

***CInvest. Medicoquir 2020 (mayo-agosto); 12 (2)***

***ISSN: 1995-9427, RNPS: 2162***

## **PRESENTACIÓN DE CASO**

***Osificación del ligamento longitudinal posterior cervical. Presentación de un caso y revisión de la literatura.***

***Cervical Ossification of the Posterior Longitudinal Ligament. Case report and review of literature.***

Noel Cabrera Rendón, Mauricio Fernández Albán, Javier Figueredo Méndez  
Adriel Salazar López

1. Especialista de 1<sup>er</sup> Grado en Neurocirugía. Instructor. Centro de Investigaciones Médico Quirúrgicas.

2. Especialista de 1<sup>er</sup> Grado en Neurocirugía y Medicina General Integral. Investigador Auxiliar. Instructor. Centro de Investigaciones Médico Quirúrgicas

3. Especialista de 2<sup>do</sup> Grado en Neurocirugía. Doctor en Ciencias. Profesor Titular Centro de Investigaciones Médico Quirúrgicas.

4. Residente de 4to Año en Neurocirugía. Centro de Investigaciones Médico Quirúrgicas.

## **RESUMEN**

La Osificación del ligamento longitudinal posterior (OLLP) cervical es frecuentemente reportada en la población de Japón, pero menor en el resto de Asia y los otros continentes. En Cuba no existen reportes de esta entidad. Aunque su presentación clínica es variable puede producir limitaciones físicas importantes en los pacientes por compresión medular que causa. Se presenta el caso de una paciente de 63 años atendida en el Servicio de Neurocirugía del Centro de Investigaciones Médico Quirúrgicas (CIMEQ), en La Habana, Cuba, en la cual se realizó un abordaje quirúrgico posterior y laminectomía con buena evolución postquirúrgica.

Palabras clave: osificación del ligamento longitudinal posterior, compresión medular, abordaje posterior, laminectomía.

## **ABSTRACT**

The ossification of the posterior longitudinal ligament (OPLL) is frequently reported in the population from Japan, but lower in the rest of Asia and the other continents. In Cuba reports of this entity do not exist. Although its clinical presentation is variable can produce important physical limitations in patients by spinal cord compression that causes. Present the case of a 63 year-old patient addressed in Neurosurgery Service at Centro de Investigaciones Médico Quirúrgicas (CIMEQ), in Havana, Cuba in which was done a surgical posterior approach and laminectomy with good outcome.

Keywords: ossification of the posterior longitudinal ligament, spinal cord compression, surgical posterior approach, laminectomy.

## **INTRODUCCIÓN**

Las entesopatías son las condiciones clínicas que producen la inflamación progresiva de los tendones y ligamentos en su unión con los huesos del esqueleto axial del cuerpo, el esqueleto apendicular o ambos y la subsecuente degeneración y calcificación de los mismos <sup>1,2</sup>.

La osificación del ligamento longitudinal posterior (OLLP) cervical es una de las entidades clínicas comprendida dentro de este grupo<sup>2</sup>. Se define como una formación ectópica de hueso dentro del ligamento longitudinal posterior<sup>3</sup> a nivel cervical lo cual produce estrechamiento del canal medular o foraminal, causando mielopatía, radiculopatía o ambas incrementando el riesgo de lesión dural o medular por causa traumática <sup>4,5</sup>. Se presenta con más frecuencia en la población asiática <sup>1,4,6</sup>, en particular la japonesa con una incidencia de 1,9% a 4,3%<sup>7</sup>; lo cual ha llevado a ser conocida esta entidad como la “enfermedad

japonesa”<sup>8</sup>. En otros países asiáticos su incidencia disminuye<sup>9, 10</sup>, siendo aún menos frecuente en países europeos y en los Estados Unidos<sup>6, 11</sup>. Son escasos los reportes de esta patología en el resto de América y África<sup>12, 13</sup>.

La etiología de la OLLP cervical es aún desconocida<sup>11</sup>. En investigaciones realizadas se han reportado factores genéticos, hormonales, ambientales y de estilos de vida como causas de la aparición y progresión de esta entidad a nivel cervical<sup>14</sup>. Estudios recientes han mostrado que la hiperleptinemia, un hallazgo común en las personas obesas, está íntimamente relacionada con su aparición<sup>15</sup>. La OLLP cervicales más frecuente en el sexo masculino<sup>16-18</sup> y la media para la edad de su aparición se ubica después de los 50 años de edad<sup>16</sup>.

La mayoría de los casos son asintomáticos o solo presentan síntomas leves, aunque clínicamente suele presentarse como mielopatía, radiculopatía, dolor y limitación de los movimientos de la columna cervical<sup>3</sup>. Para el diagnóstico imagenológico de certeza se utilizan los Rayos x en su vista lateral, que con frecuencia no permiten observar la osificación, la resonancia magnética nuclear (RMN) donde se observa una imagen hipodensa difícil de reconocer con un grosor menor a los 5 mm y la tomografía axial computadorizada (TAC) en tres vistas, siendo este último el estudio de elección ya que permite observar la masa de osificación con más definición<sup>3, 19-21</sup>.

En Cuba no encontramos reportes relacionados con esta enfermedad y su incidencia en la población. En este trabajo se presenta un caso de una paciente atendida en el Servicio de Neurocirugía del Centro de Investigaciones Médico Quirúrgicas (CIMEQ), en La Habana, Cuba, donde se comentan las características clínicas, el tratamiento y la evolución postquirúrgica de la paciente. Se realiza además una revisión actualizada de la literatura científica.

## CASO CLÍNICO

Paciente de 63 años, femenina, blanca y con antecedentes patológicos personales de hipertensión arterial (HTA), cardiopatía isquémica (CI) y diabetes mellitus (DM) II tratada y controlada con antihipertensivos, antiagregantes

plaquetarios e hipoglicemiantes orales; además de serfumadora inveterada de más de 30 cigarrillos al día. La misma asiste a la consulta inicial de Neurocirugía en el mes de mayo de 2018 refiriendo historia de pérdida de la fuerza muscular en los 4 miembros de menos de 3 años de evolución, de instauración progresiva a predominio de miembros inferiores y que se asociaba a sensación de rigidez en estos haciendo posible la marcha solamente con el auxilio de muletas, viéndose impedida de realizar sus actividades cotidianas. Las limitaciones motoras se acompañaban de dolor cervical de moderada intensidad del dolor (5/10 en la Escala Visual Analógica del dolor <sup>22</sup>) de igual tiempo de evolución con carácter mantenido, localizado en la región cervical, no irradiado y que empeoraba con los movimientos del cuello en todos los ejes. El dolor, que se aliviaba con el reposo estando acostada y con analgésicos habituales, se asociaba a entumecimiento en el borde cubital y los tres primeros dedos de la mano del miembro superior derecho (MSD). Además, refería incontinencia urinaria que aquejaba desde un mes antes de su primera asistencia a consulta médica.

Examen físico: Se constató la existencia de marcha paretoespástica. El resto del examen físico general y por aparatos fue considerado como normal.

Hallazgos positivos en el Examen Neurológico:

Motilidad: Sin limitaciones.

Tono (Escala de Ashworth<sup>23</sup>): Hipertonía espástica 2/4 en los 4 miembros.

Trofismo: Hipotrofia tenar e hipotonar bilateral.

Fuerza muscular(Escala de ASIA<sup>24</sup>): 3/5 en los 4 miembros.

Reflectividad (Escala de Wartenberg): Hiperreflexiaosteotendinosa +++, Signos de Babinski y Hoffman positivos bilateralmente.

Como parte de los estudios preoperatorios se realizaron la TAC simple de (Fig. 1) y RMN (Fig. 2) de columna cervical.

Fig. 1: TAC simple de columna cervical preoperatoria.

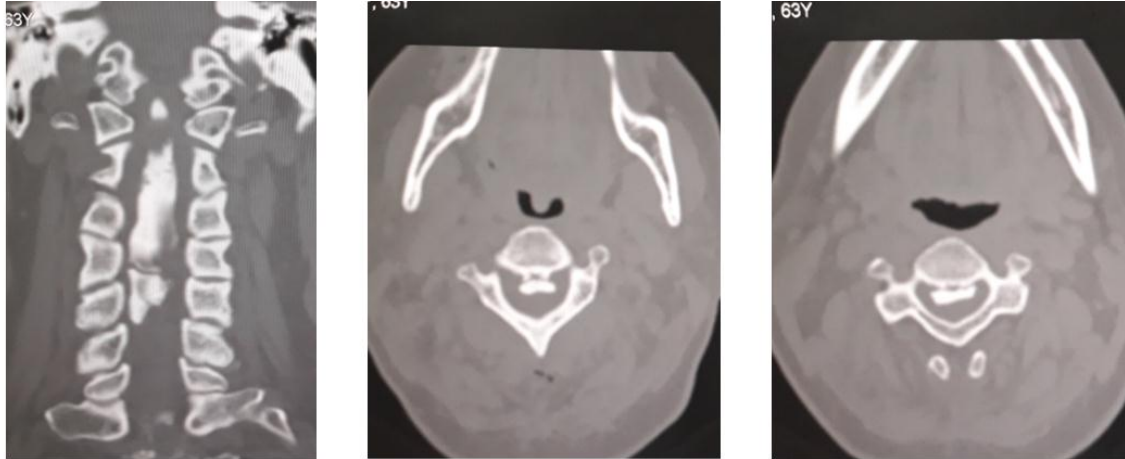
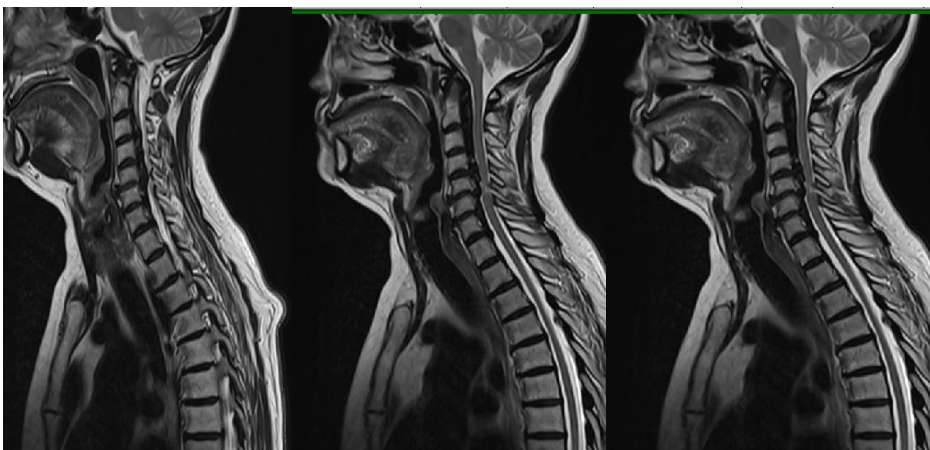


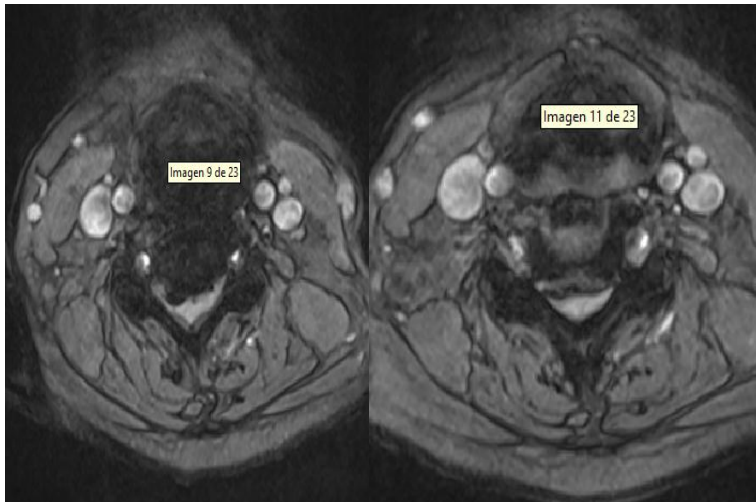
Imagen de densidad cálcica, multisegmentaria, que se extiende entre el borde posterior de los cuerpos vertebrales y el saco dural desde C2 hasta C7, con estrechamiento del canal central predominantemente a nivel de los interespacios C3-C4 y C4-C5. Rectificación de la lordosis cervical.

Fig. 2: RMN de columna cervical simple preoperatoria

A. (Cortes sagitales): Imagen hipointensa, multisegmentaria, que se extiende en la proyección del ligamento longitudinal posterior desde C2 hasta C7, con estrechamiento del canal central y compresión medular predominantemente a nivel de los interespacios C3-C4 y C4-C5, asociado a cambios de la intensidad de la señal medular a nivel del interespacio C4-C5. Rectificación de la lordosis cervical.



B: (Cortes axiales) Imagen hipodensa irregular que estrecha el canal raquídeo con compresión medular.

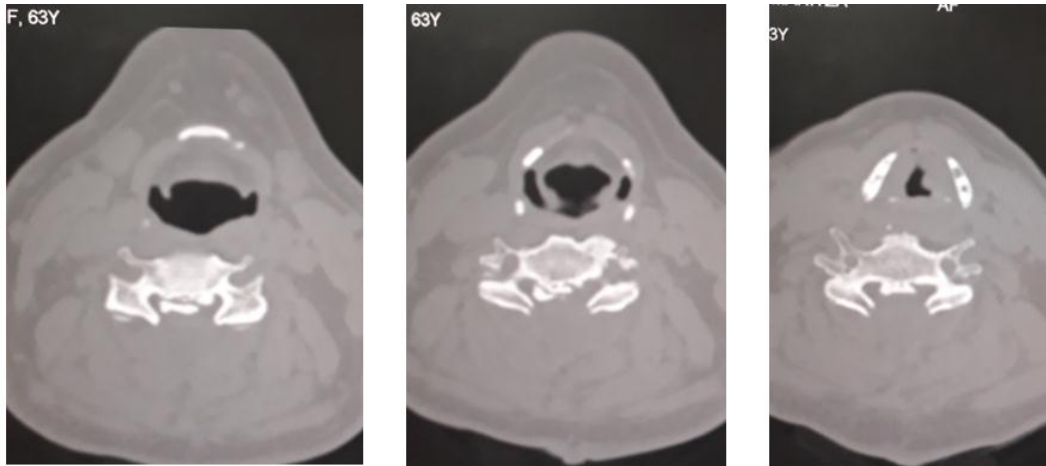


## TRATAMIENTO

Se concluye que la paciente padece de una OPLL a nivel cervical que le provoca un cuadro de mielorradiculopatía, por lo que se decide intervenir quirúrgicamente en el mes de julio de 2018 realizándose un abordaje posterior con laminectomíadescompresivasin compromiso de las facetas articularesdesde C3 hasta C5 y laminectomíaparcial de C2 y C6. No se realizó laminoplastia ni colocación de injerto óseo.

La amplitud de la resección ósea fue comprobada en los estudios imagenológicos posoperatorios realizados (Fig.3 A, B, C).

A. Vistas axiales donde se observa el defecto óseo postquirúrgico, sin afectación de las facetas articulares. Imagen con densidad de calcio que se corresponde con la calcificación del ligamento longitudinal posterior.



#### TAC DE COLUMNA CERVICAL POSTQUIRURGICO

B. Vistas sagitales donde se observa la ausencia total de los procesos espinosos desde C4 hasta C6, y parcial de C3 y C7. Imagen con densidad de calcio que se corresponde con la calcificación del ligamento longitudinal posterior en varios niveles. Vista coronal posterior en reconstrucción 3D donde se observa la laminectomía realizada.



#### TAC DE COLUMNA CERVICAL POSTQUIRURGICO

C. Vistas oblicuas en reconstrucción 3D donde se observan la laminectomía realizada.





**TAC DE COLUMNA CERVICAL POSTQUIRURGICO**

## **EVOLUCIÓN**

La paciente egresó a la semana de realizada la intervención quirúrgica y en el seguimiento por consulta se comprobó que presentaba mejoría clínica con recuperación parcial de la fuerza muscular en las cuatro extremidades (ASIA 4/5), pudiendo deambular sin ayuda, con una limitación moderada en el desempeño de la vida diaria sobre todo por los trastornos de la marcha. La paciente se encuentra en programa de rehabilitación.

## **DISCUSIÓN:**

La hipertrofia progresiva y osificación del ligamento longitudinal posterior implica el riesgo de compresión de la médula espinal y las raíces cervicales con el consecuente compromiso neurológico debido al estrechamiento del canal espinal<sup>1-6</sup>. Su incidencia en países del Este de Asia es muy elevada, fundamentalmente en Japón<sup>7, 25</sup>, mientras que en países de los otros continentes no es frecuente, siendo considerada una rara condición clínica<sup>6, 11-13</sup>. Según reportes de estudios realizados en la población japonesa los síntomas más frecuentes son el dolor cervical, dolor y cambios sensitivos en miembros superiores, trastornos en los reflejos osteotendinosos y disfunción motora de las cuatro extremidades que interfieren con los estilos de vida de los pacientes<sup>26, 27</sup>.



En el caso que se presenta, las manifestaciones clínicas estuvieron dadas por compromiso motor en los 4 miembros con ligera asimetría, predominando la debilidad y cambios tróficos en los miembros superiores producidas por la mielopatía, así como dolor cervical.

Existen diferentes métodos para tratar la OLLP cervical, incluyendo el tratamiento conservador<sup>28</sup>. El tratamiento quirúrgico está indicado en los casos de mielopatía progresiva con deterioro neurológico moderado o severo<sup>29, 30</sup>. Se piensa que el cirujano debe realizar la técnica operatoria con la que esté más familiarizado además de comparar y tener en cuenta las ventajas y desventajas de cada método a emplear<sup>31, 32</sup>. La elección del abordaje quirúrgico a utilizar depende de la localización de la compresión medular, la cantidad de niveles afectados, el alineamiento sagital de la columna vertebral cervical y el estado clínico del paciente<sup>29,31</sup>. Se recomienda el abordaje quirúrgico por vía anterior con remoción directa del ligamento calcificado cuando la osificación es segmentaria<sup>1, 28, 33</sup>. El abordaje posterior realizandolaminectomía o laminoplastiaes la conducta de elección principalmente en pacientes ancianos<sup>14</sup> y cuando la calcificación afecta varios niveles<sup>34</sup>. Esta técnica es relativamente simple y con poco nivel de complicaciones por lo que es utilizada ampliamente como opción quirúrgica inicial en la OLLP cervical<sup>29, 35</sup>. Las principales complicaciones del abordaje posterior son la limitación de los movimientos por afectación muscular, persistencia del dolor cervical y trastornos neuropáticos de los brazos o el deterioro posoperatorio de la alineación cervical por cifosis progresiva<sup>14</sup>. La lenta progresión de la osificación del ligamento longitudinal posterior después de la cirugía no afecta los resultados de la descompresión realizada por esta vía<sup>36</sup>.

Por las características de la afectación cervical en varios niveles de la paciente, se decidió utilizar el abordaje posterior realizando solamente laminectomía teniendo en cuenta no afectar las facetas articulares para evitar la posible aparición futura de inestabilidad de la alineación ósea de la columna cervical. No ocurrieron complicaciones transni posoperatorias.

## Conclusiones

Pese a tratarse en nuestro país de una patología infrecuente en la práctica neuroquirúrgica, en el caso que presentamos se confirmó el diagnóstico

mediante elementos clínicos e imagenológicos característicos de la enfermedad según lo descrito en la literatura consultada. Se empleó el tratamiento quirúrgico con técnica de descompresión posterior de la columna cervical mediante laminectomía complementado con tratamiento fisioterapéutico posoperatorio, obteniéndose un resultado satisfactorio con mejoría clínica del estado neurológico de la paciente.

#### REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS:

1. Hoh DJ, Levi AD, Wang MY. Ossification of the Posterior Longitudinal Ligament and Other Enthesopathies. En: Winn R; Youmans Neurological Surgery. Sixth Edition. WB Saunders Company, Philadelphia; Vol.3 Cap. 282; 2899-2910. 2011.
2. Chen J, Song D, Wang X, Shen X, Li Y, Yuan W. Is ossification of posterior longitudinal ligament an enthesopathy? *Int Orthop*; Oct; 35 (10): 1511-16. 2011.
3. Tetreault L, Nakashima H, Kato S, Kryshtalskyj M y col. A Systematic Review of Classification Systems for Cervical Ossification of the Posterior Longitudinal Ligament. *Global Spine J*. Feb; 9(1): 85-113. 2019.
4. Saetia K, Cho D, Lee S, Kim DH, Kim SD. Ossification of the posterior longitudinal ligament: a review. *Neurosurg Focus*. Mar; 30 (3): E1. 2011.
5. Nouri A, Tetreault L, Singh A, Karadimas SK, Fehlings MG. Degenerative Cervical Myelopathy: Epidemiology, Genetics, and Pathogenesis. *Spine*, Jun 15; 40 (12): E675-93. 2015.
6. Wu JC, Chen YC, Huang WC. Ossification of the Posterior Longitudinal Ligament in Cervical Spine: Prevalence, Management and Prognosis. *Neurospine*, Mar; 15 (1): 33-41. 2018.
7. Matsunaga S, Sakou T. Ossification of the posterior longitudinal ligament of the cervical spine: etiology and natural history. *Spine*, Mar 1; 37 (5): E309-14. 2012.

8. Inamasu J, Guiot BH, Sachs DC. Ossification of the posterior longitudinal ligament: an update on its biology, epidemiology, and natural history. *Neurosurgery*; 58: 1027-39. 2006.
9. Shingyouchi Y, Nagahama A, Niida M. Ligamentous ossification of the cervical spine in the late middle-aged Japanese men. Its relation to body mass index and glucose metabolism. *Spine*; 1996; 21: 2474-8. 1996.
10. Stapleton CJ, Pham MH, Attenello FJ, Hsieh PC. Ossification of the posterior longitudinal ligament: genetics and pathophysiology. *Neurosurgical Focus*. Thejns.org. 2011.
11. Wang MY, Thambuswamy M. Ossification of the posterior longitudinal ligament in non-Asians: demographic, clinical, and radiographic findings in 43 patients. *Neurosurg Focus*; 30: E4. 2011.
12. Malpica Ramírez LM, Malpica Reyes M, Fernández de Lara Castilla LG, Reyes López J, Jiménez Reyes HO. Osificación del ligamento longitudinal posterior. *Rev Esp Méd Quir*; 17 (2): 150-154. 2012.
13. Adelowo O, Olatunji A. Ossification of the posterior longitudinal ligament in Nigerian woman. *BMJ Case Rep*; 2011: bcr0220113828. 2011.
14. Choi BW, Song KJ, Chang H. Ossification of the Posterior Longitudinal Ligament: A Review of Literature. *Asian Spine J*; Dec; 5(4): 267-276. 2011.
15. Feng B, Cao S, Zhai J, Ren Y, Hu J, Tian Y, Weng X. Roles and mechanisms of leptin in osteogenic stimulation in cervical ossification of the posterior longitudinal ligament. *J Orthop Surg Res*; 13: 165. 2018.
16. Ikegawa S. Geomic study of ossification of the posterior longitudinal ligament in the spine. *Proc Jpn Acad Ser B Phys Biol Sci*, Dec 11; 90 (10): 405- 412. 2014.
17. Yoshimura N, Nagata K, Muraki S y col. Prevalence and progression of radiographic ossification of the posterior longitudinal ligament and associated factors in the Japanese population: a 3-year follow-up of the ROAD study. *Osteoporos Int*; 25, 1089-1098. 2014.
18. Ohtsuka K, Terayama K, Yanagihara M y col. A radiological population study on the ossification of the posterior longitudinal ligament in the spine. *Arch Orthop Trauma Surg*, 106; 89-93. 1987.

19. Izawa K. Comparative roentgenographical study on the incidence of ossification of the posterior longitudinal ligament and other degenerative changes of the cervical spine among Japanese, Koreans, Americans and Germans. *Nihon Seikeigeka Gakkai Zasshi*; 54: 461-474. 1980.
20. Kang MS, Lee JW, Hang HY, Cho YE, Park YM. Diagnosis of cervical OPLL in lateral radiograph and MRI: is reliable?. *Korean J Spine*; 9: 205-208. 2012.
21. Fujimori T, Le H, Hu SS et al. Ossification of the posterior longitudinal ligament of the cervical spine in 3161 patients: a CT-based study. *Spine*; 40: E394-E403. 2015.
22. Chapman CR, Casey KL, Dubner R, Foley KM, Gracely RH, Reading AE. Pain measurement: an overview. *Pain*; 22: 1-31. 1985.
23. Ashworth B. Preliminary trial of carisoprodol in multiple sclerosis. *Practitioner*; 192: 540-542. 1964.
24. American Spinal Injury Association – ASIA. Standards for Neurological Classification of SCI Worksheet. ASIA Store. 2006.
25. Epstein NE. What you need to know about ossification of the posterior longitudinal ligament to optimize cervical spine surgery: A review. *Surg Neurol Int*; 5 (Suppl 3): S93-S118. 2014.
26. Iwasaki M. Overview of treatment for ossification of the posterior longitudinal ligament and the ligamentum flavum. In: Yonenou K, Nakamura K, Toyama Y, editors. *OPLL- Ossification of the Posterior Longitudinal Ligament*. Tokyo: Springer, p. 165-7. 2006.
27. Kawaguchi Y. Ossification of the posterior longitudinal ligament: Etiology, prevalence, progression and surgical strategies. In: *Symposium-Cervical Spondylomyelopathy*; Vol:2, Issue: 1, p: 52-58. 2019.
28. Chen TP, Qian LG, et al. Anterior decompression and fusion versus laminoplasty for cervical myelopathy due to ossification of the posterior longitudinal ligament. *Medicine (Baltimore)*; Jan; 98 (1): e13382. 2019.
29. Li HD, Zhang QH, Xing ST, Min JK, Shi JG, Cheng XS. A novel revision surgery for treatment of cervical ossification of the posterior longitudinal ligament. *J Orthop Surg Res*; 13: 215. 2018.

30. Odate S, Shikata J, Soeda S, Yamamura S, Kawaguchi S. Surgical results and complications of anterior decompression and fusion as a revision surgery after initial posterior surgery for cervical myelopathy due to ossification of the posterior longitudinal ligament. *J Neurosurg Spine*; 26: 466-473. 2017.
31. Fujimori T, Iwasaki M, Okuda S, Takenaka S, Kashii M, Kaito T, Yoshikawa H. Long-term results of cervical myelopathy due to ossification of the posterior longitudinal ligament with an occupying ratio of 60% or more. *Spine*; 39: 58-67. 2013.
32. Lee CH, Jang TA, Hyun SJ, et al. Expansive laminoplasty versus laminoplasty alone versus laminoplasty and fusion for cervical ossification of the posterior longitudinal ligament, is there a difference in the clinical outcome and sagittal alignment? *Clin Spine Surg*; 29: e9-15. 2016.
33. Katsumi K, Izumi T, Ito T, Hirano T, Watanabe H, Ohashi M. Posterior instrumented fusion suppressed the progression of ossification of the posterior longitudinal ligament: a comparison of laminoplasty with or without instrumented fusion by three-dimensional analysis. *Eur Spine J*; 25: 1634-1640. 2016.
34. Lee SE, Chung CK, Jahnq TA, Kim HJ. Long-term outcome of laminectomy for cervical ossification of the posterior longitudinal ligament. *J Neurosurg Spine*; 18: 465-471. 2013.
35. Quinn JC, Kiely PD, Lebl DR, Hughes AP. Anterior surgical treatment of cervical spondylotic myelopathy: review article. *HSS J*; 11: 15-25. 2015.
36. Hyun SJ, Rhim SC, Roh SW, Kang SH, Riew KD. The time course of range of motion loss after cervical laminoplasty: a prospective study with minimum two-year follow-up. *Spine*; 34: 134-1139. 2009.