

ARTIGO ORIGINAL

A relação entre displasia de desenvolvimento do quadril e torcicolo muscular congênito

Johan von Heideken, MD,* P Daniel W. Green, MS, MD,* Stephen W. Burke, MD,* Kelly Sindle, PT,*
John Denneen, MSPT,* Yvonne Haglund-Akerlind, MD, PhD, P e Roger F. Widmann, MD*

Resumo: Estudos múltiplos relatam uma correlação entre torcicolo muscular congênito (CMT) e displasia do desenvolvimento do quadril (DDH) a uma taxa entre 2% e 29%. A maioria destes estudos foi concluída antes do uso rotineiro do ultra-som do quadril. Este estudo

avalia a incidência de DDH em uma população de referência com CMT e a incidência de CMT em uma população de referência com DDH. Revisamos retrospectivamente 186 pacientes encaminhados com uma população com DDH e 109 pacientes encaminhados com um diagnóstico primário de CMT entre 1995 e 2004. Todos os pacientes foram examinados para DDH com ultra-som se fossem menores de 4 meses e radiografias simples em crianças mais velhas. Entre os pacientes com um diagnóstico primário de DDH, 5,9% foram posteriormente diagnosticados com CMT. Entretanto, bebês com menos de 1 mês de idade quando diagnosticados com DDH tinham um risco de 9% de desenvolvimento subsequente de CMT. Entre os pacientes com diagnóstico primário de CMT, 3,7% foram subsequentemente diagnosticados com DDH. Entre os pacientes com DDH, houve uma coexistência de 7,9% de CMT, independentemente de qual era diabético primeiro, e entre os pacientes com CMT, houve uma coexistência de 12,5% de DDH. Os meninos com DDH eram 4,97 vezes mais propensos que as meninas a ter tanto DDH quanto CMT, independentemente do diagnóstico anterior ao outro. Nossos resultados confirmam que os pacientes com CMT devem ser rastreados para DDH, e os bebês, especialmente os meninos, tratados para DDH devem ser seguidos para o desenvolvimento de CMT.

Palavras-chave: displasia do desenvolvimento do quadril, torcicolo muscular congênito, crianças, relação sexual, incidência

(*J Pediatr Orthop* 2006;26:805Y808)

T objetivo deste estudo é examinar a coexistência entre displasia de desenvolvimento do quadril (DDH) e torcicolo muscular congênito (CMT), especialmente analisando o subconjunto e a proporção de sexo dos bebês inicialmente diagnosticados com DDH que posteriormente desenvolveram CMT clinicamente óbvia e vice versa.

A patogênese exata da displasia do desenvolvimento do DDH e CMT do quadril é desconhecida, mas a etiologia por trás

Pediátrica, Hospital for Special Surgery, Weill Medical College of Cornell University, 535 East 70th St, New York, NY 10021. E-mail: greendw@hss.edu.

Copyright © 2006 por Lippincott Williams & Wilkins

Da *Divisão de Cirurgia Ortopédica Pediátrica, Hospital for Special Surgery, Weill Medical College of Cornell University, New York, NY; e

†Department de Cirurgia Ortopédica Pediátrica, Hospital Infantil Astrid Lindgren, Hospital Universitário Karolinska, Estocolmo, Suécia.

Nenhum dos autores recebeu apoio financeiro para este estudo.

Reimpressões: Daniel W. Green, MS, MD, Divisão de Cirurgia Ortopédica

estas 2 doenças parecem ser devidas a fenômenos de embalgem intra-uterina. A displasia do desenvolvimento do quadril está ligada ao posicionamento uterino, às meninas e ao histórico familiar.^{1,2} O torcicolo muscular congênito é resultado da contratura do músculo esternocleidomastóide secundária a uma resposta de cura fibrótica aos danos musculares do posicionamento intra-uterino ou trauma no parto.³ Os oligodrâmios podem ser um fator de risco tanto para DDH quanto para CMT.^{1,2,4}

Seguindo os protocolos de triagem atuais, os bebês com DDH são comumente diagnosticados logo após o nascimento.¹ A incidência de DDH com evidência de instabilidade é relatada como sendo de 1% em recém-nascidos, e para bebês com evidência de luxação do quadril, a incidência é relatada como sendo de 0,1% a 0,15%.¹ Os bebês com CMT geralmente desenvolvem sintomas após o nascimento, e a maioria dos pacientes é diagnosticada com 0 a 3 meses de idade.^{5,6} O

A incidência de CMT é relatada como 0,017% a 1,9% em bebês.^{6,9} Lehmann et al¹⁰ constataram que a DDH é mais comum entre meninas com uma proporção de sexo de 4:1. Cheng et al⁵ calcularam a razão de probabilidade para o sexo masculino entre seus 1086 pacientes com CMT como sendo de 2:3.

Dunn² encontrou uma predominância de meninas entre as crianças com apenas DDH, mas entre as crianças com DDH em combinação com outras deformidades, os meninos apresentavam DDH quase tão frequentemente quanto as meninas. Vários estudos, iniciados em 1959 por Coventry e

Harris,⁸ relataram uma correlação entre pacientes com CMT que são encontrados com DDH a uma taxa entre 0% e 29% (Tabela 1).^{5,7,11,23} A Wiener²⁴ identificou que 8% de seus pacientes com DDH deslocada apresentou CMT.

MÉTODOS

Antes de iniciar o estudo, a aprovação do instituto...

Foi obtida uma comissão de revisão regional no Hospital para Cirurgia Especial. Revisamos retrospectivamente os prontuários médicos de 594 pacientes encaminhados por suspeita de DDH e CMT na Divisão de Ortopedia Pediátrica do Hospital for Special Surgery, Nova Iorque, NY, entre janeiro de 1995 e maio de 2004. Três cirurgiões ortopédicos pediátricos seniores examinaram os pacientes em seus consultórios particulares e procuraram explicitamente por DDH e CMT em todos os pacientes encaminhados para cada um dos diagnósticos. Os critérios de inclusão para o estudo foram os seguintes: idade no diagnóstico de 0 a 10 anos, um diagnóstico de CMT tratado com fisioterapia ou cirurgia, ou/e DDH que foi tratado com arnês Pavlic, cinta ou cirurgia. Os critérios de exclusão para o estudo foram os seguintes: evidência de desordens neuromusculares, mielodisplasia, artrogripose, torcicolo neurogênico, anomalias congênitas da coluna cervical, problemas oculares causando o torcicolo, ou apresentação de torcicolo após 12 meses de idade. Os pacientes que tiveram menos de 1 mês de acompanhamento após seu diagnóstico inicial também foram excluídos.

TABELA 1. Revisão de diferentes estudos que analisam a coexistência entre a DDH e a CMT

Autor	Ano	Pacientes no estudo	DDH	CMT	Coexistência Independente de Qual Diagnóstico Precede o Outro	Relação de sexo entre pacientes com ambos os diagnósticos
Weiner ²⁴	1976	49	49	4	8%	1 menino e 3 meninas
Morrison e MacEwen ²¹	1982	232	32	232	13.8%	Desconhecido
Ferkel et al ¹⁶	1983	34	10	34	29% 2 meninos, 7 meninas e	um de sexo desconhecido
Binder et al ¹¹	1987	277	292	77	10,5% (displasia leve a luxação), a incidência de DDH aumentou com gravidade de torcicolo (6%A19,2%)	Desconhecido
Walsh e Morrissy ²³	1998	70	6	70	8% de coexistência, 2,9% dos pacientes com encaminhamento inicial para CMT foram descoberto ter DDH	Desconhecido
Cheng et al. ⁵	2000	1086		1086	6.8%	Desconhecido
Tien et al ²²	2001	47	8	47	17% de coexistência, 8,5% de coexistência entre pacientes com DDH que tratamento necessário	Desconhecido

O diagnóstico de DDH foi dividido em 4 subdiagnósticos: instável, subluxação, luxação ou displasia acetabular.¹ O diagnóstico e classificação do DDH foram baseados em achados ultrassonoros, radiográficos e clínicos. Todos os pacientes foram examinados para DDH com ultrassom ou radiografias simples. O diagnóstico de CMT foi baseado em critérios clínicos, incluindo alcance limitado do movimento da cabeça, inclinação da cabeça, e exame ocular e neurológico normal. Dentre os pacientes com diagnóstico clínico de CMT, 84% tinham radiografias cervicais documentadas. Entretanto, todos os pacientes deste estudo foram acompanhados até que o CMT fosse completamente tratado, descartando qualquer caso de anomalia estrutural da coluna cervical.

Foi construído um banco de dados com dados extraídos dos gráficos, documentando sexo, lado do DDH e CMT, tratamento do DDH e CMT, história familiar do DDH e CMT, primogênito, história do nascimento (besta, semana do parto e gêmeos), e idade no exame radiográfico inicial.

Análise estatística

A análise estatística dos pontos de dados foi realizada com o programa estatístico Statxact[®] (versão 2.0; Cytel Software Corporation, Cambridge, MA). Foi realizado um teste para 2 amostras independentes bi-internas, e valores *P* de 0,05 ou menos foram considerados como evidência de resultados estatisticamente significativos.

RESULTADOS

Houve um total de 594 pacientes que foram encaminhados para

suspeito de DDH ou CMT. Destes pacientes, 295 preenchem os critérios de inclusão. Cento e trinta e dois pacientes excluídos

do estudo foram referidas como suspeitas de DDH, mas ultrassom ou radiografia, assim como o exame clínico, mostraram que não tinham DDH. Os outros 167 pacientes que foram excluídos eram pacientes que não preenchiam os outros critérios de inclusão. Dos 295 pacientes incluídos, 279 (94,6%) foram examinados antes da idade de 12 meses. Os 16 pacientes ex-membro após a idade de 12 meses eram

186 pacientes (18 meninos e 168 meninas) com diagnóstico primário de DDH. O Grupo B consistia de 109 pacientes (60 meninos e 49 meninas) com diagnóstico primário de DDH. O grupo A, com referência inicial de DDH, foi dividido em 2 subgrupos, aqueles com apenas DDH, A1 (n = 175), e aqueles com diagnóstico primário de DDH e posteriormente diagnosticados com CMT, A2 (n = 11). O grupo B também foi dividido em 2 subgrupos, B1 (n = 105), pacientes com apenas CMT, e B2 (n = 4), pacientes com um diagnóstico primário de CMT e posteriormente diagnosticados com DDH.

A incidência de CMT entre os pacientes inicialmente encaminhados para DDH foi de 5,9%, enquanto a incidência de DDH entre os pacientes inicialmente encaminhados e diagnosticados com CMT foi de 3,7%. Considerando todos os pacientes diagnosticados com DDH, houve uma coexistência de 7,9% de CMT, independentemente de qual foi diagnosticada primeiro, e entre os pacientes com CMT, houve uma coexistência de 12,5% de DDH, independentemente de qual foi diagnosticada primeiro.

No grupo com apenas DDH (A1), 81 (46,3%) dos 175 pacientes tinham menos de um mês de idade quando o DDH foi confirmado com ultrassom. No grupo com DDH e posteriormente encontrado CMT (A2), o diagnóstico de DDH em 8 (73%) dos 11 pacientes foi encontrado por ultrassom antes da idade de 1 mês. Houve uma incidência de 9,0% (8 de 89) entre os bebês com menos de 1 mês de idade quando diagnosticados com DDH para mais tarde desenvolverem CMT.

Centos e dezessete pacientes com DDH foram diagnosticados com ultrassom, e 73 crianças com mais de 6 meses de idade na apresentação tiveram DDH diagnosticada com radiografia. Entre os pacientes com CMT que mais tarde foram diagnosticados com DDH, todos os pacientes foram diagnosticados com DDH através de radiografia.

pacientes encaminhados para segunda opinião ou diagnosticados tardiamente com DDH. O tempo médio de acompanhamento foi de 19 meses (intervalo, 1A118 meses).

Os pacientes que foram incluídos foram divididos em 2 principais grupos, grupos A e B (Tabela 2). O grupo A consistia de

van Hecke et al. / J Pediatr Orthop (suplemento) / Volume 26, Número 6, novembro/dezembro de 2006 159

TABELA 2. Distribuição de sexo entre pacientes com DDH e CMT

	Total	Garotos	Meninas			
Todos os pacientes	295	78	217	B1 (somente CMT)	105	57
				A2 + B2 (DDH e CMT)	15	5
				A2 (DDH inicial com CMT tardio)	11	2
				B2 (CMT inicial com DDH tardio)	4	3

806

* 2006 Lippincott Williams & Wilkins

TABELA 3. Apresentação do DDH, Afetado Lateral, Brecha e História da Família

	Instável	Subluxação	Deslocamento de quadril	Displasia Acetabular (Sozinho)	Somente DDH do lado esquerdo	Brecha	História da família
A1 (somente com DDH)	44 18% (n = 243)	85 35% (n = 243)	94 39% (n = 243)	20 8% (n = 243)	79 45% (n = 175)	36 21% (n = 175)	18 10% (n = 175)
A2 (DDH inicial com CMT tardio)	2 13% (n = 15)	9 60% (n = 15)	4 27% (n = 15)	0 0% (n = 15)	4 36% (n = 11)	3 27% (n = 11)	4 36% (n = 11)
B2 (CMT inicial com o falecido DDH)	2 33% (n = 6)	0 0% (n = 6)	2 33% (n = 6)	2 33% (n = 6)	2 50% (n = 4)	0 0% (n = 4)	1 25% (n = 4)

Diferente do resto do papel, o DDH bilateral foi registrado duas vezes nas primeiras 4 colunas da tabela porque ambos os quadris podem ser afetados de forma diferente.

Descobrimos que entre os pacientes com DDH, os meninos são mais propensos a desenvolver tanto DDH quanto CMT, independentemente do diagnóstico que precede o outro. Um teste para 2 amostras binomiais independentes mostra que meninos com DDH têm 4,97 vezes mais probabilidade que meninas de ter tanto DDH quanto CMT (odds ratio, 4,97; 95% CI; $P = 0,01$). A Tabela 3 ilustra as diferentes variáveis que escolhemos estudar em pacientes com DDH.

DISCUSSÃO

O resultado mais importante de nosso estudo é que entre os pacientes com DDH, os meninos são mais propensos a desenvolver tanto DDH quanto CMT, independentemente do diagnóstico que precede o outro. Se estudos adicionais confirmarem nossos resultados, isto pode ser devido a fatores mecânicos ao nascimento, genéticos ou hormonais.

A maioria dos estudos que analisam a relação entre DDH e CMT tem avaliado a ligação entre o diagnóstico de CMT e o diagnóstico de DDH independentemente de qual diagnóstico precede o outro. Este estudo documenta uma coexistência de 7,9% de CMT em pacientes com DDH e uma coexistência de 12,5% de DDH em pacientes com CMT. Além disso, nosso estudo também avalia a relação entre a nosis primária do diagnóstico de DDH e um diagnóstico posterior de CMT, e pacientes com encaminhamento inicial para CMT que posteriormente foram encontrados com DDH. Entre as crianças com encaminhamento inicial para DDH, 5,9% foram diagnosticadas com CMT. Das crianças com encaminhamento inicial para CMT, 3,7% foram diagnosticadas com DDH.

Em 1998, resultados semelhantes foram relatados por Walsh e Morrissy.²³ Eles estudaram um grupo de 70 pacientes com CMT e encontraram uma taxa de 8% de incidência de DDH. Quando eles excluíram os 4 pacientes com encaminhamento inicial para DDH, 2 (3%) dos 66 pacientes com encaminhamento inicial para CMT foram encontrados com DDH (luxação do quadril ou subluxação).

Em nossa população, as crianças com menos de 1 mês de idade quando diagnosticadas com DDH tinham um risco de 9% de desenvolvimento subsequente de CMT. O ultrassom é a ferramenta mais sensível para o diagnóstico de DDH em crianças menores de 6 meses de idade,^{25,27} mas, segundo nosso conhecimento, foi usado apenas em um estudo para definir a taxa de DDH em

pacientes inicialmente diagnosticados com CMT.²² Não temos conhecimento de nenhum estudo que tenha examinado a taxa de casos comprovados por ultra-som de A DDH continua a desenvolver a CMT. Em nosso estudo, 81% dos pacientes

O número de pacientes no estudo é relativamente grande em comparação com estudos anteriores e foi coletado durante um período de 10 anos. O estudo tem limitações devido ao fato de ser retrospectivo e que DDH é um termo que descreve uma gama de condições em que a cabeça femoral tem uma relação anormal com o acetábulo. O torcicolo muscular congênito também descreve uma ampla gama de patologias.

Vários documentos mencionaram que a DDH e a CMT são mais comuns no lado ipsilateral.^{11,17,19,24} Isto não pôde ser confirmado em nosso estudo; por outro lado, os conhecidos fatores de risco para DDH, brecha, lado esquerdo, história familiar e sexo feminino foram todos confirmados em nosso estudo. Nossos resultados confirmam que as crianças com CMT devem ser examinadas para DDH e os bebês com DDH (especialmente meninos) devem ser cuidadosamente acompanhados para o desenvolvimento de CMT.

AGRADECIMENTOS

* 2006 Lippincott Williams & Wilkins

Os autores agradecem à Dra. D. H. C. M. por sua ajuda na análise estatística deste estudo. Este estudo pôde ser realizado graças à hospitalidade do Departamento de Cirurgia Ortopédica Pediátrica, Hospital for Special Surgery, Weill Medical College of Cornell University, New York, NY.

REFERÊNCIAS

1. American Academy of Pediatrics. Diretriz de prática clínica: cedo detecção de displasia do desenvolvimento do quadril. Comitê de Melhoria da Qualidade, Subcomitê de Displasia do Desenvolvimento do Quadril. *Pediatrics*. 2000;105:896Y905.
2. Dunn PM. Observações perinatais sobre a etiologia das congênitas deslocamento do quadril. *Clin Orthop*. 1976;119:11Y22.
3. Davids JR, Wenger DR, Mubarak SJ. Torcicolo muscular congênito: seqüela de síndrome do compartimento intrauterino ou perinatal. *J Orthopedia Pediatra*. 1993;13:141Y147.
4. Sherer DM. Torcicolos espontâneos em um feto que apresenta uma brisa realizada por uma atraumática cesárea eletiva: um caso e revisão da literatura. *Am J Perinatol*. 1996;13:305Y307.
5. Cheng JC, Tang SP, Chen TM, et al. A apresentação clínica e resultado do tratamento do torcicolo muscular congênito em bebês: um estudo de 1.086 casos. *J Pediatr Surg*. 2000;35:1091Y1096.
6. Ling CM, Baixa YS. Tumor esternomastóideo e torcicolo muscular. *Clin Orthop*. 1972;86:144Y150.

7. Cheng JC, Au AW. Torcicolo infantil: uma revisão de 624 casos. *J Pediatr Orthop*. 1994;14:802Y808.
8. Coventry MB, Harris LE. Torcicolo muscular congênito na infância; algumas observações sobre o tratamento. *J Bone Joint Surg Am*. 1959;41:815Y822.
9. Suzuki S, Yamamuro T, Fujita A. A relação etiológica entre torcicolo congênito e paralisia obstétrica. *Int. Orthop*. 1984;8: 175Y181.
10. Lehmann HP, Hinton R, Morello P, et al. Displasia do desenvolvimento do diretriz de prática do quadril: relatório técnico. Comitê de Melhoria da Qualidade, e Subcomitê de Displasia do Quadril para o Desenvolvimento. *Pediatrics*. 2000;105:e57.
11. Binder H, Eng GD, Gaiser JF, et al. Torcicolo muscular congênito: resultados da gestão conservadora com acompanhamento a longo prazo em 85 casos. *Reabilitação de Arco Físico Med*. 1987;68:222Y225.
12. Canale ST, Griffin DW, Hubbard CN. Torcicolo muscular congênito. A acompanhamento a longo prazo. *J Bone Joint Surg Am*. 1982;64:810Y816.
13. Cheng JC, Tang SP, Chen TM. pseudotumor esternocleidomastóideo e torcicolo muscular congênito em bebês: um estudo prospectivo de 510 casos. *J Pediatr*. 1999;134:712Y716.
14. Cheng JC, Chen TM, Tang SP, et al. Snapping durante o alongamento manual em torcicolo muscular congênito. *Clin Orthop*. 2001;384:237Y244.
15. Emery C. Os determinantes da duração do tratamento para torcicolos musculares congênitos. *Fisioterapia*. 1994;74:921Y929.
16. Ferkel RD, Westin GW, Dawson EG, et al. Torcicolo muscular. A abordagem cirúrgica modificada. *J Bone Joint Surg Am*. 1983;65:894Y900.
17. Hummer CD, MacEwen GD. A coexistência de torcicolos e displasia congênita do quadril. *J Bone Joint Surg Am*. 1972;54: 1255Y1256.
18. Ippolito E, Tudisco C, Massobrio M. Resultados a longo prazo de tenotomia esternocleidomastoidea para torcicolo muscular idiopático. *J Bone Joint Surg Am*. 1985;67:30Y38.
19. Iwahara T, Ikeda A. Sobre o envolvimento ipsilateral de congêneros torcicolo muscular e luxação congênita do quadril. *Jpn Orthop Assoc*. 1962;35:23Y28.
20. Tumor Macdonald D. Sternomastoid e torcicolo muscular. *J Osso Joint Surg Br*. 1969;51:432Y443.
21. Morrison DL, MacEwen GD. Torcicolo muscular congênito: observações relativas aos achados clínicos, condições associadas e resultados do tratamento. *J Pediatr Orthop*. 1982;2:500Y505.
22. Tien YC, Su JY, Lin GT, et al. Estudo ultra-sonográfico da coexistência de torcicolos musculares e displasia do quadril. *J Ortopedia Pediatra*. 2001;21:343Y347.
23. Walsh JJ, Morrissy RT. Torcicolo e luxação de quadril. *J Pediatr Orthop*. 1998;18:219Y221.
24. Weiner DS. Deslocamento congênito do quadril associado a torcicolos musculares congênitos. *Clin Orthop*. 1976;121:163Y165.
25. Graf R. Fundamentos do diagnóstico ultra-sonográfico da displasia infantil do quadril. *J Pediatr Orthop*. 1984;4:735Y740.
26. Harcke HT. Imagem em luxação congênita e displasia do quadril. *Clin Orthop*. 1992;281:22Y28.
27. Paton RW, Srinivasan MS, Shah B, et al. Triagem ultra-sonográfica para quadris em risco em displasia de desenvolvimento. Vale a pena? *J Bone Joint Surg Br*. 1999;81:255Y258.