

· 论著 ·

先天性拇指尺偏畸形——区别诊治 Delta 三节拇指和指骨骨骺畸形

沈恺颖 韩炳强 徐蕴岚

上海交通大学医学院附属上海儿童医学中心骨科 200127

通信作者:徐蕴岚,Email:xu.yunlan@hotmail.com

【摘要】 目的 探讨两种类型先天性拇指远节尺偏畸形,即 Delta 三节拇指和远节指骨骨骺畸形的临床、病理、影像学特点及手术策略,并评价中期疗效。**方法** 自 2011 年 1 月至 2017 年 6 月,我们共收治 28 例 43 拇先天性拇指尺偏畸形患儿,根据 X 线片表现分为两类:Delta 三节拇指和远节指骨骨骺畸形。两种病理解剖类型经 MRI 和术中探查进一步确认。三节拇指通过切除 Delta 指骨、紧缩桡侧副韧带和克氏针固定治疗,骨骺畸形则对三角形或楔形骨骺行骨骺内截骨和克氏针固定。**结果** 术后随访时间为 25~91 个月,平均 47 个月,23 拇(53.5%)为 Delta 三节拇指,手术年龄平均 16 个月,指间关节尺偏角度从 $(40.3 \pm 9.7)^{\circ}$ 下降到 $(2.3 \pm 5.1)^{\circ}$ ($P = 0.008$);20 拇(46.5%)为远节指骨骨骺畸形,手术年龄平均 33 个月,尺偏角度从 $(33.4 \pm 9.6)^{\circ}$ 下降到 $(5.4 \pm 8.5)^{\circ}$ ($P = 0.019$)。日本手外科协会(Japanese Society for Surgery of the Hand,JSSH)评分:优 29 拇,良 13 拇,中 1 拇。**结论** Delta 三节拇指和指骨骨骺畸形是先天性拇指尺偏畸形的两种病理解剖类型,分别行 Delta 指骨切除或骨骺内截骨术,能显著矫正拇指尺偏,术后关节稳定,功能良好。为避免畸形骨骺被当作多余指骨误切而导致生长紊乱,须明确骨骺畸形不属于三节拇指,婴幼儿分型不明时应推迟手术直至明确分型。

【关键词】 外科手术; 治疗结果; 拇指尺偏; Delta 三节拇指; 骨骺畸形

基金项目:上海市自然科学基金(18ZR1424600)

DOI:10.3760/cma.j.cn311653-20200304-00095

Congenital ulnar deviation of thumb—different diagnosis and treatment of Delta triphalangeal thumbs and phalangeal epiphyseal deformity

Shen Kaiying, Han Bingqiang, Xu Yunlan

Department of Orthopedics, Shanghai Children's Medical Center, School of Medicine, Shanghai Jiaotong University, Shanghai 200127, China

Corresponding author: Xu Yunlan, Email: xu.yunlan@hotmail.com

【Abstract】 Objective To investigate the clinical, pathological, imaging features and surgical strategies of two types of congenital ulnar deviation of distal thumb, namely Delta triphalangeal thumbs and phalangeal epiphyseal deformity, and evaluate the mid-term clinical efficacy. **Methods** From January 2011 to June 2017, 28 cases (43 thumbs) of congenital ulnar deviation of thumb were treated in our hospital. According to the X-ray findings, they were divided into two types: Delta triphalangeal thumbs and phalangeal epiphyseal deformity. The two pathoanatomical types were further confirmed by MRI and intraoperative exploration. The three-phalangeal thumb were treated by Delta phalangectomy, radial collateral ligament constriction and Kirschner wire fixation. For phalangeal epiphyseal deformity, the triangular or wedge-shaped epiphysis was osteotomy and Kirschner wire fixation. **Results** The follow-up period ranged from 25 to 91 months with an average of 47 months. 23 thumbs (53.5%) were Delta triphalangeal thumbs. The average age of operation was 16 months. The ulnar deviation angle of interphalangeal joint decreased from $(40.3 \pm 9.7)^{\circ}$ to $(2.3 \pm 5.1)^{\circ}$ ($P = 0.008$). 20 thumbs (46.5%) were distal phalangeal epiphyseal deformity. The average operative age was 33 months. The ulnar deviation angle decreased from $(33.4 \pm 9.6)^{\circ}$ to $(5.4 \pm 8.5)^{\circ}$ ($P = 0.019$). All the cases were evaluated by Japanese Society for Surgery of the Hand (JSSH) scoring system, and the results were excellent in 29 thumbs, good in 13 thumbs, and fair in 1 thumb. **Conclusion** Delta triphalangeal thumbs and phalangeal epiphyseal deformity are two kinds of pathoanatomical types of congenital thumb ulnar deviation. Delta phalangectomy or epiphyseal osteotomy respectively can significantly correct ulnar deviation of thumb, with stable joint and good function after operation. In order to avoid the abnormal epiphysis being treated as redundant phalanges and causing growth disorder, it is necessary to make sure that the deformity of epiphysis does not belong to three-phalangeal thumb. When the classification of young children is not clear, the operation should be postponed until the classification is clear.

【Key words】 Surgical procedures, operative; Treatment outcome; Ulnar deviation of thumb; Delta triphalangeal thumbs; Epiphyseal deformity

Fund program: Shanghai Natural Science Foundation (18ZR1424600)
DOI:10.3760/cma.j.cn311653-20200304-00095

先天性拇指远节尺偏畸形发病率并不高,以往通常被归为先天性三节拇指畸形中的 I 型,即 Delta 三节拇指^[1-2]:发育不良的中节指骨,呈三角形或类圆形嵌插于远、近节指骨之间的桡侧,造成拇指远节尺偏成角。另有学者认为部分尺偏拇并不存在中节指骨^[3-4],其尺偏的原因是拇指远节指骨骨骺畸形,呈不规则的三角型或楔形。上述两种病理解剖导致拇指尺偏,而临床表型无法区分,甚至早期(远节指骨骨骺出现之前)的 X 线片表现也难以区分。针对不同的病理解剖类型,应采用不同的治疗策略:手术切除多余的 Delta 指骨来纠正拇指尺偏;对骨骼发育未成熟的患儿,异常骨骺显然不能通过简单的手术切除来治疗,既要尽可能恢复骨骺的正常形态,又要避免医源性骨骺生长紊乱,并保护指间关节功能,在纠正拇指尺偏的基础上减少各种并发症发生。

本研究回顾性收集了 2011 年 1 月至 2017 年 6 月我们收治的先天性拇指尺偏患儿 28 例 43 拇,通过影像学检查和术中探查证实 Delta 三节拇指和指骨骨骺畸形是先天性拇指尺偏的两种不同病理解剖类型,并分类施治,术后取得较好的中期疗效。

资料与方法

一、一般资料

本组 28 例 43 拇,男 10 例,女 18 例;初诊年龄 1~31 个月,平均 12 个月。左侧 4 例,右侧 9 例,双侧 15 例。其中 17 例 25 拇合并同侧复拇畸形, Wassel II 型 2 拇、IV 型 22 拇、V 型 1 拇;其中 3 例合并先天性心脏病,5 例有拇指尺偏家族史。根据 X 线表现分为两种类型:Delta 三节拇指和骨骺畸形拇指。部分低龄婴幼儿指骨骨骺尚未出现,仅根据初诊 X 线片分类困难,门诊观察随访,每 6 个月复查 X 线片,直到骨化中心出现再分类和治疗。两种病理解剖类型经 MRI 和术中探查进一步确认。

二、手术方法

Delta 三节拇指手术年龄为 6 月龄以上,骨骺畸形手术年龄为 30 月龄以上。合并复拇的 25 拇中,6 拇初诊确认为 Delta 三节拇合并复拇,一期复拇切除,Delta 指骨切除,拇指尺偏矫治;余 19 拇为骨骺畸形或早期无法分型,一期手术切除多指,二期矫治拇指尺偏。

Delta 三节拇指手术:取拇指指间关节桡侧横梭形切口,切开皮肤及皮下组织,C 臂机透视定位

Delta 指骨,从远及近剥离桡侧副韧带骨膜瓣。探查 Delta 指骨远、近都存在关节间隙,再次确认是 Delta 三节拇指。切除 Delta 指骨,矫正成角,采用直径 1.0~1.2 mm 克氏针逆行固定远、近节指骨,侧副韧带紧缩加固,缝合皮肤。

骨骺畸形手术:取拇指指间关节桡侧 1.2 cm 纵行切口,同样透视定位,剥离桡侧副韧带骨膜瓣。探查骨骺近侧为关节间隙,远侧为骺板软骨,再次确认为骨骺畸形。平行于关节面软骨和骺板软骨双平面截骨,注意近、远处都保留薄层骨松质以利于截骨愈合,取出双层截骨面之间的骨质,凸侧压缩闭合矫正成角,取直径 1.2 mm 克氏针逆行固定,侧副韧带紧缩加固,缝合皮肤。

术后长臂拇人字石膏固定,Delta 三节拇指固定 3 周,骨骺畸形固定 5~6 周,克氏针拔除后用拇指托保护 2 周,并配合康复训练。

三、评价方法

评价指标:(1)关节稳定性,通过关节侧方应力试验来确定;(2)测量并比较术前、术后指间关节活动度。年龄小于 30 月龄,测量被动关节活动范围,余测量主动关节活动范围;(3)术前、术后摄拇指正侧位 X 线片,测量指间关节力线;(4)按术前 X 线片对拇指尺偏进行分类,其中 9 拇术前行 MRI 检查;(5)询问并记录家长对重建拇指外观与功能的主观评价。最终随访结果用日本手外科协会(Japanese Society for Surgery of the Hand,JSSH)评分进行评估^[5]。

结 果

术后随访时间为 25~91 个月,平均 47 个月,其中 23 拇(53.5%)为 Delta 三节拇指,20 拇(46.5%)为骨骺畸形。10 拇初诊平均年龄 8 个月,无法分类,随访至平均 24 月龄,7 拇被确认为 Delta 三节拇指,3 拇为骨骺畸形。15 例双侧拇指尺偏畸形患儿中,7 例双侧类型不同。骨骺畸形的 20 拇中,19 拇术后 6 周截骨均愈合,1 例术后 2 年截骨未愈合。

术后拇指尺偏较术前显著改善,关节稳定,日常活动无受限,无疼痛和感觉异常。Delta 三节拇指患儿手术年龄平均 16 个月,指间关节尺偏角度从 $(40.3 \pm 9.7)^{\circ}$ 下降到 $(2.3 \pm 5.1)^{\circ}$ ($P=0.008$);骨骺畸形患儿手术年龄平均 33 个月,尺偏角度从 $(33.4 \pm 9.6)^{\circ}$ 下降到 $(5.4 \pm 8.5)^{\circ}$ ($P=0.019$)。JSSH 评分:优 29 拇,良 13 拇,中 1 拇。

患拇指间关节功能,屈曲较术前差异无统计学意义,背伸较术前显著好转:Delta 三节拇指患儿屈曲术前(53.4 ± 18.8)°,最后随访时(43.1 ± 12.7)°($P = 0.054$);背伸术前(16.2 ± 7.1)°,随访时(5.4 ± 4.0)°($P = 0.026$)。骨骺畸形组患儿屈曲术前(47.9 ± 16.3)°,随访时(43.2 ± 15.8)°($P = 0.078$);背伸术前(13.5 ± 4.4)°,随访时(2.9 ± 5.1)°($P = 0.018$)。

并发症 3 例:1 例 Delta 三节拇指力线过度矫

正,指间关节桡偏成角 12°,暂无进一步手术指征,定期随访中;1 例骨骺畸形术前成角 47°,术后 6°,术后 4 年尺偏成角 23°,接受翻修手术再次行骨骺内截骨;1 例骨骺内截骨术后 2 年仍骨不连,暂无临床症状,定期随访中。另有 1 例 30 月龄接受骨骺内截骨术女性患儿,随访至 9 岁 3 个月(术后 81 个月),出现远节指骨骨骺早闭倾向,拇指长度、力线与健侧无明显差异,进一步随访中。典型病例(图 1~2)。

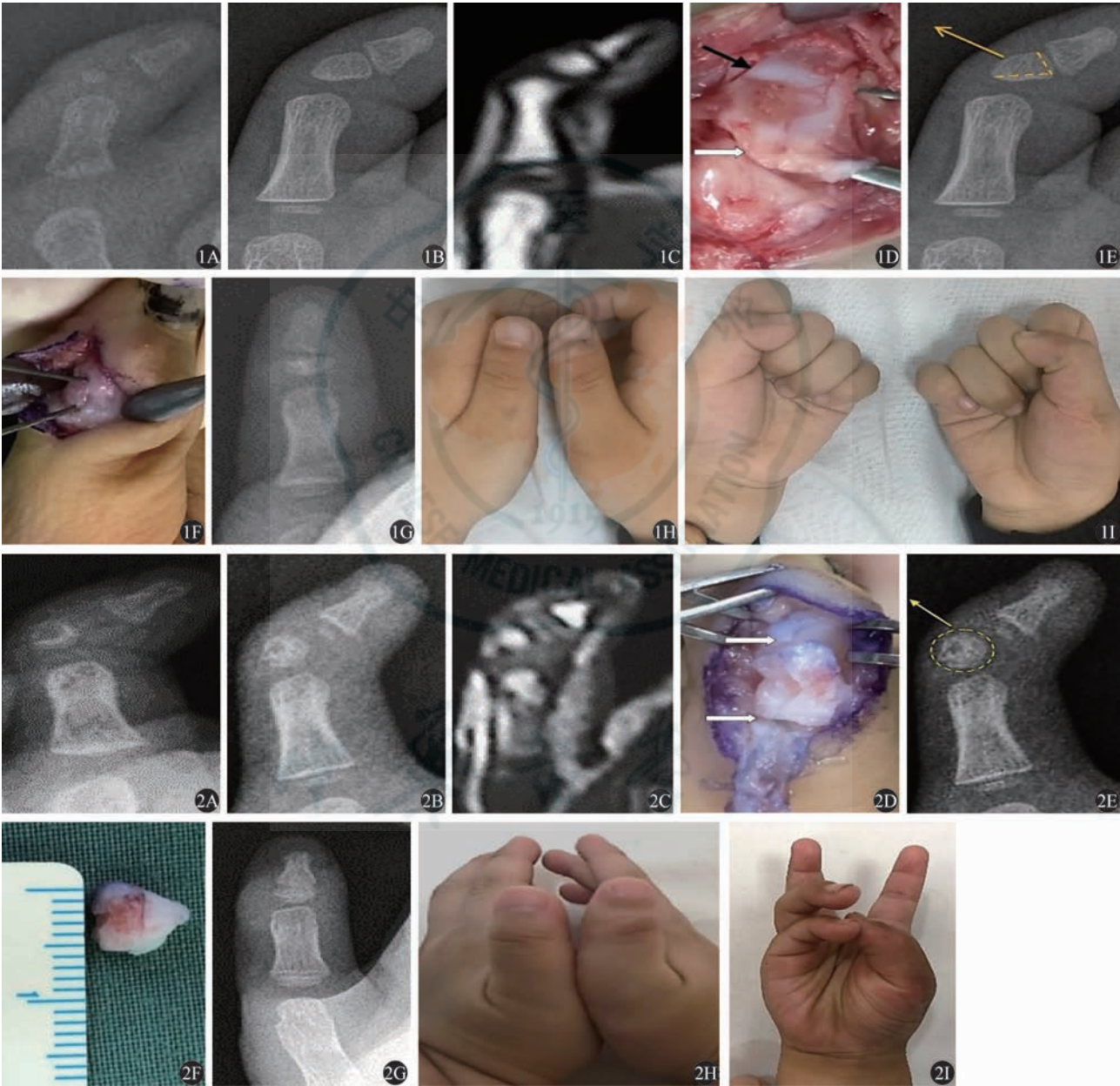


图 1 典型病例 1,女,右拇尺偏远节指骨骨骺畸形,合并复拇 A 8 月龄 X 线片,远节指骨骨化中心未出现,难以确定病理解剖类型 B 27 月龄 X 线片可确定为远节指骨骨骺畸形 C 骨骺畸形 MRI 表现 D 术中显示畸形的骨骺,黑色箭头为骺板软骨,白色箭头为关节间隙 E 双平面截骨 X 线片示意图 F 双平面截骨术中 G 术后 12 个月患拇 X 线片 H,I 术后 42 个月双拇外观与功能 **图 2** 典型病例 2,男,右拇尺偏 Delta 三节拇指,合并复拇 A 9 月龄 X 线片,远节指骨骨化中心未出现,难以确定病理解剖类型 B 24 月龄 X 线片可确定为 Delta 三节拇畸形 C Delta 指骨 MRI 表现 D 术中显示 Delta 指骨,白色箭头显示 Delta 指骨两端均为关节间隙 E Delta 指骨切除 X 线片示意图 F 切除的 Delta 指骨 G 术后 24 个月 X 线片 H,L 术后 30 个月双拇外观及功能

讨 论

1994 年 Ogino 等^[3]将具有对掌功能的三节拇指分为 3 种类型,并提出在 IB 型中,位于远近节指骨之间的三角形小骨像是远节指骨的次级骨化中心,但未通过 X 线片以外的其他证据证实。我们也认为有些病例的远节指骨存在形态不规则次级骨化中心,这是先天性拇指尺偏病理解剖之一,通过 X 线片、MRI 及术中探查在本组骨骺畸形病例中得到证实:畸形的骨骺是远节指骨的一部分,并不是多余的第三节指骨,因此远节指骨骨骺畸形不是三节拇指。

本组中 10 拇初诊平均年龄为 8 个月,根据 X 线片无法分类,仅显示三角形或类圆形小骨位于远近节指骨之间,类似 Ogino I A 和 I B 型^[3],无法确认是三节拇指还是骨骺畸形。随访至平均 24 月龄,待远节指骨骨骺出现,7 拇被确认为 Delta 三节拇指,3 拇为骨骺畸形。因此我们推测 Ogino I A 型和 III 型为同一类型,即三节拇指型, I A 型为远节指骨骨化中心尚未萌出的早期;而 I B 型与 II 型都为骨骺畸形型, I B 型为不规则骨骺近端部分萌出,远侧半未萌出的早期阶段。先天性拇指尺偏有两种病理解剖:Delta 三节拇指和远节指骨骨骺畸形。

儿童拇指远节指骨骨骺萌出时间,男孩为(20.6±6.8)个月,女孩为(13.2±5.5)个月^[6]。本组患儿平均 24 月龄骨骺出现,男孩骨骺发育相对较迟,可观察到 30 月龄。

拇指尺偏畸形分类与手术策略密切相关,手术切除 Delta 指骨可以纠正拇指尺偏^[7],对婴幼儿来说,骨骺和骺板决定指骨的生长发育,显然不能通过简单切除整个畸形的骨骺来纠正拇指力线。Ogino 等^[3]和 Horii 等^[8]通过切除畸形骨骺近侧半来纠正成角,但发现很难确定切除的界线,同时也存在术后畸形复发的情况。如果单纯切除近侧半的畸形骨骺,势必连同切除了部分关节软骨面,有影响指间关节功能的风险;而采取在三角形、楔形骨骺内部双平面截骨的手术方式,同时保留了骺板软骨和关节面软骨,然后凸侧压缩矫形内固定。手术保留了骺板和关节面软骨两个“功能层”,避免潜在医源性损伤。理论上双平面截骨有骨不连的风险,本组 20 拇双平面截骨中有一早期病例发生术后骨不连,考虑以后可以通过截骨时两端保留薄层松质骨来促进截骨愈合。另外本组有 1 例骨骺畸形截骨术后部分复发,翻修再次骨骺内截骨,最终获得愈合。

先天性拇指尺偏发病率低,既往文献报告大多

为个案或病例数较少^[9-10],缺乏对治疗结果的系列总结。本文回顾性分析了 28 例 43 拇拇指尺偏畸形,明确病理解剖分类,并报告了手术的中期随访结果。本文的不足之处:(1)理论上 Delta 指骨早期切除更利于指间关节匹配塑形和功能恢复,在早期 X 线片分型不明时 MRI 检查可以提早确定分类,指导手术,但儿童手指 MRI 检查,由于结构细小,婴幼儿又欠配合,图像不够清晰,仍存在提高空间;(2)超半数病例合并同侧复拇,并手术治疗,最终疗效评估存在混杂偏倚;(3)无论是 Delta 指骨切除还是骨骺内截骨,都是贴近关节和骨骺的手术,而且都用克氏针贯穿固定,有必要随访至青春末期,待骨骺闭合进一步评估。

利益冲突 所有作者均声明不存在利益冲突

参 考 文 献

[1] Swanson AB, Brown KS. Hereditary triphalangeal thumb [J]. J Hered, 1962, 53 (6): 259-265. DOI: 10. 1093/oxfordjournals. jhered. a107190.

[2] Wood VE. Treatment of the triphalangeal thumb [J]. Clin Orthop Relat Res, 1976, (120): 188-200.

[3] Ogino T, Ishii S, Kato H. Opposable triphalangeal thumb: clinical features and results of treatment [J]. J Hand Surg Am, 1994, 19 (1): 39-47. DOI: 10. 1016/0363-5023(94)90222-4.

[4] Baek GH, Chung MS, Gong HS, et al. Abnormal triangular epiphysis causing angular deformity of the thumb [J]. J Hand Surg Am, 2006, 31 (4): 544-548. DOI: 10. 1016/j. jhsa. 2005. 12. 023.

[5] Congenital Hand Committee, Japanese Society for Surgery of the Hand. Evaluation sheet for polydactyly of the thumb [J]. J Jpn Soc Surg Hand, 2007, 24: 422.

[6] Stuart HC, Pyle SI, Cornoni J, et al. Onsets, completions and spans of ossification in the 29 bonegrowth centers of the hand and wrist [J]. Pediatrics, 1962, 29: 237-249.

[7] Zuidam JM, Selles RW, de Kraker M, et al. Outcome of two types of surgical correction of the extra phalanx in triphalangeal thumb: is there a difference? [J]. J Hand Surg Eur Vol, 2016, 41 (3): 253-257.

[8] Horii E, Nakamura R, Makino H. Triphalangeal thumb without associated abnormalities: clinical characteristics and surgical outcomes [J]. Plast Reconstr Surg, 2001, 108 (4): 902-907. DOI: 10. 1097/00006534-200109150-00013.

[9] 柯尊山, 芮永军, 寿奎水, 等. 家族性三节指骨拇并复拇畸形一例 [J]. 中华手外科杂志, 2007, 23 (5): 275. DOI: 10. 3760/cma. j. issn. 1005-054X. 2007. 05. 009.

[10] 薛明强, 沙轲, 白鹤, 等. 切口改良的截骨术治疗三节指骨拇指畸形一例 [J]. 中华手外科杂志, 2012, 28 (3): 191. DOI: 10. 3760/cma. j. issn. 1005-054X. 2012. 03. 028.

(收稿日期: 2020-03-04)

(本文编辑: 江烨)