



Universidad
Zaragoza

Trabajo Fin de Grado

Tortícolis congénita: Revisión bibliográfica
Congenital torticollis: a bibliographic review

Autora:

Pilar Lombart Conesa

Director:

Alberto García Barrios

Facultad de Medicina. Universidad de Zaragoza

Departamento de Anatomía e Histología Humana

2022-2023

ÍNDICE

| | |
|---|----|
| 1. RESUMEN..... | 3 |
| 2. ABSTRACT | 4 |
| 3. INTRODUCCIÓN | 5 |
| 4. MATERIAL Y MÉTODOS..... | 6 |
| 5. RESULTADOS..... | 7 |
| 5.1. ANATOMÍA DE LA REGIÓN CERVICAL | 7 |
| 5.2. EPIDEMIOLOGÍA | 10 |
| 5.3. ETIOLOGÍA..... | 10 |
| 5.4. FISIOPATOLOGÍA..... | 12 |
| 5.4.1. HISTOLOGÍA..... | 12 |
| 5.5. CLÍNICA | 15 |
| 5.6. ASOCIACIÓN CON OTRAS ENTIDADES | 17 |
| 5.6.1. PLAGIOCEFALIA..... | 17 |
| 5.6.2. DISPLASIA DE CADERA | 19 |
| 5.7. DIAGNÓSTICO | 20 |
| 5.8. DIAGNÓSTICO DIFERENCIAL | 24 |
| 5.8.1. TORTÍCOLIS OCULAR CONGÉNITA | 25 |
| 5.8.2. TORTÍCOLIS ÓSEA CONGÉNITA | 25 |
| 5.9. TRATAMIENTO..... | 26 |
| 5.9.1. TRATAMIENTO CONSERVADOR | 26 |
| 5.9.2. TRATAMIENTO QUIRÚRGICO | 27 |
| 5.9.3. TOXINA BOTULÍNICA | 28 |
| 5.10. PRONÓSTICO..... | 29 |
| 6. CONCLUSIONES: | 30 |
| 7. BIBLIOGRAFÍA..... | 31 |

1. RESUMEN

El término “tortícolis” proviene del latín (tortus collum), cuyo significado es “cuello torcido”. Cuando esta deformidad postural del cuello es evidente en el nacimiento o poco después del mismo, se denomina tortícolis congénita. Esta patología consiste en un acortamiento unilateral del músculo esternocleidomastoideo que provoca la flexión persistente de la cabeza de forma homolateral a la lesión y una consecuente rotación cervical en el lado opuesto. Por este motivo, también es conocida como “tortícolis muscular congénita”.

Generalmente, el cuadro se presenta después del nacimiento, durante los 2-3 meses de vida del lactante, o en el periodo neonatal. En la mayoría de las ocasiones, se presenta de forma aislada, aunque puede asociarse con otras patologías como la displasia congénita de cadera hasta en un 20%.

La tasa de incidencia mundial varía entre el 0,3% y el 1,9%, siendo, a pesar de esas bajas cifras, la tercera patología ortopédica congénita más frecuente, por detrás de la displasia congénita de cadera y el pie plano valgo.

El diagnóstico es fundamentalmente clínico y muchas veces un hallazgo incidental en el curso de un examen físico realizado en la revisión del pediatra o por mero descubrimiento de los padres, que observan una inclinación anormal de la cabeza del niño, la cual se acompaña en ocasiones por una asimetría facial característica.

Habitualmente el manejo terapéutico es conservador, mediante técnicas de rehabilitación y fisioterapia, con un porcentaje de resolución de hasta el 90% por lo que en muy pocos casos es necesario el abordaje quirúrgico.

Palabras clave: **Torticollis congénita, músculo esternocleidomastoideo, fibrosis, plagiocefalia, PROM, rehabilitación.**

2. ABSTRACT

The term "torticollis" comes from the Latin (tortus collum), meaning "twisted neck". When this postural deformity of the neck is evident at birth or shortly after birth, it is called congenital torticollis. This pathology consists of a unilateral shortening of the sternocleidomastoid muscle that causes persistent flexion of the head homolateral to the lesion and a consequent cervical rotation on the opposite side. For this reason, it is also known as "congenital muscular torticollis".

It usually presents after birth, during the infant's 2-3 months of life, or in the neonatal period. In most cases, it occurs in isolation, although it can be associated with other pathologies such as congenital hip dysplasia in up to 20% of cases.

The worldwide incidence rate varies between 0.3% and 1.9%, being, despite these low figures, the third most frequent congenital orthopedic pathology, behind congenital hip dysplasia and valgus flatfoot.

The diagnosis is fundamentally clinical and often an incidental finding in the course of a physical examination by the pediatrician or by mere discovery of the parents, who observe an abnormal inclination of the child's head, which is sometimes accompanied by a characteristic facial asymmetry.

Usually the therapeutic management is conservative, by means of rehabilitation and physiotherapy techniques, with a resolution rate of up to 90%, so that in very few cases a surgical approach is necessary.

Keywords: Congenital torticollis, sternocleidomastoid muscle, fibrosis, plagiocephaly, PROM, rehabilitation.

3. INTRODUCCIÓN

La tortícolis muscular congénita o también conocida como “fibromatosis colli” es la presentación más frecuente del desarrollo postnatal de tortícolis e implica una asimetría cervical producida por el acortamiento unilateral del músculo esternocleidomastoideo que en ocasiones puede acompañarse de otras deformidades estructurales como el cráneo o la facies.

La incidencia de la tortícolis muscular congénita junto con otras asimetrías ha aumentado en los últimos años por diversas razones, por lo que requiere un adecuado manejo multidisciplinar que englobe a pediatras y fisioterapeutas con la finalidad de asegurar un pronóstico favorable a través de un diagnóstico y tratamiento precoz.

El objetivo de este trabajo es realizar una recopilación de la literatura publicada acerca de esta patología y presentar los factores globales y específicos que la caracterizan con el fin de identificar los factores de riesgo y enfermedades asociadas, así como el correcto diagnóstico, manejo terapéutico y pronóstico de esta patología.

4. MATERIAL Y MÉTODOS

Se ha realizado una búsqueda de información en la base de datos PUBMED con el término “congenital muscular torticollis”. Se obtuvo un resultado de 495 resultados, en los que podemos distinguir artículos que definen y describen la patología y los que incluyen información sobre las técnicas rehabilitadoras y otras alternativas de tratamiento, así como asociaciones con otros diagnósticos y complicaciones. Sin embargo, con la finalidad de encontrar artículos más específicos, se realizaron otras búsquedas adicionales con las siguientes palabras clave: “fibromatosis colli”, “etiology”, “physical therapy”, “surgery”, “hip dysplasia”, “fibrosis”, “pathology” y “risk factors”.

Las estrategias de búsqueda han sido las siguientes:

- (Congenital muscular torticollis) [All fields]: 495 resultados
- (Congenital muscular torticollis) AND (Treatment [Title/Abstract]): 186 resultados
- (Congenital torticollis) AND (Risk factors [Title/Abstract]): 6 resultados
- (Congenital torticollis) AND (Fibrosis [Title/Abstract]): 18 resultados
- (Congenital torticollis) AND ((Surgical treatment [Title/Abstract]) OR (Surgery [Title/Abstract])): 41 resultados
- (Congenital torticollis) AND ((Etiology [Title/Abstract]) OR (Pathology [Title/Abstract])): 18 resultados
- (Hip)[Title/Abstract] AND (Dysplasia [Title/Abstract] AND (Congenital [Title/Abstract] AND (Torticollis [Title/Abstract]): 36 resultados
- (Congenital torticollis) AND (physical therapy) [Title/Abstract]: 41 resultados

De forma añadida a Pubmed, también se realizaron búsquedas en las bases de datos Google Académico y análisis de las referencias de los artículos seleccionados previamente.

- Los criterios de inclusión fueron: artículos sobre la etiopatogenia de la torticollis congénita, las asociaciones con otras patologías, las técnicas de diagnóstico y tratamiento y pronóstico.
- Los criterios de exclusión fueron: artículos con contenido restringido.

5. RESULTADOS

5.1. ANATOMÍA DE LA REGIÓN CERVICAL

El conocimiento anatómico de la región cervical es esencial para profundizar en el estudio sobre la patología muscular de la tortícolis, por lo que se realizará un breve repaso anatómico de la región del cuello, y en concreto de las características del principal músculo afectado en esta entidad: el esternocleidomastoideo.

Anatómicamente, podemos dividir la zona cervical en base a los planos musculares que posee o clasificándolo topográficamente en diferentes regiones cervicales.

Así, se describen tres grandes regiones topográficas: la **región cervical media o hioidea**, que contiene el eje visceral; la **región esternocleidomastoidea**, la cual protege importantes elementos vasculares y la **región supraclavicular**, relacionada con el plexo braquial, vasos subclavios y ápex pulmonar [1]. (Figura 1)

1. **La región hioidea** se encuentra delimitada por los bordes anteriores de los músculos esternocleidomastoideos, en su zona caudal por el esternón y en su zona cefálica por la mandíbula.

Se divide en una región **suprahioidea (sh)** y otra **infrahioidea (ih)**, que se separan por el hueso hioideo. Dentro de la región infrahioidea podemos distinguir el **triángulo carotideo superior (ca)**, una zona donde la carótida es accesible. Este es limitado por la inserción en el cuerpo del hioideo del omohioideo y del estilohioideo y el trayecto del vientre posterior del digástrico, junto con el borde anterior del ECM [2].

2. **La región esternocleidomastoidea (em)** se encuentra delimitada superiormente por el hueso hioideo, inferiormente por la horquilla esternal y, lateralmente, por los bordes anterior y posterior del esternocleidomastoideo y por el borde interno del omohioideo [2].

En su recorrido oculta no sólo la arteria carótida común, sino sus dos ramificaciones: la carótida externa e interna [1].

3. La región supraclavicular (sc) se encuentra delimitada por la clavícula y los bordes del esternocleidomastoideo y trapecio. En su interior podemos encontrar los vasos subclavios, el plexo braquial y cervical y nervio accesorio y el ápex pulmonar [1].

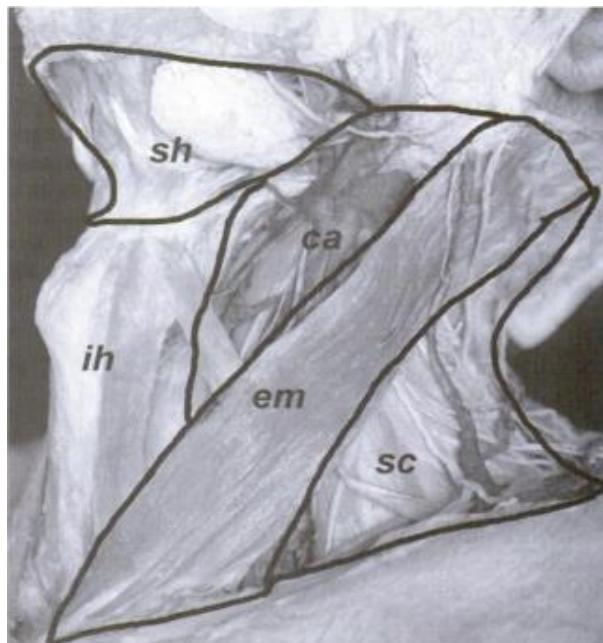


Figura 1: Regiones topográficas cervicales [1].

Leyenda: sh: suprahioides; ih: infrahioides; ca: carotídea; em: músculo esternocleidomastoideo; sc:supraclavicular.

A su vez, la zona cervical puede dividirse en una región anterior (o cuello propiamente dicho) y una región posterior (o región nucal).

En la región anterior cervical se observan tres planos musculares:

- Plano superficial, formado por los músculos esternocleidomastoideos.
- Plano medio, formado por la musculatura infrahioides.
- Plano profundo, formado por los músculos prevertebrales y escalenos.

En cuanto a la región posterior o nucal, podemos encontrar las porciones cervical y cefálica de los músculos de la región dorsal y el músculo trapecio, incluyendo de la misma manera su plexo nervioso y pedículo vascular [3].

MÚSCULO ESTERNOCLEIDOMASTOIDEO

El músculo esternocleidomastoideo (ECM), como principal músculo responsable del cuadro clínico de la tortícolis, se origina a través de dos cabezas: una que comienza en el manubrio esternal y otra en el tercio medial de la clavícula, para terminar insertándose en la apófisis mastoides y en la línea nucal superior. Es un músculo largo presente en la zona cervical que se encarga de ejercer la flexión lateral de la cabeza hacia el lado ipsilateral y la rotación hacia el lado contralateral, mientras que, de forma bilateral, ejerce la extensión de la cabeza aumentando la lordosis cervical y participa en el proceso de la respiración al elevar la clavícula.

Su inervación está formada por el nervio accesorio (XI par craneal) y ramas directas del plexo cervical (C1-2) [4].

Las principales características anatómicas y funcionales se resumen en la Tabla 1.

MÚSCULO ESTERNOCLEIDOMASTOIDEO

| | |
|-------------------|--|
| ORIGEN | Borde superior del tercio medial de la clavícula Parte superior y anterior del manubrio del esternón |
| INSERCIÓN | Apófisis mastoides del temporal Línea nucal del occipital |
| INERVACIÓN | Nervio accesorio (XI) Plexo cervical, ramas anteriores de C1-2 |
| IRRIGACIÓN | Arteria occipital Arteria tiroidea superior |
| FUNCIÓN | Articulación atlantooccipital (Flexión, extensión, lateralización) Articulación atlantoaxial (Rotación) Intervertebrales cervicales (Flexión, extensión, lateralización, rotación) |

Tabla 1: Características anatomofuncionales del ECM.

5.2. EPIDEMIOLOGÍA

La incidencia de la tortícolis congénita oscila entre el 0,3% y 1,9%, siendo la tercera anomalía ortopédica congénita en aparición, por detrás de la displasia congénita de cadera y el pie plano valgo [5]. La mayoría (alrededor del 50%) se presentan a través de un pseudotumor en el músculo esternocleidomastoideo, asociando una mayor incidencia de presentación podálica (19,5%) y parto distócico (56%) [6]. Por esta razón, las características del parto y sus complicaciones se posicionaron en un primer momento como una de las posibles etiologías de la tortícolis congénita aunque todavía hay dudas respecto al origen de la causa.

De forma añadida cabe destacar la preponderancia del sexo masculino respecto al femenino (3:2) y del lado derecho frente al izquierdo [6].

En numerosas ocasiones, los lactantes que sufren tortícolis congénita tienen una mayor tendencia a padecer otras deformidades o anomalías musculoesqueléticas como el metatarso aducto y/o displasia de cadera, por lo que se debería descartar la presencia de estas patologías [6].

La incidencia de tortícolis congénita y la plagiocefalia asociada ha sufrido un aumento asociado al auge del número de embarazos múltiples como consecuencia del mayor uso de técnicas de reproducción asistida [6].

5.3. ETIOLOGÍA

La tortícolis, tanto congénita como adquirida, se caracteriza por la presencia de una inclinación lateral de la cabeza y la rotación contralateral del mentón.

La tortícolis muscular congénita (TMC) se caracteriza por el acortamiento del músculo esternocleidomastoideo generalmente asociado a una contractura o fibrosis de éste. Sin embargo, y a pesar de ser la causa más frecuente, puede aparecer secundario a otras lesiones no musculares como patología ósea (anomalías vertebrales, síndrome de Klippel-Feil), ocular (parálisis del músculo oblicuo superior) o del sistema nervioso [5].

La etiología de la tortícolis congénita, a pesar de existir varias teorías sobre su origen, continúa a día de hoy siendo desconocida, al no conseguir pruebas concluyentes que aseguren su causalidad.

El origen más aceptado de la TMC se centra en la deformación intrauterina como consecuencia del descenso de la cabeza del feto y/o una posición fetal intrauterina anormal durante el tercer trimestre y que se favorece por factores como el espacio intrauterino limitado, mujeres primigestas, disminución del volumen de líquido amniótico o síndrome de compresión uterina [5]. Se cree que esta posición anómala desencadena un traumatismo del ECM y en ocasiones deformación de columna vertebral, cadera y pies paralela [6], relación que se ve reforzada por la asociación de tortícolis congénita con displasia de cadera (5-10%) [7].

Se han analizado diferentes características del proceso del parto y otros factores de sufrimiento perinatal en pacientes con diferentes grados de TMC (de leve a grave). Entre los datos recogidos se valoró el curso del embarazo y el parto (edad gestacional, tipo de parto, presentación fetal, aumento del trabajo e inducción del parto) y del recién nacido (Test de Apgar, peso, talla, pH del cordón umbilical, ingreso en UCI) sin observar diferencias significativas entre ambos grupos de pacientes si se compara la gravedad, tipo de resolución o presentación uni o bilateral [8].

Otra de las teorías aceptadas ha sido la presencia de un posible traumatismo del músculo esternocleidomastoideo durante el parto, que conlleva una fibrosis secundaria al hematoma provocado por el desgarro inicial de éste. Sin embargo, las pruebas de microscopía óptica y electrónica no revelaron la presencia de hematomas [9], aún incluso provocando un desgarro experimental del ECM no se llegó a desarrollar ni acortamiento ni masa en el músculo [7].

Estos resultados, sumados a la presencia de TMC en pacientes nacidos por cesárea, refuerzan la hipótesis de un origen intrauterino y la existencia de posibles factores isquémicos del ECM por oclusión venosa debido a la flexión lateral persistente intrauterina y rotación del cuello [6].

Esta teoría se relaciona con el posible síndrome compartimental del músculo ECM (aumento de presión en un compartimento muscular incluyendo músculo, vasos y nervios) en el cual posiciones de flexión anterior, lateral, y rotación de la cabeza del feto de forma mantenida desarrollan isquemia y posterior edema que desencadenaría el aumento de presión y aparición de síndrome compartimental similar al descrito en las extremidades [10].

Por otro lado, el descubrimiento de varios pacientes con antecedentes familiares de tortícolis muscular congénita (1er grado de consanguinidad) hizo plantearse el papel de la genética en el desarrollo de la patología, asociada a otros factores ambientales [11].

5.4. FISIOPATOLOGÍA

La mayor parte de los lactantes con tortícolis muscular congénita se caracterizan por presentar una contractura fibrosa unilateral del músculo esternocleidomastoideo acompañada de inclinación de la cabeza con rotación limitada del cuello, e incluso puede aparecer una masa palpable en el 50% de los casos [12], la cual se manifiesta en las primeras 3 semanas después del nacimiento, alcanzando el tamaño máximo al mes de edad.

5.4.1. HISTOLOGÍA

Los estudios histológicos de piezas quirúrgicas resecadas han demostrado el origen fisiopatológico secundario a la atrofia de las fibras musculares acompañada de fibrosis intersticial, caracterizada por la acumulación de matriz extracelular a consecuencia de procesos reactivos y reparativos [13].

5.4.1.1 ULTRAESTRUCTURA

Respecto a la ultraestructura del músculo esternocleidomastoideo, en concreto de la masa fibrosa que aparece en los niños con TMC, se observó la existencia de otros componentes del intersticio, en el cual no solo había colágeno sino también mioblastos, células mesenquimales, fibroblastos y miofibroblastos [14]. Estos dos últimos adquieren un papel crucial en el desarrollo del depósito de matriz extracelular y posterior fibrosis.

- Fibrosis

Los miofibroblastos o fibroblastos activados estarían identificados por su mayor proliferación, capacidad migratoria, mayor contractilidad y aumento de la expresión de **α-SMA**, una proteína contráctil de fibras de tensión. En un estudio [13], se propuso la posibilidad de producir tortícolis muscular a conejos través de la inyección de etanol absoluto (conocido por generar fibrosis muscular). Los resultados mostraron un elevado porcentaje de éxito, dado que los animales manifestaron los síntomas de TMC, así como un acortamiento de la longitud y el grosor del músculo esternocleidomastoideo. Asimismo, se observó el papel de la proteína **α-SMA** en el proceso de fibrosis dado que sus niveles aumentaron significativamente en los conejos experimentales con respecto a los controles.

Otro factor que podría estar involucrado en la fibrosis muscular es el aumento de la **apoptosis celular** [15]. Existe una serie de proteínas que participan en la regulación de este fenómeno. En la familia de proteínas Bcl-2, podemos encontrar el subtipo Bcl-2, cuya función es antiapoptótica, y de forma contrapuesta se encuentra la proteína Bax, promoviendo la muerte celular. El mecanismo de Bax consiste en formar canales de gran diámetro en la membrana externa mitocondrial, dando como resultado una disminución del potencial de la membrana y una acción molecular proapoptótica en las mitocondrias, activando la caspasa-3 y, por tanto, la muerte de la célula. En esta investigación, se detectó mediante técnicas de inmunohistoquímica un incremento de la relación Bax/Bcl-2, TGF- β 1 y colágeno tipo III en los grupos experimentales con tortícolis muscular congénita, de tal forma que había indicios de actividad apoptótica en el músculo esternocleidomastoideo.

- Adipogénesis

Como hemos mencionado anteriormente, se encontraron células mesenquimales en el ECM de los pacientes. Este tipo de células son capaces de transformarse en tejido muscular, fibroso y adiposo. Por tanto, la fibrosis no sería la única característica patológica de CMT, pudiendo encontrar otros procesos como la fibrogénesis, adipogénesis y miogénesis o atrofia muscular [14].

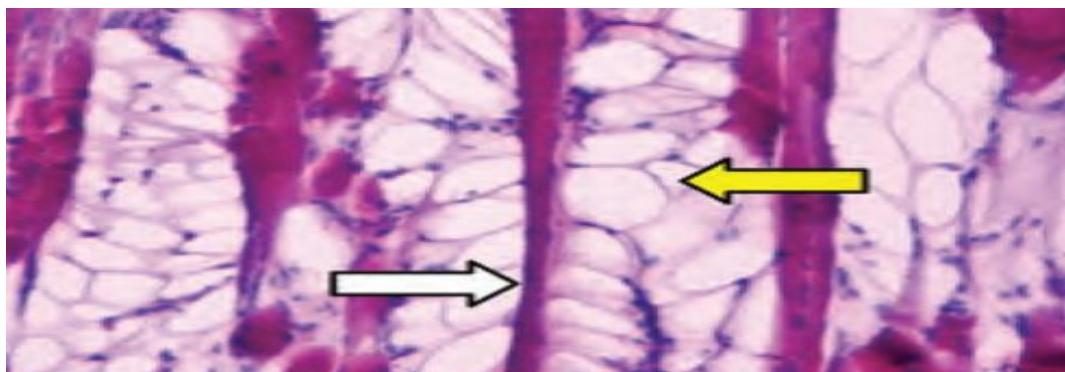


Figura 2: Corte longitudinal de un ECM perteneciente a un paciente de TMC [14]. Podemos observar fibras musculares atróficas (flecha blanca) rodeadas de adipocitos en proliferación (flecha amarilla). Tinción de H&E.

Para la evaluación histopatológica se utilizaron la tinción tricrómica de Masson, la tinción de H&E y la tinción de Sudán III. En las muestras elegidas se encontró hiperplasia de adipocitos y atrofia muscular, así como proliferación de colágeno y fibroblastos. No hubo presencia de gotas de grasa intramiocelulares ni infiltración celular inflamatoria (Figura 2).

5.4.1.2 INMUNOHISTOQUÍMICA

En la inmunohistoquímica de las muestras de los pacientes se encontró una fuerte inmunorreactividad de las fibras atróficas para la calpaína-1, la ubiquitina y el proteasoma 20S (Figura 3).

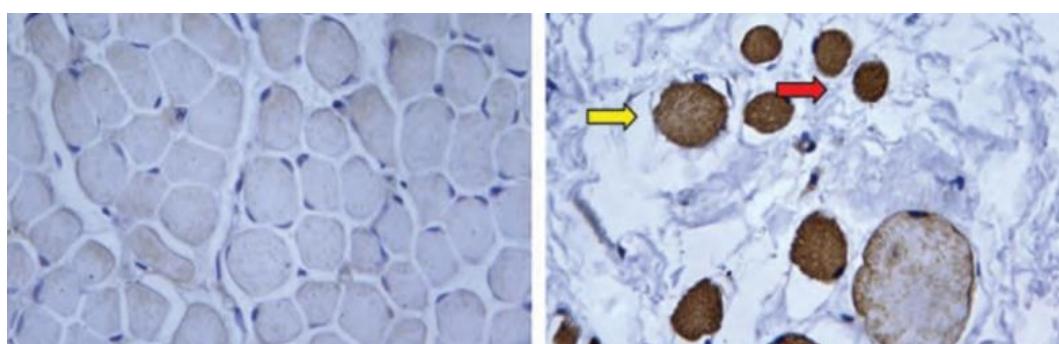


Figura 3: Comparación entre la muestra histológica muscular de una persona sana (izquierda) y el de un paciente afecto de TMC (derecha) [14]. En este último se observa una marcada atrofia muscular que muestra inmunorreactividad a la ubiquitina (flechas amarilla y roja).

Estos resultados indican que la proliferación de tejido fibroso y adiposo en CMT conduce a la atrofia muscular por la calpaína y el sistema ubiquitina-proteasoma [14].

5.5. CLÍNICA

La manifestación clínica más común de la tortícolis muscular congénita es la inclinación de la cabeza de manera homolateral a la lesión con una orientación contralateral del mentón [16]. Además, en la TMC puede aparecer plagiocefalia, una asimetría craneofacial, de forma simultánea o en el curso de la enfermedad siendo una complicación secundaria a la rotación limitada del cuello y la posición fija de la cabeza [17].

Además de esta deformidad, se puede producir un desarrollo postural y motor atípico debido a la incompleta percepción del entorno a consecuencia de la inclinación persistente de la cabeza del bebé. Los movimientos antigravedad que proporcionan un buen control postural y una base de apoyo equilibrada dependen en buena parte de la musculatura del cuello y ésta se ve afectada en la TMC. En estas anomalías posturales se incluyen el movimiento del hombro y la flexión lateral del lado acortado.

Los casos de TMC se pueden clasificar en tres subclases clínicas:

- **Tumor del esternocleidomastoideo (TMS):** se caracteriza por un cuadro de tortícolis con un pseudotumor palpable, duro y móvil localizado generalmente en el tercio medio e inferior de la porción esternal del ECM. En la mayoría de las ocasiones se agranda después de notarlo por primera vez pero desaparece progresivamente en un periodo de 5 a 21 meses. Esta subclase supone aproximadamente el 50% de los casos [16] y se relaciona con una manifestación más temprana, y una mayor frecuencia de parto con presentación podálica y ventosa e incidencia de displasia de cadera [18].
- **Torticulis muscular (TM):** en estos casos, que oscilan alrededor del 30%, se observa cierta limitación del rango de movimiento pasivo como consecuencia de la tirantez del ECM pero sin presencia de masa palpable.
- **Postural (POST):** no existe masa ni tirantez del músculo, únicamente una preferencia postural del bebé. Al no haber afectación muscular, se puede catalogar dentro de un diagnóstico diferente en un sistema de clasificaciones alternativas [16].

Para clasificar cuantitativamente la gravedad de la tortícolis de cada uno de los subgrupos clínicos, se utilizó de forma exclusiva la limitación pasiva de la rotación del cuello como herramienta de evaluación (ROT), ya que se demostró una buena correlación entre la rotación y la flexión lateral pasiva [17].

Se establecieron 4 grados de menor a mayor gravedad de la limitación a la rotación lateral: ROTGp I (0°), ROTGp II ($<15^\circ$) ROTGp III ($16-30^\circ$) y ROTGp IV ($>30^\circ$) (Tabla 2). Casi la totalidad de los integrantes del último grupo y, por ende, el de mayor gravedad, eran pacientes con tumor del esternocleidomastoideo, en contraposición con el ROTGp I, los cuales pertenecían a la subclase de tortícolis postural sin lesión del músculo. Los pacientes afectos de tortícolis muscular sin tumor pero con tirantez del ECM representaron formas intermedias de gravedad en esta clasificación [18].

| | TMS (%) | TM (%) | POST (%) |
|---|----------------|---------------|-----------------|
| ROTGp I (0°) | 31 (6.1) | 89 (26.7) | 158 (65.6) |
| ROTGp II ($<15^\circ$) | 136 (26.7) | 147 (44) | 77 (32) |
| ROTGp III ($<16-30^\circ$) | 233 (45.3) | 93 (27.8) | 6 (2.5) |
| ROTGp IV ($>30^\circ$) | 114 (22.2) | 5 (1.5) | 0 (0) |
| Total | (100) | (100) | |

Tabla 2: Porcentaje de pacientes de los 3 subgrupos clínicos según la gravedad del ROT [18].

Se detectaron diferencias entre los subgrupos clínicos respecto a los patrones posturales que adoptan los pacientes. En la mayoría de ellos hay una flexión lateral de la cabeza hacia el músculo afectado y el giro ocurre de forma opuesta, lo cual se atribuye a la forma clínica de tortícolis con tumor del esternocleidomastoideo, siendo la predominante. A pesar de ello los pacientes sin anomalías estructurales en el músculo (tortícolis postural) realizan tanto la flexión como la rotación de forma ipsilateral al defecto. Esta diferencia clínica podría explicarse por la teoría de un origen fisiopatológico distinto entre ambos, y es necesario tenerlo en cuenta para realizar un correcto diagnóstico [17].

En lo referido anteriormente, algunos casos de tortícolis congénita han originado cierto desarrollo motor atípico en base a la asimetría asociada típicamente a esta patología. La tortícolis, al restringir el movimiento del cráneo e imposibilitar el contacto ojo-mano del lado contralateral a la lesión, puede ser determinante en cuanto a la progresión de una asimetría motora reversible en la mayoría de los pacientes [19].

La presencia de tortícolis asociada a deformidad craneofacial se puede considerar un marcador de mayor riesgo de retraso en la adquisición de habilidades motoras gruesas. En un estudio de 2015 [20], la capacidad de giro y sedestación en el grupo de lactantes con plagiocefalia y tortícolis congénita fue adquirida en un tiempo más prolongado de lo usual sin embargo la bipedestación se logró en el periodo esperado. Esta alteración motora no seguiría una progresión lineal ya que en otra investigación se informó de su reversibilidad puesto que los niños incluidos a los 18 meses de edad ya habían mostrado un desarrollo motor normal [21].

De los lactantes incluidos en un estudio adicional [19], un 34,7% mostró una función motora por debajo del rango normal. Sin embargo, después del año solo un 9,6% continuó con este déficit. Se ha investigado si este factor puede intervenir en un posible retraso motor en niños preescolares pero el resultado del desarrollo en este rango de edad (3-5 años) se ha descrito como normal [19,22].

5.6. ASOCIACIÓN CON OTRAS ENTIDADES

5.6.1. PLAGIOCEFALIA

Hasta un 90% de niños con sintomatología compatible con tortícolis congénita acaba desarrollando plagiocefalia [23], sin embargo, tan solo el 24% tenía un diagnóstico de torticollis o había sido tratado, lo cual denota la falta de detección de dicha patología [6]. En la tortícolis muscular congénita, la tensión del músculo afecto provoca una asimetría cervical con preferencia postural en la cual el cráneo empieza a aplanarse debido a la carga continua de peso unilateral (Figura 4). De forma compensatoria, se produce una asimetría en la parte opuesta, de modo que da lugar a una cabeza en forma de paralelogramo [16,24].

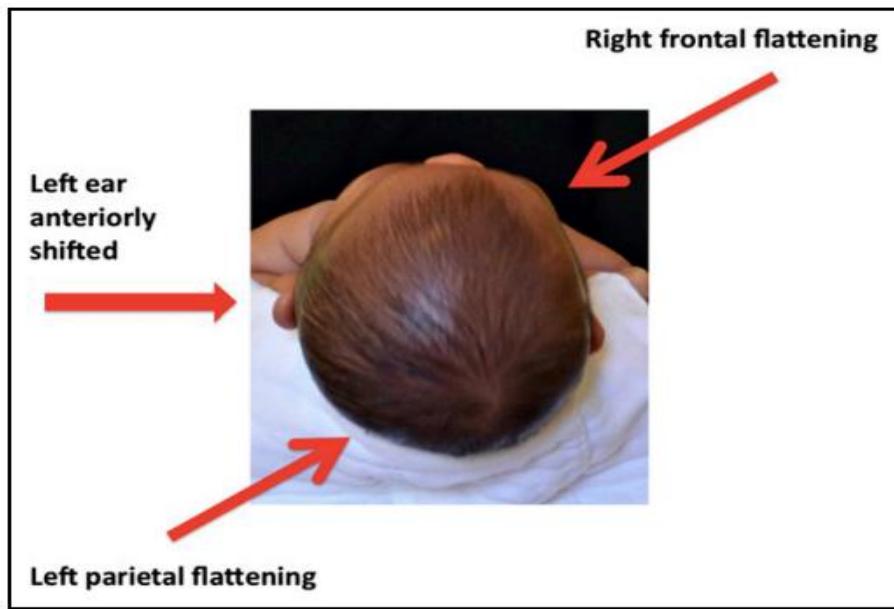


Figura 4: Asimetrías en un lactante de 4 meses con tortícolis congénita asociada a plagiocefalia [6].

La asimetría e hipoplasia mandibular es en muchas ocasiones la primera señal que alerta a los padres, especialmente a la madre, que nota cierta dificultad del lactante para amamantar de la misma forma los dos senos. También se asocian asimetrías en otros elementos faciales, como los ojos o las orejas. El aplanamiento occipito-parietal contralateral a la lesión condiciona un desplazamiento anterior de la oreja de este mismo lado, mientras que el ojo y oreja ipsilateral a la lesión suelen ser de menor tamaño [6].

Existen otras circunstancias que junto con la tortícolis congénita contribuyen a la patogenia de la plagiocefalia. La posición supina para dormir, defectos neurológicos o cervicales y parto prematuro son factores que aumentan la probabilidad de que un lactante desarrolle aplanamiento craneal occipital. Se asoció un incremento de la incidencia de plagiocefalia a consecuencia de las recomendaciones a favor de la postura en decúbito supino para prevenir la muerte súbita del lactante pero de momento no se ha demostrado que sea un factor determinante en el origen de la asimetría craneal. En la mayoría de las investigaciones sobre plagiocefalia se detectó un elemento común consistente en una “preferencia rotacional de la cabeza” que probablemente sea un remanente de una tortícolis congénita pasada o simplemente una falta de diagnóstico, ya que existe una forma clínica que no implica lesión en el músculo y es en muchas ocasiones inadvertida [25,26].

Puesto que el hallazgo de tortícolis y plagiocefalia es frecuentemente simultáneo hay desacuerdo en el orden de causalidad de dichas entidades. Hay autores que insisten en un origen intrauterino de la plagiocefalia en el cual la posición del feto determina el crecimiento craneal y el aplanamiento del punto de apoyo, siendo esta asimetría exacerbada después del nacimiento cuando el niño se acuesta en posición supina [25,26]. En este hipotético escenario es posible que la tortícolis postural (sin contractura ni masa en el ECM) sea consecuencia de una plagiocefalia previa [27]. Sin embargo, la aparición tardía (6-10 semanas de vida) del aplanamiento occipital y la mejora de la tortícolis en el desarrollo temprano sugieren la asimetría cervical como responsable de la plagiocefalia [25].

La región de la deformación occipital se relaciona con el lado hacia el que se dirige la cabeza cuando se duerme en decúbito supino [28] por lo que es necesario un adecuado entrenamiento de los padres en cuanto la corrección de la postura de los lactantes, sobre todo en aquellos menores de 4 meses y con un cuadro leve-moderado [29].

5.6.2.DISPLASIA DE CADERA

La asociación entre tortícolis muscular congénita y displasia del desarrollo de cadera ha sido aceptada en numerosos estudios. Sin embargo, se observan variaciones en las estimaciones de la tasa de coexistencia de estas patologías (0-20%)[30]. Estas diferencias pueden atribuirse a la diversidad en los criterios y métodos de diagnóstico (examen físico, ecografía o radiografía) y las propias definiciones de dichas entidades [31].

La displasia de cadera comprende un amplio abanico de patologías en las que podemos encontrar desde una luxación fija completa al nacer hasta una displasia acetabular asintomática en el adulto por lo que el estudio de su epidemiología resulta complicado [32].

Estas dos patologías están relacionadas de tal manera que cuando diagnosticamos una de ellas, la probabilidad de la otra se incrementa de forma considerable [33]. La primera en detectarse es la TMC ya que se manifiesta en el examen físico general realizado por el pediatra y en ocasiones los padres pueden percibirse de dicha asimetría.

Sin embargo, la displasia de cadera no es tan sencilla de diagnosticar sobre todo las más leves, como una laxitud capsular que conduce a una subluxación [30].

Por este motivo se estableció un screening de displasia de cadera entre pacientes que padecen TMC, aunque existe una gran controversia en la utilización de pruebas de imagen como la ecografía.

Hay estudios [34,35] que recomiendan la realización de ecografía de cadera de forma rutinaria en niños con tortícolis, ya que es el método más sensible para detectar las formas clínicas que son desapercibidas en el examen físico. De esta forma no solo aumentaríamos el diagnóstico precoz de la enfermedad, sino que podríamos establecer una aproximación más cercana a la tasa real de coexistencia de los dos procesos patológicos.

5.7. DIAGNÓSTICO

El diagnóstico de la tortícolis muscular congénita es fundamentalmente clínico, basado en una completa anamnesis y exploración física aunque en ocasiones es precisa la realización de pruebas de imagen con el objetivo de descartar otras posibles patologías asociadas y cuantificar la gravedad de la patología [36].

La TMC es una anomalía postural común en la que es necesaria una identificación temprana por medio de los progenitores o pediatras ya que los resultados y pronóstico mejoran de forma inversamente proporcional al tiempo que transcurre hasta su diagnóstico [37].

Anamnesis

La anamnesis debe ir dirigida a los padres o tutores legales del paciente, que proporcionarán información acerca del cuadro y antecedentes del nacimiento y transcurso del embarazo. En la entrevista completa que se realiza se deben tener en cuenta los siguientes ítems:

- Edad del paciente e inicio de los síntomas.

Es importante a la hora de diferenciar entre causas de tortícolis congénita o adquirida, además de comprobar si coincide la cronología de la enfermedad, ya

que la aparición más frecuente de la TMC es en los primeros meses de vida aunque es posible su detección después del nacimiento [38].

- Motivo de consulta

Los padres suelen ser los primeros en detectar una preferencia postural del cuello consistente en la flexión lateral cervical ipsilateral y una rotación cervical contralateral debido al acortamiento del ECM. En ocasiones es notable la presencia de una masa fibrosa en el músculo y asimetría craneal [37].

- Antecedentes de interés

Debemos completar el historial clínico del bebé preguntando acerca del embarazo, parto (cesárea o parto vaginal, tipo de presentación), otras anomalías conocidas, la progresión motora y desarrollo o historia familiar de tortícolis [39]. Asimismo, es necesario descartar otros síndromes asociados a inestabilidad atloaxoidea como síndrome de Down, Morquio, Marfan...[36].

Exploración física

El primer paso es la inspección de la actitud cervical y postura preferente, así como la tolerancia a las posiciones en decúbito supino, prono, sedestación y bipedestación para comprobar la simetría corporal [39]. La existencia de un cuello corto con implantación baja de pelo nos puede sugerir una malformación ósea [36]. Asimismo, la visualización de la forma de la cabeza y la simetría facial es necesaria con el fin de detectar otras deformaciones craneales como plagiocefalia, frecuentemente asociada a TMC [37].

Además de la inspección postural se debe realizar un examen físico que permita realizar una evaluación del rango de movimiento cervical pasivo (PROM) mediante un goniómetro artrodial, y el rango de movimiento activo (AROM). Tanto PROM como AROM deben verificar la rotación cervical y flexión lateral en ambas direcciones en posición decúbito supino [37].

Rango de movimiento cervical pasivo (PROM)

La rotación cervical pasiva debe medirse con la ayuda de un goniómetro con un brazo fijo y otro móvil. El lactante se coloca en decúbito supino y después de estabilizar los hombros se realizan las medidas de la posición de partida.

Posteriormente, se alinea el brazo móvil del goniómetro con la nariz del bebé y se procede a rotar la cabeza hasta que la mejilla del bebé contacta con la superficie de apoyo (Figura 5) [40].

Por otro lado, la flexión lateral pasiva se mide colocando la cabeza en la posición correspondiente al cero en la escala del transportador y se considera una flexión completa cuando la oreja del bebé contacta con el hombro (Figura 6) [40]. Esta técnica resulta más complicada que la anterior por lo tanto la mayor parte de estudios eligen la rotación pasiva con el fin de valorar la gravedad de la tortícolis [18].

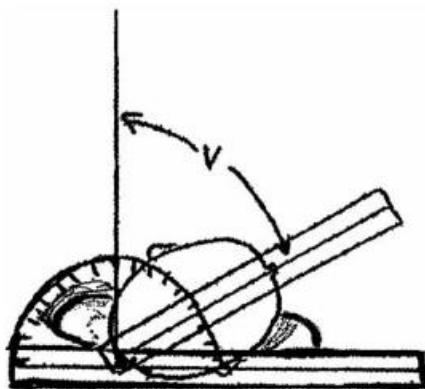


Figura 5: Medida del rango de rotación cervical pasiva [40].

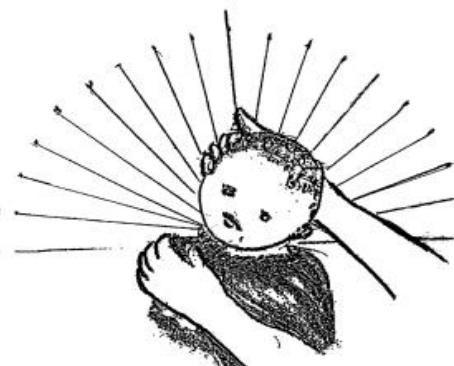


Figura 6: Medida del rango de flexión lateral pasiva [40].

Rango de movimiento cervical activo (AROM)

Para medir el rango de movimiento activo (AROM) se sigue la misma secuencia, aunque en esta ocasión el niño es el que toma el control del movimiento. El examinador estimula mediante sonidos ambos lados con el fin de provocar la rotación o flexión y observar los límites o diferencias entre las dos medidas [41].

En esa misma exploración, la palpación de la zona cervical y del músculo esternocleidomastoideo afectado es primordial para diagnosticar la posible presencia de una masa fibrosa y en caso de aparecer evaluar el tamaño, forma y movilidad de la misma [39]. El examen musculoesquelético no solo debe prestar atención a la anomalía muscular cervical, sino que debe ser completa evaluando tanto columna vertebral, caja torácica, cintura escapular y cadera. En esta última debemos comprobar la simetría y estabilidad junto con las maniobras de Barlow y Ortolani, la simetría en la longitud de las piernas y los pliegues de la piel de los glúteos, con el fin de identificar una posible displasia de cadera [39].

La exploración por aparatos resulta necesaria para descartar causas no musculares de asimetría y otras condiciones asociadas como plagiocefalia o displasia de cadera.

Además de lo anterior, es importante realizar un examen neurológico (detectar tono anormal o simétrico, integridad del plexo braquial, retención de reflejos primitivos) y visual (presencia de reflejo rojo, reacción pupilar a la luz, nistagmo, alineación de los ojos)[5,39]. Igualmente son precisas la comprobación de la integridad de la piel para descartar traumatismo, la exploración ORL y cardiopulmonar [36].

Pruebas de imagen

La ecografía es una prueba muy sensible y rentable para establecer el diagnóstico de tortícolis, especialmente en aquellos pacientes que presentan masas fibróticas en el esternocleidomastoideo [42]. Es una herramienta que nos ayuda a planificar la clase y duración de tratamiento ya que cuantifica el grado de fibrosis muscular, el tamaño y localización de las masas musculares [12].

Los principales patrones de fibrosis muscular determinada por ultrasonidos son (Figura 7)[9,12]:

- Fibrosis tipo I o pseudotumor: imágenes hiperecoicas (fibrosis) localizadas con un fondo de hipoeogenicidad (músculo sano).
- Fibrosis tipo II: la fibrosis se extiende de forma difusa mezclándose con músculo sano.
- Fibrosis tipo III: fibrosis difusa total sin evidencia de músculo sano.
- Fibrosis tipo IV: fibrosis localizada en bandas fibrosas sin fondo hipoeocoico.

La fibrosis tipo III y IV son afecciones crónicas y graves en las que frecuentemente se debe actuar de forma temprana con tratamiento quirúrgico. Su desarrollo se puede ver favorecido por falta de diagnóstico precoz por lo que la utilización de la ecografía junto al examen físico mejoraría su pronóstico [43].

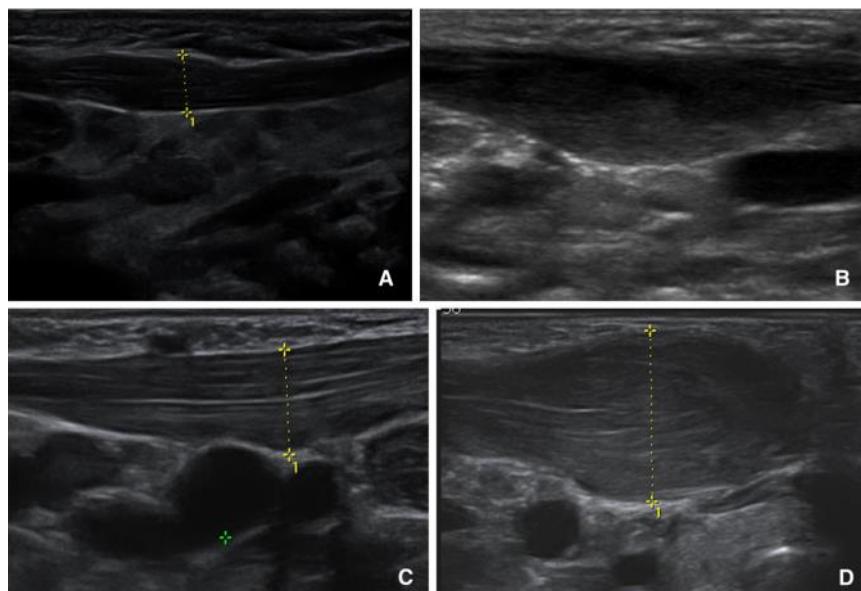


Figura 7: Principales patrones de fibrosis de la tortícolis muscular congénita desde el punto de vista ultrasonográfico [9]. A) Músculo normal (hipoecogenicidad), B) Fibrosis tipo I (heterogenicidad localizada), C) Fibrosis tipo II (heterogenicidad difusa con fondo hipoecogénico), D) Fibrosis tipo III (hiperecogenicidad difusa sin fondo hipogénico).

En aquellos casos en los que persiste una limitación de movimiento cervical después de la realización de ejercicios y estiramientos intensivos, la resonancia magnética puede ser resultarnos útil para determinar si el paciente es candidato a tratamiento quirúrgico. Estos pacientes generalmente muestran hipointensidad en las imágenes de RMN tanto en T1 como en T2, lo cual corresponde a la aparición de tejido conectivo denso, compatible con los estudios histopatológicos del músculo [44].

5.8. DIAGNÓSTICO DIFERENCIAL

El diagnóstico diferencial de la TMC difiere según se trate de lactantes, niños y/o adolescentes. En niños mayores y adolescentes el diagnóstico diferencial debe establecerse con cuadros secundarios a desplazamiento rotatorio atlantoaxial secundario a traumatismo o inflamación orofaríngea (Síndrome de Grisel).

En el caso de los lactantes la etiología muscular es predominante, siendo detectada al nacer o en las primeras semanas de vida [6]. Sin embargo, existen otras patologías como la ocular, ósea o neurológica que pueden pasar desapercibidas por su escasa prevalencia, su coexistencia con la TMC o por la dificultad en el diagnóstico [45].

5.8.1. TORTÍCOLIS OCULAR CONGÉNITA

El diagnóstico suele ser más tardío que el de TMC ya que el desarrollo de la visión binocular comienza aproximadamente a los 4 meses, a la vez que empiezan a sentarse de manera independiente. Si el cuadro de tortícolis empeora al visualizar un objeto en esta posición, debemos realizar un examen oftalmológico que evalúe la función visual, la reactividad de la pupila y el movimiento extraocular entre otros [45]. La tortícolis ocular puede ser secundaria a estrabismo, síndrome de retracción de Duane, nistagmo o síndrome de Brown aunque la principal afección se relaciona con la parálisis del IV par craneal [46], que se manifiesta con inclinación y giro de la cabeza hacia el lado contralateral de la parálisis [47].

5.8.2. TORTÍCOLIS ÓSEA CONGÉNITA

Algunas deformidades estructurales congénitas de la vértebra pueden ocasionar una postura anómala del cuello y de la cabeza. Entre ellas, la más frecuente es la fusión cervical de un solo nivel, que requiere de pruebas de imagen más sofisticadas como el 3D-TC [45,48].

A menudo estas anomalías se correlacionan con otras malformaciones congénitas como el síndrome de Klippel-Feil (fusión de varias vértebras asociado a defectos neurológicos y cardiopumonares) o la asociación VACTERL/VATER (cuadro polimalformativo con baja prevalencia pero elevada morbimortalidad).

Entre las causas neurológicas podemos encontrar siringomielia, tumores cerebrales, malformación de Arnold-Chiari o síndrome de Sandifer [5].

5.9. TRATAMIENTO

Existen distintos tipos de abordaje terapéutico, todos ellos con el objetivo de lograr un rango de movimiento cervical activo y pasivo completo, así como la corrección de asimetrías craneofaciales asociadas [5].

5.9.1. TRATAMIENTO CONSERVADOR

El tratamiento conservador aborda la patología de forma integral a través de un fisioterapeuta pediátrico y la participación de los padres o cuidadores. Se trata de la intervención de primera elección y actúa sobre los siguientes aspectos: rango de movimiento pasivo y activo del cuello, desarrollo de movimiento simétrico activo, adaptaciones ambientales y educación de los padres o cuidadores para integrar los ejercicios en su rutina habitual [37,49].

- 1) El rango de movimiento cervical pasivo (PROM) se puede corregir mediante la realización de estiramientos manuales o a través de técnicas de posicionamiento.

El **estiramiento pasivo** del músculo supone la intervención más común en este tipo de pacientes y, por tanto, de las más efectivas ya que a pesar de no haber consenso sobre la técnica, frecuencia o duración, se han notificado mejorías significativas en la mayor parte de grupos de pacientes.

El uso de determinadas **posiciones** puede resultar una técnica interesante a la hora de incluir en la rutina del bebé, como por ejemplo acostarlo en decúbito lateral para estirar el músculo acortado de forma controlada.

- 2) El entrenamiento del rango de movimiento cervical activo (AROM) pretende fortalecer los músculos cervicales y del tronco tratando de fomentar los movimientos espontáneos del lactante, de forma que se ha mostrado una mejoría positiva en el grosor del músculo ECM o la rotación de la cabeza, siendo este último un factor importante en el curso de la rehabilitación [50].

- 3) Es recomendable fomentar el desarrollo de movimiento simétrico en posiciones de prono y sedestación, así como en el comienzo del gateo y marcha.
- 4) La educación de padres resulta fundamental ya que serán los responsables de incluir parte de la terapia en la rutina del bebé, sobre todo en el posicionamiento y manejo en el tiempo de juego o alimentación, realizando ejercicios que alternen el movimiento activo de ambos lados [39].

Existen otras intervenciones que han demostrado evidencia de mejora si las agregamos en la terapia conservadora. Se trata de la microcorriente, el vendaje neuromuscular y la movilización de tejido blando [39].

La duración del tratamiento es variable y en cada caso hay que individualizar la estrategia de trabajo (generalmente los casos leves requieren 2-3 meses y los más complejos necesitan 5-6 [51]). Para facilitar esta labor, se ha desarrollado un método para clasificar los pacientes en función de la severidad de la TMC, en el cual se valora la edad de presentación, la diferencia de ROM cervical pasivo y la forma de presentación (sobre todo si hay masa en el ECM). Sin embargo, se necesita más difusión de este método para llegar a convertirse en un estándar de la evaluación inicial de la TMC [52].

5.9.2. TRATAMIENTO QUIRÚRGICO

La cirugía está indicada cuando un paciente se ha sometido al menos a seis meses de estiramiento manual controlado y tiene inclinación residual de la cabeza, déficit de rotación pasiva, flexión lateral del cuello de >15 grados y una banda muscular tensa o un tumor [53]. La edad en la que se realiza la cirugía es el factor más importante en el pronóstico, por ello se recomienda la intervención especialmente en niños entre 1 y 4 años, periodo en el que es menos probable que las deformidades sean definitivas [54].

Existen varios enfoques quirúrgicos en el manejo de la TMC, siendo la liberación unipolar del esternocleidomastoideo el procedimiento más común (Figura 8). Consiste en la separación entre la vaina posterior de la fascia esternocleidomastoidea y la vaina carotidea y la división del músculo ECM. La vena yugular interna y la arteria carótida común se encuentran dentro de la vaina carotidea por lo que existe el riesgo de lesionarlas por lo que su abordaje es el factor clave en el efecto terapéutico de la cirugía.

Actualmente hay nuevas técnicas quirúrgicas y como consecuencia se ha reducido la complejidad del proceso junto con la aparición de complicaciones, como bandas laterales postquirúrgicas [55].

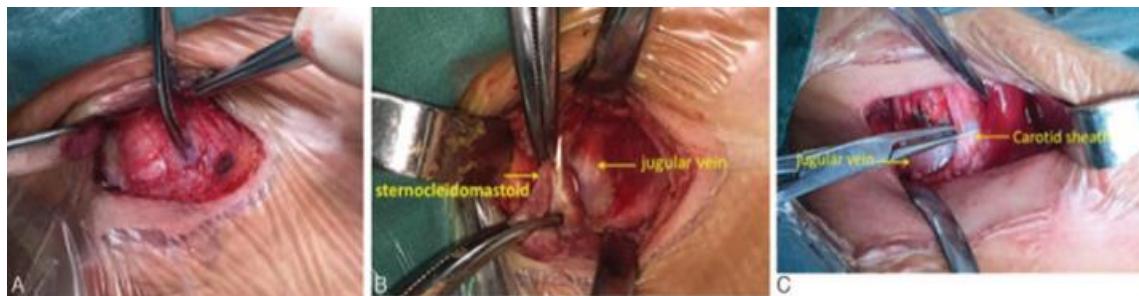


Figura 8: Liberación unipolar del músculo esternocleidomastoideo [55]. A) Incisión en la fascia de revestimiento en el borde medial del músculo. B) Separación entre la vaina fascial del ECM y la vaina carotídea y posterior incisión del ECM. C) Contractura posterior de la vaina carotídea.

La liberación bipolar se recomienda en aquellos pacientes que no recibieron tratamiento quirúrgico en su momento y permanecen con deformidades faciales y esqueléticas irreversibles abriendo la posibilidad de restaurar por completo el rango de movimiento cervical. Sin embargo, para los casos no complicados la resección unipolar también puede mejorar la tensión del ECM y de esta forma evitamos una cirugía más amplia [56].

5.9.3. TOXINA BOTULÍNICA

Tradicionalmente en los casos con elevada complejidad o fracaso del tratamiento conservador la corrección quirúrgica ha sido la opción elegida, no obstante, se han empezado a desarrollar nuevas herramientas terapéuticas como es el caso de la toxina botulínica (TBX).

La toxina botulínica tipo A actúa como relajante muscular focal inhibiendo la liberación de acetilcolina por lo cual puede ayudar a reducir la tensión muscular en la tortícolis muscular congénita [6]. La combinación de terapia física e inyecciones de TBX ha demostrado ser eficaz en la corrección de TMC resistente evitando la necesidad de un proceso quirúrgico más invasivo [57].

5.10. PRONÓSTICO

El pronóstico depende de la edad de aparición y detección de la patología, así como de la limitación del movimiento cervical y los cambios fibróticos del músculo afectado. Aquellos que no manifiestan gran afectación motora o tumor del ECM y su diagnóstico es precoz (sobre todo antes de los 3 meses) logran una respuesta satisfactoria hasta en un 90% de los casos mediante tratamiento rehabilitador [58].

El pronóstico de los pacientes que deben recurrir a la cirugía dependerá de la edad a la que se realice el procedimiento, siendo los menores de 4 años los sujetos con mayor tasa de éxito. Sin embargo, por diversas razones hay un grupo de población que no se opera en la infancia y cuando deciden pasar por quirófano no resultan satisfechos principalmente por la existencia de deformidades ya irreversibles y una incompleta liberación de los tejidos fibrosados, siendo esta última potencialmente modificable con técnicas quirúrgicas más invasivas [55].

6. CONCLUSIONES:

- La tortícolis muscular congénita es la tercera anomalía ortopédica congénita más frecuente con una incidencia aproximada del 0,3-1,9%, la cual afecta a la musculatura cervical, en concreto al músculo esternocleidomastoideo.
- La etiología de la tortícolis muscular congénita todavía resulta desconocida, siendo las hipótesis más estudiadas el traumatismo del ECM durante el parto y la deformación intrauterina, y ésta ultima la más aceptada en los últimos años.
- La manifestación clínica más aparente es la inclinación de la cabeza homolateral a la lesión y la orientación contralateral del mentón, que se puede ver acompañada de otras deformaciones como la plagiocefalia o la displasia de cadera.
- Se puede clasificar en tres subclases: TMS, TM y POST, dependiendo del grado de lesión y/o fibrosis del ECM.
- El diagnóstico se realiza mediante una correcta anamnesis, exploración física del paciente y en ocasiones pruebas de imagen como la ecografía en casos específicos.
- El tratamiento de elección se basa en técnicas de rehabilitación postural y en casos refractarios o sin respuesta se opta por tratamiento quirúrgico.
- El pronóstico va a depender de la edad e intensidad de aparición de la TMC.

7. BIBLIOGRAFÍA

- [1] Suárez C, Gil-Carcedo L, Medina J, Marco J, Ortega P, Trinidad J. Tratado de otorrinolaringología y cirugía de cabeza y cuello. 2nd ed. Médica Panamericana; 2007.
- [2] Almela Rojo MT, Iniesta Turpín JM. Embriología, anatomía topográfica y anatomía quirúrgica de las regiones cárneo-faciales. Libro virtual de formación en otorrinolaringología, Murcia: SEORL; 2015.
- [3] López Fernández P. Desarrollo de las fascias del cuello. Tesis doctoral. Universidad Complutense de Madrid, 2018.
- [4] Schünke, M., Schulte, E., Schumacher U. Prometheus texto y atlas de anatomía: Anatomía general y aparato locomotor. t. 1. Madrid: Médica Panamericana; 2007.
- [5] Gundrathi J, Cunha B, Mendez MD. Congenital Torticollis. Anaesth Pain Intensive Care 2022;20:376. <https://doi.org/10.17816/kazmj52823>.
- [6] Kuo AA, Tritasavit S, Graham JM. Congenital muscular torticollis and positional plagiocephaly. Pediatr Rev 2014;35:79–86. <https://doi.org/10.1542/PIR.35-2-79>.
- [7] Lee SJ, Han JD, Lee HB, Hwang JH, Kim SY, Park MC, et al. Comparison of Clinical Severity of Congenital Muscular Torticollis Based on the Method of Child Birth. Ann Rehabil Med 2011;35:641. <https://doi.org/10.5535/ARM.2011.35.5.641>.
- [8] Hardgrib N, Rahbek O, Møller-Madsen B, Maimburg RD. Do obstetric risk factors truly influence the etiopathogenesis of congenital muscular torticollis? J Orthop Traumatol 2017;18:359. <https://doi.org/10.1007/S10195-017-0461-Z>.
- [9] Lee YT, Cho SK, Yoon K, Shin HK, Kim E, Kim YB, et al. Risk factors for intrauterine constraint are associated with ultrasonographically detected severe fibrosis in early congenital muscular torticollis. J Pediatr Surg 2011;46:514–9. <https://doi.org/10.1016/J.JPEDSURG.2010.08.003>.
- [10] Davids J, Wenger D, Mubarak S. Congenital muscular torticollis: sequela of intrauterine or perinatal compartment syndrome. J Pediatr Orthop 1993;13:141–7.
- [11] Engin C, Yavuz SS, Şahin FI. Congenital muscular torticollis: is heredity a possible factor in a family with five torticollis patients in three generations? Plast Reconstr Surg 1997;99:1147–50. <https://doi.org/10.1097/00006534-199704000-00037>.
- [12] Hu CF, Fu TC, Chen CY, Chen CPC, Lin YJ, Hsu CC. Longitudinal follow-up of muscle echotexture in infants with congenital muscular torticollis. Medicine 2017;96:60–8. <https://doi.org/10.1097/MD.0000000000006068>.

- [13] Jiang B, Zu W, Xu J, Xiong Z, Zhang Y, Gao S, et al. Botulinum toxin type A relieves sternocleidomastoid muscle fibrosis in congenital muscular torticollis. *Int J Biol Macromol* 2018;112:1014–20. <https://doi.org/10.1016/J.IJBIOMAC.2018.02.077>.
- [14] Chen HX, Tang SP, Gao FT, Xu JL, Jiang XP, Cao J, et al. Fibrosis, Adipogenesis, and Muscle Atrophy in Congenital Muscular Torticollis. *Medicine* 2014;93:138. <https://doi.org/10.1097/MD.0000000000000138>.
- [15] Li D, Wang K, Zhang W, Wang J. Expression of Bax/Bcl-2, TGF- β 1, and Type III Collagen Fiber in Congenital Muscular Torticollis. *Med Sci Monit* 2018;24:869–74. <https://doi.org/10.12659/MSM.909064>.
- [16] Nilesh K, Mukherji S. Congenital muscular torticollis. *Ann Maxillofac Surg* 2013;3:198. <https://doi.org/10.4103/2231-0746.119222>.
- [17] Han MH, Kang JY, Do HJ, Park HS, Noh HJ, Cho YH, et al. Comparison of Clinical Findings of Congenital Muscular Torticollis between Patients with and Without Sternocleidomastoid Lesions as Determined by Ultrasonography. *J Pediatr Orthop* 2019;39:226–31. <https://doi.org/10.1097/BPO.0000000000001039>.
- [18] Cheng JCY, Tang SP, Chen TMK, Wong MWN, Wong EMC. The clinical presentation and outcome of treatment of congenital muscular torticollis in infants—a study of 1,086 cases. *J Pediatr Surg* 2000;35:1091–6. <https://doi.org/10.1053/JPSU.2000.7833>.
- [19] Watemberg N, Ben-Sasson A, Goldfarb R. Transient Motor Asymmetry Among Infants With Congenital Torticollis—Description, Characterization, and Results of Follow-Up. *Pediatr Neurol* 2016;59:36–40. <https://doi.org/10.1016/J.PEDIATRNEUROL.2016.02.005>.
- [20] Cabrera-Martos I, Valenza MC, Valenza-Demet G, Benítez-Feliponi Á, Robles-Vizcaíno C, Ruíz-Extremera Á. Impact of torticollis associated with plagiocephaly on infants' motor development. *J Craniofac Surg* 2015;26:151–6. <https://doi.org/10.1097/SCS.0000000000001402>.
- [21] Öhman A, Nilsson S, Lagerkvist AL, Beckung E. Are infants with torticollis at risk of a delay in early motor milestones compared with a control group of healthy infants? *Dev Med Child Neurol* 2009;51:545–50. <https://doi.org/10.1111/J.1469-8749.2008.03195.X>.
- [22] Öhman A, Beckung E. Children who had congenital torticollis as infants are not at higher risk for a delay in motor development at preschool age. *PM R* 2013;5:850–5. <https://doi.org/10.1016/J.PMRJ.2013.05.008>.
- [23] Rousslang LK, Rooks EA, Smith AC, Wood JR. Fibromatosis colli leading to positional plagiocephaly with gross anatomical and sonographic correlation. *BMJ Case Rep* 2021;14:236–9. <https://doi.org/10.1136/BCR-2020-239236>.

- [24] Jung BK, Yun IS. Diagnosis and treatment of positional plagiocephaly. *Arch Craniofac Surg* 2020;21:80. <https://doi.org/10.7181/ACFS.2020.00059>.
- [25] Rogers GF, Oh AK, Mulliken JB. The role of congenital muscular torticollis in the development of deformational plagiocephaly. *Plast Reconstr Surg* 2009;123:643–52. <https://doi.org/10.1097/PRS.0B013E318196B9BE>.
- [26] Van Vlimmeren LA, Helders PJM, Van Adrichem LNA, Engelbert RHH. Torticollis and plagiocephaly in infancy: therapeutic strategies. *Pediatr Rehabil* 2006;9:40–6. <https://doi.org/10.1080/13638490500037904>.
- [27] Minghelli B, Vitorino NGD. Incidence of Congenital Muscular Torticollis in Babies from Southern Portugal: Types, Age of Diagnosis and Risk Factors. *Int J Environ Res Public Health* 2022;19:9133. <https://doi.org/10.3390/IJERPH19159133>.
- [28] Ellwood J, Draper-Rodi J, Carnes D, Carnes D. The effectiveness and safety of conservative interventions for positional plagiocephaly and congenital muscular torticollis: a synthesis of systematic reviews and guidance. *Chiropr Man Therap* 2020;28:31. <https://doi.org/10.1186/S12998-020-00321-W>.
- [29] Pan WW, Tong XM. A clinical analysis of 101 infants with plagiocephaly. *Chin J Contemp Pediatr* 2017;19:1061. <https://doi.org/10.7499/J.ISSN.1008-8830.2017.10.006>.
- [30] Kim SN, Shin YB, Kim W, Suh H, Son HK, Cha YS, et al. Screening for the Coexistence of Congenital Muscular Torticollis and Developmental Dysplasia of Hip. *Ann Rehabil Med* 2011;35:485. <https://doi.org/10.5535/ARM.2011.35.4.485>.
- [31] Joiner ERA, Andras LM, Skaggs DL. Screening for hip dysplasia in congenital muscular torticollis: is physical exam enough? *J Child Orthop* 2014;8:115. <https://doi.org/10.1007/S11832-014-0572-5>.
- [32] Loder RT, Skopelja EN. The Epidemiology and Demographics of Hip Dysplasia. *ISRN Orthop* 2011;23:1–46. <https://doi.org/10.5402/2011/238607>.
- [33] Gou P, Li J, Li X, Shi M, Zhang M, Wang P, et al. Clinical features and management of the developmental dysplasia of the hip in congenital muscular torticollis. *Int Orthop* 2022;46:883–7. <https://doi.org/10.1007/S00264-021-05279-9/TABLES/2>.
- [34] Von Heideken J, Green DW, Burke SW, Sindle K, Denneen J, Haglund-Akerlind Y, et al. The relationship between developmental dysplasia of the hip and congenital muscular torticollis. *J Pediatr Orthop* 2006;26:805–8. <https://doi.org/10.1097/01.BPO.0000235398.41913.51>.
- [35] Tien YC, Su JY, Lin GT, Lin SY. Ultrasonographic study of the coexistence of muscular torticollis and dysplasia of the hip. *J Pediatr Orthop* 2001;21:343–7. <https://doi.org/10.1097/00004694-200105000-00016>.
- [36] Abad Casas C MCR. Tortícolis en pediatría. *Form Act Pediatr Aten Prim* 2010;29–34.

- [37] Sargent B, Kaplan SL, Coulter C, Baker C. Congenital Muscular Torticollis: Bridging the Gap Between Research and Clinical Practice. *Pediatrics* 2019;144. <https://doi.org/10.1542/PEDS.2019-0582>.
- [38] Huegel M, Kenyon LK. Application of the Clinical Practice Guideline for Congenital Muscular Torticollis: A Case Report. *Pediatr Phys Ther* 2019;31:E1–5. <https://doi.org/10.1097/PEP.0000000000000569>.
- [39] Kaplan SL, Coulter C, Sargent B. Physical therapy management of congenital muscular torticollis: a 2018 evidence-based clinical practice guideline from the American Physical Therapy Association Academy of Pediatric Physical Therapy. *Pediatr Phys Ther* 2018;30:240. <https://doi.org/10.1097/PEP.0000000000000544>.
- [40] Klackenberg EP, Elfving B, Haglund-Åkerlind Y, Carlberg EB. Intra-rater reliability in measuring range of motion in infants with congenital muscular torticollis. *Adv Physiother* 2009;7:84–91. <https://doi.org/10.1080/14038190510010331>.
- [41] Pastor-Pons I, Hidalgo-García C, Lucha-López MO, Barrau-Lalmolda M, Rodes-Pastor I, Rodríguez-Fernández ÁL, et al. Effectiveness of pediatric integrative manual therapy in cervical movement limitation in infants with positional plagiocephaly: a randomized controlled trial. *Ital J Pediatr* 2021;47:41. <https://doi.org/10.1186/S13052-021-00995-9>.
- [42] Tatlı B, Aydinli N, Çaliskan M, Ozmen M, Bilir F, Acar G. Congenital muscular torticollis: evaluation and classification. *Pediatr Neurol* 2006;34:41–4. <https://doi.org/10.1016/J.PEDIATRNEUROL.2005.06.010>.
- [43] Hsu TC, Wang CL, Wong MK, Hsu KH, Tang FT, Chen HT. Correlation of clinical and ultrasonographic features in congenital muscular torticollis. *Arch Phys Med Rehabil* 1999;80:637–41. [https://doi.org/10.1016/S0003-9993\(99\)90165-X](https://doi.org/10.1016/S0003-9993(99)90165-X).
- [44] Hwang JH, Lee HB, Kim JH, Park MC, Kwack KS, Han JD, et al. Magnetic Resonance Imaging as a Determinant for Surgical Release of Congenital Muscular Torticollis: Correlation with the Histopathologic Findings. *Ann Rehabil Med* 2012;36:320. <https://doi.org/10.5535/ARM.2012.36.3.320>.
- [45] Kim MW, Kim DY, Lee DW, Ryoo DH, Kim J, Jang DH. Concurrence of Congenital Muscular Torticollis and Congenital Torticollis Due to Other Anomalies: Two Case Reports. *Front Pediatr* 2021;9:709616. <https://doi.org/10.3389/FPED.2021.709616>.
- [46] Turan KE, Şekeroğlu HT, Koç İ, Vural E, Karakaya J, Şener EC, et al. Ocular Causes of Abnormal Head Position: Strabismus Clinic Data. *Turk J Ophthalmol* 2017;47:211. <https://doi.org/10.4274/TJO.42068>.
- [47] Akbari MR, Khorrami-Nejad M, Kangari H, Akbarzadeh Baghban AA, Ranjbar Pazouki MR. Ocular Abnormal Head Posture: A Literature Review. *J Curr Ophthalmol* 2021;33:379. https://doi.org/10.4103/JOCO.JOCO_114_20.

- [48] Ryoo DH, Jang DH, Kim DY, Kim J, Lee DW, Kang JH. Congenital Osseous Torticollis that Mimics Congenital Muscular Torticollis: A Retrospective Observational Study. Children 2020;7:227. <https://doi.org/10.3390/CHILDREN7110227>.
- [49] Brurberg KG, Dahm KT, Kirkehei I. Manipulation techniques for infant torticollis. Tidsskr Nor Laegeforen 2018;139:31. <https://doi.org/10.4045/TIDSSKR.17.1031>.
- [50] Song S, Hwang W, Lee S. Effect of physical therapy intervention on thickness and ratio of the sternocleidomastoid muscle and head rotation angle in infants with congenital muscular torticollis: A randomized clinical trial (CONSORT). Medicine 2021;100:269–98. <https://doi.org/10.1097/MD.00000000000026998>.
- [51] Cheng JCY, Tang SP, Chen TMK. Sternocleidomastoid pseudotumor and congenital muscular torticollis in infants: A prospective study of 510 cases. J Pediatr 1999;134:712–6. [https://doi.org/10.1016/S0022-3476\(99\)70286-6](https://doi.org/10.1016/S0022-3476(99)70286-6).
- [52] Oledzka MM, Kaplan SL, Sweeney JK, Coulter C, Evans-Rogers DL. Interrater and Intrarater Reliability of the Congenital Muscular Torticollis Severity Classification System. Pediatr Phys Ther 2018;30:176–82. <https://doi.org/10.1097/PEP.0000000000000510>.
- [53] Cheng JCY, Wong MWN, Tang SP, Chen TMK, Shum SLF, Wong EMC. Clinical determinants of the outcome of manual stretching in the treatment of congenital muscular torticollis in infants. A prospective study of eight hundred and twenty-one cases. J Bone Joint Surg Am 2001;83:679–87. <https://doi.org/10.2106/00004623-200105000-00006>.
- [54] Kim SM, Cha B, Jeong KS, Ha NH, Park MC. Clinical factors in patients with congenital muscular torticollis treated with surgical resection. Arch Plast Surg 2019;46:414. <https://doi.org/10.5999/APS.2019.00206>.
- [55] Shan J, Jiang H, Zhang Y, Zhang Z, Ren D, Zhu B. The effectiveness of a novel surgical approach for the treatment of congenital muscular torticollis. Medicine 2020;99:19572. <https://doi.org/10.1097/MD.00000000000019572>.
- [56] Kamboh UA, Ashraf M, Zahra SG, Raza MA, Manzoor M, Mehboob M, et al. Outcome of surgical treatment for neglected congenital muscular torticollis: A series of 28 adolescent patients. Surg Neurol Int 2022;8:292. https://doi.org/10.25259/SNI_314_2022.
- [57] Limpaphayom N, Kohan E, Huser A, Michalska-Flynn M, Stewart S, Dobbs MB. Use of Combined Botulinum Toxin and Physical Therapy for Treatment Resistant Congenital Muscular Torticollis. J Pediatr Orthop 2019;39:343. <https://doi.org/10.1097/BPO.0000000000001302>.
- [58] Lacruz-Rengel MA, Romero A L, Márquez-Albornoz C, Rojas de Hernández M. Características clínicas y evolutivas del tortícolis muscular congénito. Arch Venez Pueric Pediatr 2013;76:12–6.