Stockholm Spine Center ansökan och projekttitel "Multidisciplinär smärtrehabilitering med respektive utan fusion vid traumatisk ligamentskada i Kraniocervikala övergången – CCJ efter whiplashvåld" beviljades ett belopp om 1 380 000 kronor (120 pat).
Stockholm Spine Center ansökan hos etiska nämnden, bilaga 76, SoS ärende 6168, 2007, beskriver mycket väl nödvändigheten av utredning av instabilitetssymptom från CCJ och om möjligt stabilisering av dessa leder. Nedan följer utdrag ur ansökan hos etiska nämnden.

Inledning

Vid total cranio-cervikal dissociation är samtliga ligament i kraniocervikala övergången, (eng. Cranio-Cervical Junction – CCJ), rupturerade och huvudet sitter inte längre fast på halsen. Detta är ett mycket allvarligt posttraumatiskt tillstånd med hög dödlighet. T.ex. anses det vara en av de vanligaste orsakerna till död i samband med trafikolyckor (Alker et al 1978, Shkrum et al 1989, Shkrum et al. 2002 a b). Risken för skada på hjärnstam och ryggmärg är uppenbar. Endast ett fåtal överlevande patienter finns beskrivna i litteraturen, de flesta barn. Den rekommenderade behandlingen är cranio-cervikal fusion vilken visserligen gör patienten stel, men eliminerar risken för vidare neurologisk skada.

Även partiella skador av CCJ finns beskrivna. Någon definition av hur omfattande de partiella skadorna skall vara för att leda till en livsfarlig instabilitet finns inte, men i en stor genomgång från ett pediatriskt traumasjukhus menade man att om membrana tectoria (en av de centrala strukturerna som stabiliserar CCJ) var rupturerad förelåg en riskabel instabilitet och man rekommenderade CCJ-fusion (Sun et al. 2000). Man har i biomekaniska försök visat att indirekt våld mot halsryggen kan resultera i partiella lesioner i CCJ (Panjabi et al 2006). Man kan således anta att en del patienter som utsatts för whiplash-våld i samband med trafiktrauma, t.ex. påkörning bakifrån kan ha partiella ligamentskador i CCJ.

Traditionell radiologisk teknik har haft svårigheter att påvisa ligamentära skador i CCJ varför dess existens betvivlats. I några nyare arbeten där patienter med smärttillstånd från cranio-cervicala området efter whiplasholyckor, s k WAD-syndrom, undersökts med MRT-teknik har emellertid misstänkta skador i CCJ-ligamenten påvisats i högre utsträckning än hos friska försökspersoner. Volle fann tecken på "instabilitet" i CCJ i 30 av 200 undersökta patienter med WAD-syndrom (Volle 2000). Kraakenes (2002) fann signalförändringar och misstänkta rupturer i CCJ-ligament i ca hälften av 92 WAD-patienter jämfört med knappt 10% hos friska försökspersoner. Också Mikkonen kunde identifiera signalförändringar i ligamenten och patologisk överrörlighet i CCJ hos WAD-patienter jämfört med friska försökspersoner (Mikkonen 2006). Således kan WL-våld ibland leda till skador i ligamenten i CCJ, partiell craniocervikal dissociation.

Kopplingen mellan ligamentär CCJ-skada och WAD-syndromet är mer oklar. Symptombilden är komplex med huvudvärk, trötthet, yrsel och svindel, nedsatt koncentrationsförmåga, störd accomodation, känslighet för ljus och sömnstörningar som framträdandekomponenter. Flera olika förklaringsmodeller behöver övervägas. Ligamenten i CCJ ingår i det proprioceptiva systemet med stor förekomst av känselkroppar och kraftig afferens till hjärnstammen. Skador här skulle kunna orsaka störningar i balanssystemet, vilket skulle kunna förklara den del av dessa symptom som berör balansen, t.ex. yrsel, svindel och accomodationsstörning . Det här systemet är också inblandat i styrningen av muskelspolasr som via sympatiska nervsystemet reglerar muskeltonus i nackmuskulaturen. Överaktivitet kan leda till lokal muskelspänning med nack- och huvudvärk som följd. Andra symptom som trötthet, koncentrationsstörning, känslighet för ljus etc., skulle kunna vara en konsekvens av att ständigt uppleva smärta.

En konsekvens av denna analys skulle kunna vara att fusion av CCJ skulle kunna återskapa stabilitet och därmed eliminera eller minska WAD-symptomen, vilket är hypotesen för den här studien. Hypotesen har tidigare prövats kliniskt. Volle & Montazem (2001) hävdar god klinisk framgång hos 42 patienter som

opererats med CCJ-fusion med snabb symptom-reduktion, 80% förblev stabila efter ett år, 60% återgick till arbete. I ett annat material från samma klinik följdes 16 patienter före och 1-21 månader efter CCJ-fusion. Flertalet av patienterna rapporterade en minskning av antalet WAD-symptom som effekt av operationen. Ingen patient hade blivit helt bra, men ingen hade försämrats heller (Johansson 2006). Dessa studier har emellertid betydande metodologiska tillkortakommanden som gör deras evidensvärde begränsat. Materialen är små, urvalskriterierna dåligt definierade, kontroll-grupper saknas, och uppföljningsinstrumenten är dåligt redovisade eller bristfälligt validerade. Hur resultaten jämför sig med de efter traditionell smärtrehabilitering, framgår inte heller.

Sammanfattningsvis verkar det dock finnas sådant stöd för att CCJ-fusion skulle kunna ha effekt på WAD-syndrom att en prospektiv kontrollerad studie kan motiveras. Sekundära frågeställningar är om man kan finna prediktorer för positivt respektive negativt resultat för de ingående behandlingsalternativen. Ett första steg är att tillägna sig den avancerade MRT-tekniken som kan påvisa läsioner i CCJ-ligamenten. Ett andra steg är att genomföra en prospektiv randomiserad studie där behandlingsgruppen genomgår CCJ-fusion följt av multidiciplinär smärtrehabilitering och där kontrollgruppen endast genomgår samma multidiciplinära smärtrehabilitering.

De första 10 patienterna kommer att utgöra en pilotundersökning för att utvärdera om behandlingarna alls har effekt. De kommer att tillsändas dubbla formulär med 4-6 veckors intervall såväl före som efter inklusionen för att medge analys enligt single-casemetodik.
Skulle det visa sig att behandlingarna inte visar lovande resultat i denna analys avbryts studien.

Validering av mätinstrument (enkät) för dysfagivärdering

Dysfagi är ett välkänt problem efter spinal kirurgi i halsryggen Det förekommer i hög Frekvens efter främre halsryggsoperationer: ända upp till 50 % av patienterna kan ha övergående besvär (Bazaz et al. 2002). Dysfagi uppstår även vid bakre dito, speciellt efter kraniocervikal fusion, då den för naturlig sväljning normala rörligheten mellan kraniet och halsryggen upphävs. Speciellt kan det bli besvärligt om kraniet fixeras i ett icke fysiologiskt läge i förhållande till halsryggen. I litteraturen återfinns enstaka validerade mätinstrument för dysfagi men dessa är oftast utvecklade att värdera grad av dysfagi, t ex efter behandling av ÖNH-tumörer (Chen et al 2001). För utvärdering av den lindrigare form av dysfagi som är vanlig efter spinal kirurgi i halsryggen finns inte några bra självskattningsinstrument. Det instrument som används av Bazaz et al. (2002) består av en fyragradig skala där dysfagin skattas från ”inga” till ”grava” besvär. Den är lite väl förenklad och kan knappast ge en tillräcklig kvalitativ upplösning av mild dysfagi. Den är heller inte självadministrarad. Av detta skäl finns behov av att validera ett dysfagiinstrument som är mer detaljerat än Bazaz et al, men som till skillnad från MD Anderson Dysphagia Inventory (Chen et al 2001) utvärderar den lindriga formen av dysfagi såsom den som följer t ex fusioner i halsryggen.

Ett självadministrerat dysfagi-score har utarbetats i samarbete med en referensgrupp av ÖNH-läkare som ofta behandlar patienter med dysfagi. Dessa har framfört vilka vanliga problem dysfagipatienter ofta besväras av, samt viktat dessa problem inbördes, varefter en score-skala konstruerats. Referensgruppen har därefter lämnat synpunkter på scoreskalan och poängviktningen av de olika symptomen innan skalan slutligen fastställts. Påså sätt har en "validering mot expertis" genomförts.

Den fortsatta valideringsprocessen skall omfatta test-retest-förfarande på såväl 20 patienter med etablerad, klinisk ”grav” dysfagi efter t ex genomförd behandling för ÖNH-tumör, som på 20 patienter med kliniskt ”mild” dysfagi. I bägge grupperna skall score-skalan jämföras med såväl MD Anderson Dysphagia Inventory (Chen et al 2001), som Dysfagia-score enligt Bazaz et al. (2002), Tabell 1. Bägge patientgrupperna rekryteras från dysfagimottagningen på KS efter urval av ÖNH-läkare med klinisk erfarenhet av dysfagi.

För att studera användbarheten i samband med spinal kirurgi i halsryggen skall dysfagi-scoren dessutom appliceras på en grupp patienter som genomgår sådan kirurgi, t ex fusion eller diskprotes i samband med operation för halsryggsdiskbråck. För att bestämma dynamiken i förloppet för dysfagi efter spinal kirurgi i halsryggen skall dysfagi-score registreras vid flera tillfällen efter operationen. Test-retest förfarande kan göras med några få dagars mellanrum, vid ett tillfälle en månad efter operationen, Tabell 2. Statistisk analys skall utföras med korrelation och Cronbach-alfa-koefficient. Konvergent validitet skall värderas mot EQ5D.

Primär hypotes:

Kraniocervikal fusion kombinerat med multiprofessionell smärtrehabilitering ger bättre kliniskt utfall än enbart multiprofessionell smärtrehabilitering för patienter med WAD-syndrom och radiologiska tecken på instabilitet i kraniocervikala övergången (CCJ) efter whiplash-våld.

Patienter med kroniskt WAD-syndrom, som i övrigt möter inklusionskriterierna för studien selekteras från remissflödet till rehabiliteringsenheten vid Stockholm Spine Center, informeras om studien och erbjuds att deltaga. De som väljer att medverka genomgår först MRT-utredning av CCJ och de med dokumenterade ligamentskador identifieras. Dessa lottas till antingen bakre fusion av CCJ följt av multidisciplinär smärtrehabilitering (kirurgigrupp) eller enbart multidisciplinär smärtrehabilitering (kontrollgrupp). Lottningen sker med slutet-kuvert-teknik. Patienter som väljer att inte medverka i studien erbjuds smärtrehabilitering enligt gängse rutiner. Patienter som inkluderats kan när som helst avbryta sin medverkan i studien. Om detta sker innan operation handläggs patienten på samma sätt som de som avböjt deltagande, om detta sker efter operation fortsätter efterbehandling och uppföljning enligt nu gängse rutiner efter fusion.

Definition av behandlingarna:

Multiprofessionell rehabilitering:

Behandlingen sker dels i grupp dels individuellt under ledning av ett rehabiliteringsteam.
Teamet består av Rehabläkare, Sjukgymnast, Psykolog och Kurator. Rehabiliteringen inleds med en bedömningsvecka där patienten träffar de olika teammedlemmarna under en timme för undersökning och bedömning. Vid teamkonferens analyseras patientens funktionsned-sättning och målsättning med rehabiliteringen formuleras. Teamets bedömning delges patienten vid återkoppling med hela teamet och patienten formulerar tillsammans med teamet funktionsmål för rehabiliteringen. Gruppstart sker när 8 - 10 patienter rekryterats.
Rehabiliteringen pågår under 12 veckor med två fasta tider varje vecka .

Programinnehåll:

Grupp: Kognitiva gruppsamtal 8 timmar med psykolog/kurator/sjukgymnast.
Generell konditions- och styrketräning i gym 2 timmar/vecka = 24 timmar.
Avspänning, kroppskännedom och balansträning 1 timme/vecka = 12 timmar
Individuellt: 3 individuella samtal med läkare, 3 individuella samtal med kurator

CJJ-fusion:

Bakre fusion mellan kraniet och C2. Patienten opereras i bukläge. Stor vikt ges till att ställa in huvudet i ett fysiologiskt flexionsläge. Fusionen fixeras med ett bakre fixatinsinstrument (OC, Anatomica AB, Stora Åvägen 25, 436 34 Askim). Autologt ben från bäckenet läggs som transplantat. Postoperativt tillåts fri mobilisering, utan extern support (halskrage eller motsvarande). Multiprofessionell rehabilitering påbörjas 6 veckor efter operationen.

Multidisciplinär smärtrehabilitering
Multidisciplinär smärtrehabilitering är en etablerad klinisk metod för ospecifika smärttillstånd. Metoden har omfattande dokumentation.

Kraniocervikal fusion
Kraniocervical fusion är en etablerad klinisk metod med omfattande dokumentation vid kraniocervical instabilitet, t ex vid reumatoid artrit, olika missbildningar (os odontoideum, assimilerad C1-kota, etc), samt vid omfattande trauma (t ex kraniocervical dissociation, olika typer av frakturer i kraniocervicala övergången). Metoden har även använts vid WAD-syndrom, men för den diagnosen är dokumentationen bristfällig.
Min personliga erfarenhet är av ca 80 opererade patienter med andra diagnoser än WAD.
Komplikationsrisken bedömer jag som låg. Infektionsfrekvensen är hos reumatiker (med sitt nedsatta immunförsvar) i storleksordningen 10%, men betydligt lägre för icke-reumatiker.
Risken för neurologisk eller vaskulär komplikation är sannolikt mindre än 1 %. Risken för (oftast övergående) smärtproblem från tagstället för bentransplantatet är några få %. En problematik är sväljningssvårigheter. Stelheten i sig kan bidra till detta problem, men ett ofysiologiskt läge av skallen i förhållande till nacken kan förvärra situationen avsevärt. Emellertid kan risken för denna komplikation minskas genom att operatören beaktar korrekt läge i samband med operationen.
En betydande konsekvens av CCJ-fusion är att patienten blir stel i nacken. Det är framför allt rotationsrörligheten som nedsätts, men även finjustering i böjning uppåt-nedåt. Detta kan få konsekvenser för bilkörning, med svårigheter att se åt sidorna; patienten kan behöva anpassa sitt fordon med t ex extra speglar.

Referenser

Alker GJ Jr, Oh YS, Leslie EV (1978). High cervical spine and craniocervical junction injuries in fatal traffic accidents: a radiological study. Orthop Clin North Am. Oct;9(4):1003-10

Bazaz R, Lee MJ, Yoo JU. Incidence of dysphagia after anterior cervical spine surgery. Spine 2002;27:2453-8

Chen AY, Frankowski R, Bishop-Leone J, Hebert T, Leyk S, Lewin J, Goepfert H. The development and validation of a dysphagia-specific quality-of-life questionnaire for patients with head and neck cancer. Arch Otolaryngol Head Neck Surg 2001;127:870-6

Johansson BH (2006). Nackkirurgi vid whiplashrelaterade besvär. Svensk rehabilitering (3):44-8

Krakenes J, Kaale BR, Moen G, Nordli H, Gilhus NE, Rorvik J (2002). MRI assessment of the alar ligaments in the late stage of whiplash injury – a study of structural abnormalities and observer agreement. Neuroradiology. Jul;44(7):617-24. Epub Jun 8

Erratum in Neuroradiology (2002) Oct;44(10):874-6. PMID: 12136365

Mikkonen R, Paatelma M, Kettunen J, Lindgren K (2006). Functional kineMRl in whiplash patients. Eur Soc of Musculoskeletal Radiology. ESSR June 9-10 Brugge, Belgien

Panjabi M M, Ivancic PC, Maak TG, Tominaga Y, Rubin W (2006). Multiplan cervical spine injury due to head-turned rear impact. Spine. Feb 15;31(4):420-9

Shkrum MJ, Green RN, Nowak ES (1989). Upper cervical trauma in motor vehicle collisions. J Forensic Sci. Mar;34(2):381-90. Erratum in: J Forensic Sci 1989 Sep;34(5):1290

Shkrum MJ, McClafferty KJ, Nowak ES, German A (2002). Driver and front seat passenger fatalities associated with air bag deployment. Part 1: A Canadian study. J Forensic Sci. Sep;47(5):1028-34

Shkrum MJ, McClafferty KJ, Nowak ES, German A (2002). Driver and front seat Passenger fatalities associated with air bag deployment. Part 2: A review of injury patterns and investigative issues. J Forensic Sci. Sep;47(5):1035-40

Sun PP, Poffenbarger GJ, Durham S, Zimmerman RA (2000). Spectrum of occipito-atlanto-axial injury in young children. J Neurosurg Jul;93(1 Suppl):28-39

Volle E (2000). Functional magnetic resonance imaging--video diagnosis of soft-tissue trauma to the cranio-cervical joints and ligaments. Int Tinnitus J.6(2):134-9

Volle E, Montazem A (2001). MRI video diagnosis and surgical therapy of soft tissue trauma to the cranio-cervical junction. Ear Nose Throat J. Jan;80(1):41-4, 46-8.