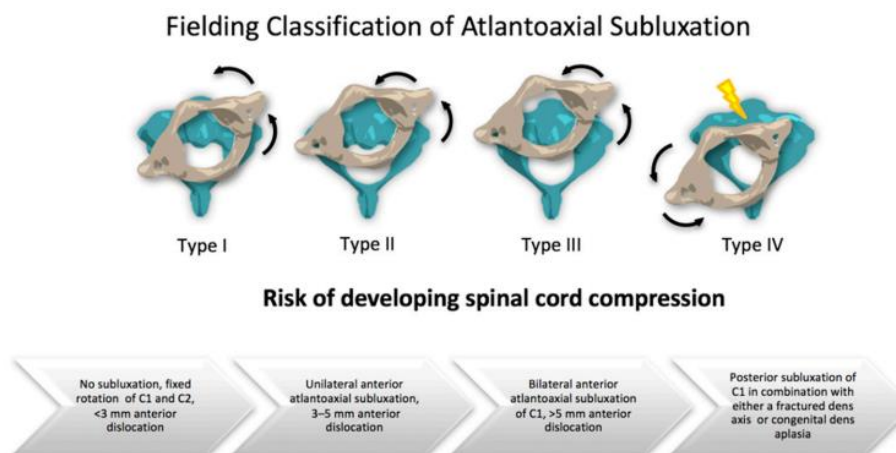
O paciente pode apresentar-se com a chamada posição do galo-roxo na qual

a cabeça estará inclinada para o lado da subluxação, enquanto o queixo olha para o lado oposto^{8,10}. O espasmo do músculo esternocleidomastóideo e torcicolo é frequente^{8,10}. Torna-se possível a identificação do sinal de Sudeck por meio da palpação do processo espinhoso de C2 deslocado para o mesmo lado em direção à cabeça^{8,10}.

O diagnóstico da síndrome é baseado em radiografia simples, tomografia computadorizada (TC) e ressonância nuclear magnética (RNM) do pescoço^{7,22}. O aumento da distância atlanto-axial pode ser sugestivo de subluxação atlanto-axial^{7,17}. A tomografia computadorizada é o método mais útil para estabelecer o diagnóstico, definido como padrão-ouro nesses casos^{7,22}. Há trabalhos que recomendam, para diagnóstico primário por imagem, a realização de RNM com contraste em crianças com sinais de torcicolo combinados com história de inflamação das vias aéreas superiores ou abordagem cirúrgica do ouvido ou do nariz¹⁹. Nesses casos, a ressonância magnética permitiria uma avaliação completa dos tecidos moles paraespinhais, articulações e ligamentos, além de evidenciar distrações vertebrais e compressões da medula espinhal^{7,19}.

Por meio dos exames de imagem descritos, é possível encaixar o quadro dentro de um dos 4 tipos da classificação de Fielding e Hawkins (Figuras 10 e 11)^{9,19}. O tipo I mostra uma rotação fixa do atlas e do eixo sem subluxação, e luxação anterior do atlas menor que 3mm, com ligamento transversal intacto¹⁰. No tipo II, há luxação ventral do atlas em processo articular unilateral com deslocamento de 3 a 5mm¹⁰. O tipo III consiste na rotação do atlas com deslocamento ventral em ambas as articulações maior de que 5mm¹⁰. No tipo IV, há fixação rotatória e subluxação posterior do atlas¹⁰.

Figura 10 – Classificação de Fielding para Subluxação Atlantoaxial.



Fonte: *Wenger et al., 2021.*

Figura 11 – Classificação de Fielding e Hawking

Tabela I. Classificação de Fielding e Hawking, relatada em 1977,20	
<p>Tipo 1 Mais comum e caracterizado por uma simples rotação sem deslocamento anterior do atlas e o ligamento transverso não está danificado</p>	<p>Antibióticos, relaxante muscular, massoterapia e imobilização com coleira macia</p>
<p>Tipo 2 A subluxação rotatória está associada a deslocamento anterior do atlas y 5 mm e déficit ligamentar transverso</p>	<p>Redução e tração cervical com cotar rígido</p>
<p>Tipo 3 O deslocamento anterior do atlas é > 5 mm, ambas as articulações atlantoaxiais laterais estão subluxadas anteriormente, o ligamento transverso e as facetas articulares estão danificadas</p>	<p>Tanto a subluxação tipo 3 quanto a subluxação tipo 4 são lesões altamente instáveis e, na maioria dos casos, associadas a sintomas neurológicos. É necessária tração cervical com "halo vest" e, em caso de sintomas neurológicos, descompressão e artrodeose de C1 C2</p>
<p>Tipo 4 Muito raro, mais frequente em adultos com artrite reumatóide caracterizada por rotação e luxação posterior do atlas</p>	<p>Tanto a subluxação tipo 3 quanto a subluxação tipo 4 são lesões altamente instáveis e, na maioria dos casos, associadas a sintomas neurológicos. É necessária tração cervical com "halo vest" e, em caso de sintomas neurológicos, descompressão e artrodeose de C1 C2</p>

Fonte: *Bilgin et al., 2020.*

O tratamento de primeira linha da SG deve ser conservador, incluindo imobilização do pescoço, antibioticoterapia e relaxantes musculares, devendo ser iniciado o mais rápido possível, de forma que sua interrupção pode causar deformidades cervicais que requerem terapia cirúrgica, além do déficit neurológico irreversível causado por compressão medular^{7,9,10,17}. De acordo com a classificação de Fielding, o tipo 1 e o tipo 2 podem ser tratados com tratamento conservador, enquanto o tipo III e o tipo IV, que são estágios avançados, necessitam de fixação e intervenção cirúrgica^{7,9,10}. Cabe ressaltar que em crianças, a fusão extensa deve ser evitada devido ao crescimento futuro do esqueleto⁷.

Como descrito nas tabelas apresentadas anteriormente neste trabalho, no tratamento do Tipo I, é suficiente a indicação de repouso no leito, relaxantes musculares, agentes anti-inflamatórios não esteroides e imobilização com colar cervical macio^{9,10}. A subluxação Tipo II também requer tratamento conservador, redução e tração cervical com um colar cervical rígido (colar PhiladelphiaTM ou aparelho de imobilização esterno-occipital-mandibular)^{9,10}. O tipo III requer reposicionamento fechado e halo-extensão, de forma que após seis a oito semanas de imobilização externa, a estabilidade cervical é avaliada pela radiografias de flexo-extensão^{9,10}. Holcomb et al. recomendaram que uma vez que a redução fosse confirmada radiologicamente, um colete de halo deveria ser aplicado por 6 a 12 semanas²⁶. Assim, se a instabilidade residual for evidenciada, a artrodese C1-C2 é proposta²⁷. As subluxações tipo III e IV geralmente precisam de repouso no leito em tração cervical, seguido por um período de imobilização do pescoço em um colar cervical para evitar recorrência de subluxações¹⁰. Especificamente no tipo IV, a fusão C1-C2 é recomendada para o tratamento da subluxação¹⁰.

O intervalo médio adequado entre a definição diagnóstica e a abordagem terapêutica para que seja feito tratamento conservador é de até 3 semanas, para que se tenha um bom prognóstico¹⁸. Tendo decorrido um tempo maior que este, passa a ser necessária intervenção cirúrgica devido à irreduzibilidade²⁵. Cabe ressaltar que na maioria dos casos a redução da subluxação ocorre espontaneamente²⁴.

Tendo em vista o enfoque do trabalho ser follow-up, cabe aqui uma análise comparativa tanto em relação à evolução da lesão em sí, quanto a presença ou não de restrições, limitações ou incapacidades geradas pela mesma em longo prazo. O paciente, masculino, atualmente com 16 anos de idade, 96Kg e 1.96m de altura, como mencionado, procurou tratamento aos 9 anos de idade devido a queixa de torcicolo súbito precedido por infecção das vias aéreas. A dor era de forte intensidade, limitando a mobilização do pescoço, associada ao movimento, se mantendo constante desde o surgimento, com duração de cerca de 1 mês, segundo relato do próprio paciente, até que fosse realizado o diagnóstico e início da terapia adequada. Não houve relato ao longo das entrevistas de caso semelhante ocorrido

na família do paciente. A família materna possui histórico de cirurgias ortopédicas na coluna espinhal devido a desvios estruturais.

No caso em análise, o paciente apresentava lesão irreduzível, com intervalo atlantoaxial de 14mm, tipo III de Fielding e Hawkins. Levando em consideração o tempo decorrido para que se estabelecesse o diagnóstico, não foi possível realização da redução espontânea da subluxação, sendo o paciente submetido a tração esquelética e acompanhamento fisioterápico com 20 sessões.

Para uma melhor análise do follow-up durante este período e obtenção de informações acerca da qualidade de vida e limitação funcional foram aplicados os dois questionários a seguir: Questionário de Qualidade de Vida SF-36 que é um instrumento genérico de avaliação da qualidade de vida, de fácil administração e compreensão. Consiste em um questionário multidimensional formado por 36 itens, englobados em 8 escalas ou domínios, que são: capacidade funcional, aspectos físicos, dor, estado geral da saúde, vitalidade, aspectos sociais, aspectos emocionais e saúde mental. Apresenta um escore que vai de 0 (zero) a 100 (obtido por meio de cálculo do *Raw Scale*), na qual o zero corresponde ao pior estado geral de saúde e o 100 corresponde ao melhor estado de saúde; Índice de Incapacidade do Pescoço - Questionário de Coluna Cervical de Veron e Mior que foi projetado para fornecer ao terapeuta informações sobre como a dor no pescoço afeta a capacidade de gerenciar a vida cotidiana, tendo uma variação de 0% a 100%.

Quando submetido ao Questionário de Qualidade de Vida SF-36, o valor obtido pelo paciente em estudo no domínio Capacidade Funcional foi 100, no domínio Limitação por Aspectos Físicos foi 100, no domínio Dor foi 100, no domínio Estado geral de Saúde foi 70, no domínio Vitalidade foi 70, no domínio Aspectos Sociais foi 100, no domínio Limitação por Aspectos Emocionais foi 100 e no domínio Saúde Mental foi 84. Bem como, quando submetido ao Índice de Incapacidade do Pescoço o paciente estudado, nas atuais condições de saúde, obteve uma pontuação de 0%, evidenciando que atualmente não há qualquer dor no pescoço, de forma que, não há qualquer interferência algica no gerenciamento de sua vida cotidiana.

4 CONSIDERAÇÕES FINAIS

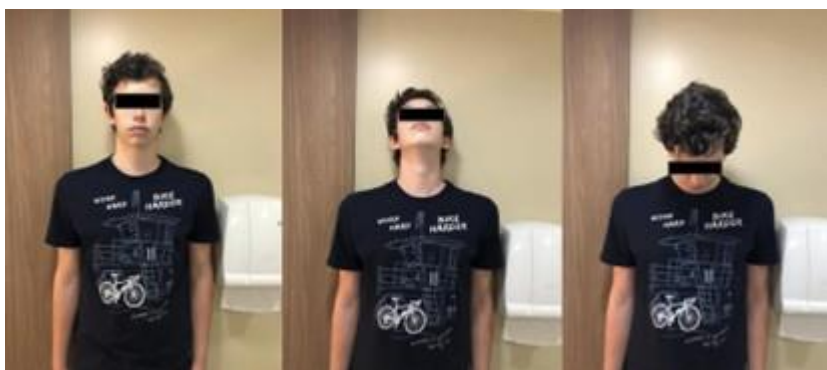
Complementando a avaliação do caso, última Tomografia Computadorizada realizada em 13/05/2022, apresentada na Figura 12, evidencia alinhamento osteoarticular entre C1-C2 dentro dos parâmetros esperados de normalidade, bem como fotos atuais do paciente em ortostase permitindo avaliação ectoscópica (Figura 13). Não houve relato do paciente a respeito de episódios de recorrência desde a realização do tratamento proposto. Tanto na análise por meio dos questionários citados, quanto na avaliação por imagem e nas anamneses realizadas por meio das sucessivas entrevistas com o paciente e familiares, ficou claro para a equipe deste trabalho o sucesso da abordagem terapêutica conservadora no caso exposto, evoluindo para um indivíduo com plenas capacidades cognitivas e funcionais para um vida saudável e sem quaisquer limitações.

Figura 12 – Tomografia Computadorizada da coluna cervical. Corpos vertebrais com altura e alinhamento posterior preservados, com mínimo deslocamento à esquerda do eixo em relação ao atlas.



Fonte: autoria própria.

Figura 13 – Fotos em consultório mostrando amplitude dos movimentos de flexão e extensão preservada.



Fonte: autoria própria.

REFERÊNCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Schwarze M, Akbar M. Atraumatic Atlantoaxial Subluxation-Grisel Syndrome. *Dtsch Arztebl Int.* 2020 Nov 6;117(45):773. doi: 10.3238/arztebl.2020.0773. PMID: 33533332; PMCID: PMC7898048.
2. Liu X, Zhou K, Hua Y, Wu M, Liu L, Shao S, Wang C. Grisel's syndrome in Kawasaki disease. *Orphanet J Rare Dis.* 2020 Sep 11;15(1):246. doi: 10.1186/s13023-020-01535-0. PMID: 32917253; PMCID: PMC7488729.
3. Maglione M, D'anna C, Rosa M, Esposito S. Neck pain following adenotonsillectomy: consider Grisel's syndrome. *Pediatr Neonatol.* 2021 Sep;62(5):561-562. doi: 10.1016/j.pedneo.2021.05.009. Epub 2021 May 29. PMID: 34120865.
4. Alonso Cadenas JA, Pérez Suárez E, Moral Larraz A, Niño Taravilla C, Martínez González C, de la Torre Espí M. Nontraumatic atlantoaxial subluxation: Grisel syndrome. *Emergencias.* 2020 Jun;32(3):215-216. English, Spanish. PMID: 32395937.
5. Ferdinandov D, Yankov D, Bussarsky A. Grisel's syndrome in adults: A case report. *Surg Neurol Int.* 2021 Jan 13;12:15. doi: 10.25259/SNI_733_2020. PMID: 33500830; PMCID: PMC7827359.
6. Chua AJK, Tan BWS, Tan TY, Heah HHW. Grisel's Syndrome in an Adult After Endoscopic Nasopharyngectomy. *Laryngoscope Investig Otolaryngol.* 2019 Aug 13;4(5):504-507. doi: 10.1002/lio2.298. PMID: 31637293; PMCID: PMC6793604.
7. Khodabandeh M, Shakiba S, Alizadeh S, Eshaghi H. Grisel's syndrome associated with tonsillitis. *IDCases.* 2018 Nov 16;15:e00470. doi: 10.1016/j.idcr.2018.e00470. PMID: 30656135; PMCID: PMC6324217.
8. Ismi O, Ozalp H, Hamzaoglu V, Bucioğlu H, Vayısoglu Y, Gorur K. Grisel's syndrome accompanying a submandibular abscess. *Braz J Otorhinolaryngol.* 2020 Sep-Oct;86(5):658-661. doi: 10.1016/j.bjorl.2016.07.004. Epub 2016 Aug 23. PMID: 27595925.
9. Bilgin E, Çavuş G, Açık V, Gezerçan Y, Ökten Aİ. Grisel's syndrome presenting with neck pain: an atypical case. *Turk J Pediatr.* 2020;62(1):141-145. doi: 10.24953/turkjpmed.2020.01.021. PMID: 32253881.
10. Mülkoğlu C, Genç H, Vural S, Mansız-Kaplan B. Unusual presentation of an unusual

- disease: A very delayed diagnosis of Grisel's syndrome. *Turk J Phys Med Rehabil.* 2021 May 25;67(2):259-263. doi: 10.5606/tftrd.2021.4967. PMID: 34396079; PMCID: PMC8343148.
11. Tobing SDAL, Hendriarto A, Wikanjaya R. Conservative approach for treatment of Grisel's syndrome after resection of lymphadenitis tuberculosis of the neck: A rare case report. *Int J Surg Case Rep.* 2021 Nov;88:106452. doi: 10.1016/j.ijscr.2021.106452. Epub 2021 Oct 1. PMID: 34653893; PMCID: PMC8521141.
 12. Bilgin E, Çavuş G, Açıık V, Gezeran Y, Ökten Aİ. Grisel's syndrome presenting with neck pain: an atypical case. *Turk J Pediatr.* 2020;62(1):141-145. doi: 10.24953/turkped.2020.01.021. PMID: 32253881.
 13. Mkochi VL, Mkandawire N. Grisel syndrome presenting as hemiplegia in a patient with multifocal staphylococcal sepsis. *Malawi Med J.* 2018 Jun;30(2):127-131. doi: 10.4314/mmj.v30i2.13. PMID: 30627341; PMCID: PMC6307069
 14. Ahn AR, Park YH, Park EJ, Yim SY. A Case of Grisel Syndrome Showing No Underlying Laxity of the Atlanto-axial Joint. *Ann Rehabil Med.* 2017 Jun;41(3):511-515. doi: 10.5535/arm.2017.41.3.511. Epub 2017 Jun 29. PMID: 28758092; PMCID: PMC5532360.
 15. Das S, Chakraborty S, Das S. Grisel Syndrome in Otolaryngology: A Case Series with Literature Review. *Indian J Otolaryngol Head Neck Surg.* 2019 Oct;71(Suppl 1):66-69. doi: 10.1007/s12070-016-1030-0. Epub 2016 Oct 25. PMID: 31741933; PMCID: PMC6848650.
 16. Pini N, Ceccoli M, Bergonzini P, Iughetti L. Grisel's Syndrome in Children: Two Case Reports and Systematic Review of the Literature. *Case Rep Pediatr.* 2020 Nov 12;2020:8819758. doi: 10.1155/2020/8819758. PMID: 33274097; PMCID: PMC7676959.
 17. Reddy KN, Baig SM, Batra M, Colodner K, Madubuko U, Korban A, Pandya Shah S. Grisel's syndrome: a case report on this rare pediatric disease and its anesthetic challenges. *BMC Anesthesiol.* 2020 Sep 30;20(1):255. doi: 10.1186/s12871-020-01176-7. PMID: 32998694; PMCID: PMC7526423.
 18. Riney TW, Brillhart D. Mild Grisel Syndrome: Expanding the Differential for Posttonsillectomy Adenoidectomy Symptoms. *Fed Pract.* 2022 Feb;39(2):e6-e10. doi: 10.12788/fp.0218. Epub 2022 Feb 18. PMID: 35444387; PMCID: PMC9014937.

19. Wenger KJ, Hattingen E, Porto L. Magnetic Resonance Imaging as the Primary Imaging Modality in Children Presenting with Inflammatory Nontraumatic Atlantoaxial Rotatory Subluxation. *Children (Basel)*. 2021 Apr 23;8(5):329. doi: 10.3390/children8050329. PMID: 33922701; PMCID: PMC8144996.
20. Gupta A, Prakash J, Kumar P, Singh NN. Anesthetic issues and Difficult Airway Management in a Case of Grisel's Syndrome. *Anesth Essays Res*. 2017 Oct-Dec; 11(4):1094-1096. Doi: 10.4103/0259-1162.180782. PMID: 29284883; PMCID: PMC5735458.
21. Matos TD, Pinheiro RP, Costa HRT, Defino HLA. Rotational dislocation C1-C2 after otoplasty under local anesthesia. *J Craniovertebr Junction Spine*. 2020 Jul-Sep;11(3):237-239. doi: 10.4103/jcvjs.JCVJS_66_20. Epub 2020 Aug 14. PMID: 33100775; PMCID: PMC7546050.
22. Miller BJ, Lakhani R, Rashid A, Tostevin P. Painful torticollis following adenotonsillectomy: a cardinal sign of atlantoaxial subluxation. *BMJ Case Rep*. 2018 Mar 1;2018:bcr2017223567. doi: 10.1136/bcr-2017-223567. PMID: 29496687; PMCID: PMC5847852.
23. Questionário de Qualidade de Vida SF-36
<https://toneuroliaufpr.com/2013/03/26/questionario-de-qualidade-de-vida-sf-36/>
24. Phillips WA, Hensinger RN. The management of rotatory atlanto-axial subluxation in children. *J Bone Joint Surg Am* 1989;71(05): 664–668.
25. Subach BR, McLaughlin MR, Albright AL, Pollack IF. Current management of pediatric atlantoaxial rotatory subluxation. *Spine* 1998;23(20):2174–2179.
26. Holcomb JD, Jaffe DM, Greinwald JH Jr, Bauman NM, Smith RJ. Nontraumatic atlantoaxial rotary subluxation in the pediatric otolaryngology patient. A report of four cases. *Ann Otol Rhinol Laryngol*. 2001;110:1137–1140.
27. Wetzel FT, La Rocca H. Grisel's syndrome. *Clin Orthop Relat Res*. 1989;(240):141-52.7
28. Roncaglio B, Debom TG, Brazolino MAN, Maia TC, Batista Filho JL, Cardoso IM, Jacob Junior C. Síndrome de Grisel: relato de caso. *Arq Bras Neurocir*. 2020;39(1):37-41. DOI: <http://dx.doi.org/10.1055/s-0037-1598650>.