

ВРОЖДЕННАЯ КОНТРАКТУРА ПОДВЗДОШНО-БОЛЬШЕБЕРЦОВОГО ТРАКТА: СЛУЧАЙ ИЗ ПРАКТИКИ

© Ю.Е. Гаркавенко^{1, 2}, И.Н. Красногорский¹, Б.Х. Долгиев¹

¹ ФГБУ «НИДОИ им. Г.И. Турнера» Минздрава России, Санкт-Петербург;

² ФГБОУ ВО «СЗГМУ им. И.И. Мечникова» Минздрава России, Санкт-Петербург

Статья поступила в редакцию: 12.12.2017

Статья принята к печати: 14.05.2018

Введение. Врожденная контрактура подвздошно-большеберцового тракта — достаточно редкая патология, вызывающая трудности диагностики и планирования лечебных мероприятий. Отсутствие четкого представления о причинах заболевания вызывает разногласия в трактовке диагноза у пациентов с данной патологией. В русскоязычной литературе это заболевание обозначается как идиопатическая разгибательно-отводящая контрактура тазобедренного сустава или идиопатическая контрактура большой ягодичной мышцы, врожденная контрактура сухожилий больших ягодичных мышц. В англоязычной литературе чаще говорится о врожденной или идиопатической контрактуре больших ягодичных мышц.

Клиническое наблюдение. Представлен результат лечения ребенка 6 лет с врожденной контрактурой подвздошно-большеберцового тракта. На хромоту было обращено внимание с началом его ходьбы, но правильный диагноз не был установлен. В клинической картине, наряду с ограничением приведения и разгибания в тазобедренном суставе, уплотнением мягких тканей по наружной поверхности правого бедра в виде лампаса, имелись перекос таза, укорочение правой нижней конечности и вальгусная деформация диафиза правой бедренной кости. Ультрасонография и магнитно-резонансная томография показали наличие фиброзного тяжа по наружной поверхности правого бедра. Фиброзный тяж иссечен на протяжении 15 см, выполнен временный гемиепифизеодез медиальной порции дистальной зоны роста правой бедренной кости.

Результаты и обсуждение. При контрольном обследовании через 1 год пациент жалоб не предъявлял. Рецидива контрактуры не отмечено. По данным рентгенологического исследования достигнута коррекция вальгусной деформации правой бедренной кости, металлические конструкции из которой удалены. Несмотря на чаще встречающуюся разгибательно-отводящую направленность контрактуры подвздошно-большеберцового тракта, на что указывают большинство авторов, направленность и выраженность ее, по-видимому, может зависеть от преобладающей зоны фиброзного перерождения мышечных групп. И при преобладающем поражении большой ягодичной мышцы можно ожидать более выраженный разгибательный компонент, в то время как при преобладающем поражении мышцы, напрягающей широкую фасцию бедра, — сгибательный. Что мы и наблюдали у нашего пациента.

Ключевые слова: дети; врожденный; контрактура; подвздошно-большеберцовый тракт.

CONGENITAL CONTRACTURE OF THE ILIOTIBIAL TRACT: A CASE REPORT

© Yu.E. Garkavenko^{1, 2}, I.N. Krasnogorskiy¹, B.H. Dolgiev¹

¹ The Turner Scientific Research Institute for Children's Orthopedics, Saint Petersburg, Russia;

² North-Western State Medical University n.a. I.I. Mechnikov, Saint Petersburg, Russia

For citation: Pediatric Traumatology, Orthopaedics and Reconstructive Surgery. 2018;6(2):79-85

Received: 12.12.2017

Accepted: 14.05.2018

Introduction. Congenital contracture of the iliotibial tract is a rather rare pathology that causes difficulties in diagnosing and planning treatment activities. The lack of a clear idea of the causes of the disease has led to disagreement in the interpretation of the diagnosis in patients with this pathology. In the Russian-language literature, this disease is referred to as idiopathic extension and abduction contracture of a hip joint or idiopathic contracture of the dorsal gluteal muscle (a congenital contracture of the tendons of the dorsal gluteal muscles), whereas the English-language literature more often highlights congenital or idiopathic contracture of the dorsal gluteal muscles.

Clinical case. The results of treatment of a 6-year-old child with congenital contracture of the iliotibial tract is presented. The child exhibited lameness when walking first started, but the correct diagnosis was not established. Clinically, along with the limitation of adduction and extension in the hip joint and an induration of the soft tissue along the external surface of the right thigh, the pelvis was skewed, and there was shortening of the right lower limb and a valgus deformity of diaphysis of the right femoral bone. Ultrasonographic and magnetic resonance imaging indicated the presence of a fibrous bridle over the outer surface of the right thigh. The fibrous bridle was excised for 15 cm, and a temporary hemiepiphysiodesis of the medial portion of the distal growth zone of the right femur was performed.

Results and discussion. At the 1-year control examination, the patient did not present any complaints. There was no relapse of the contracture. According to X-ray study results, correction of the valgus deformity of the right femur was achieved, and the metal structures were removed. Despite the more frequent extension and abduction direction of the contracture of the iliotibial tract indicated by most authors, the direction and severity apparently may depend on the predominant zone of fibrous degeneration of the muscle groups. Additionally, with the predominant lesion of the dorsal gluteal muscle, a more pronounced extension component can be expected, whereas with the predominant lesion of the musculus tensor fasciae latae, a flexion component can be expected and was observed in our patient.

Keywords: children; congenital; contracture; iliotibial tract.

Введение

Врожденная контрактура подвздошно-большеберцового тракта — достаточно редкая патология, вызывающая трудности диагностики и планирования лечебных мероприятий [1]. Отсутствие четкого представления о причинах заболевания вызывает разногласия в трактовке диагноза у пациентов с данной патологией. В русскоязычной литературе это заболевание обозначается как идиопатическая разгибательно-отводящая контрактура тазобедренного сустава или идиопатическая контрактура большой ягодичной мышцы [1, 2], врожденная контрактура сухожилий больших ягодичных мышц [3]. В англоязычной литературе чаще встречается термин «врожденная или идиопатическая контрактура больших ягодичных мышц» (gluteal muscle contracture, GMC) [4–7].

Клиническое наблюдение

Мальчик, 6 лет, обратился за помощью с жалобами на хромоту и перекос таза. Нарушение походки ребенка родители заметили с началом его ходьбы, поэтому он был обследован амбулаторно по месту жительства с подозрением на врожденную аномалию развития позвоночника. Предполагаемая патология не подтвердилась, и какого-либо лечения ребенок не получал. По мере роста нарушение походки прогрессировало.

Родители пациента дали согласие на обработку персональных данных и их публикацию.

При осмотре: хромота на правую нижнюю конечность, сгибая, отводя и ротируя ее наружи. Стоит с перекосом таза вправо и наклоном его вперед (рис. 1). Правая нижняя конечность укорочена на 1 см. Правое бедро несколько уве-

личено в объеме, при пальпации безболезненно. При осмотре обращает на себя внимание некоторое уплотнение мягких тканей правого бедра по наружной поверхности в виде лампаса. При правильной укладке ребенка его правая нижняя конечность остается в положении отведения, сгибания и наружной ротации. Движения в тазобедренных, коленных и голеностопных суставах безболезненные, свободные с ограничением движений в правом тазобедренном суставе предположительно за счет мягкотканного компонента (фиброзных тяжей).

Результаты рентгенографического исследования, проведенного на аппарате Digital Diagnost v.2, и данные спиральной компьютерной томографии (КТ), выполненной на аппарате Brilliance CT компании Philips, свидетельствовали об изменениях в виде перекоса таза, отведении правой нижней конечности и деформации диафиза правой бедренной кости, что косвенно указывало на наличие фиброзных тяжей в мягких тканях правого бедра (рис. 2).

Ультразвуковое исследование (УЗИ) тазобедренных суставов, выполненное на аппарате GE LOGIQ-7, показало, что по латеральной поверхности правого бедра в структуре мышечной ткани лоцируется гиперэхогенный тяж толщиной в верхней трети бедра 5,9 мм, средней — 4,3 мм (рис. 3).

Данные магнитно-резонансной томографии (МРТ), получены на МР-томографе Philips Panorama с индукцией магнитного поля 1,0 Тл. При этом наиболее четко визуализация фиброзного тяжа в мягких тканях правого бедра определялась на T1 взвешенных изображениях (T1ВИ) в коронарной, сагиттальной и аксиальной плоскостях (рис. 4).



Рис. 1. Фотографии больного Д., 6 лет: *а* — порочное положение правой нижней конечности и перекося таза в положении стоя; *б* — положение таза нормализуется при отведении бедер; *в* — уплотнение мягких тканей по наружной поверхности правого бедра (указано стрелкой)

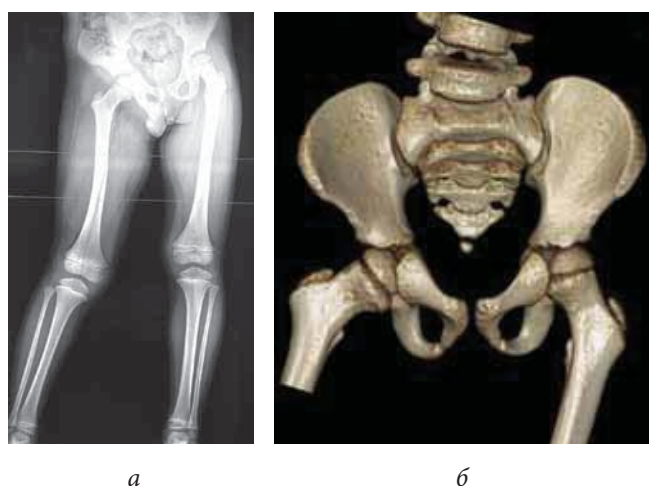


Рис. 2. Рентгенограмма нижних конечностей в положении стоя (*а*) и КТ тазобедренных суставов (*б*) больного Д., 6 лет, до оперативного лечения

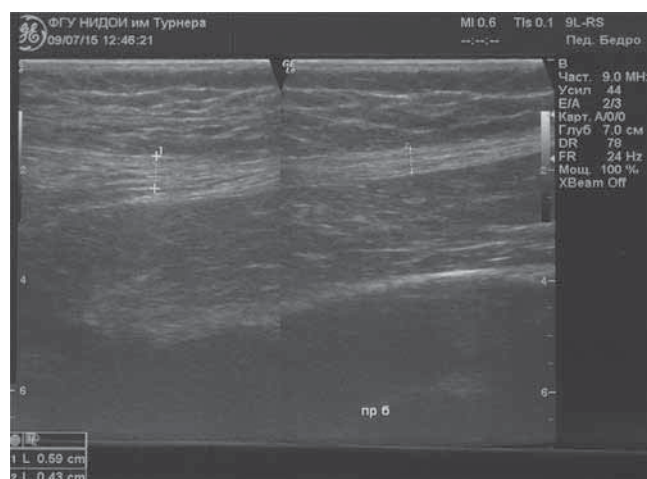


Рис. 3. Фиброзный тяж в мягких тканях правого бедра

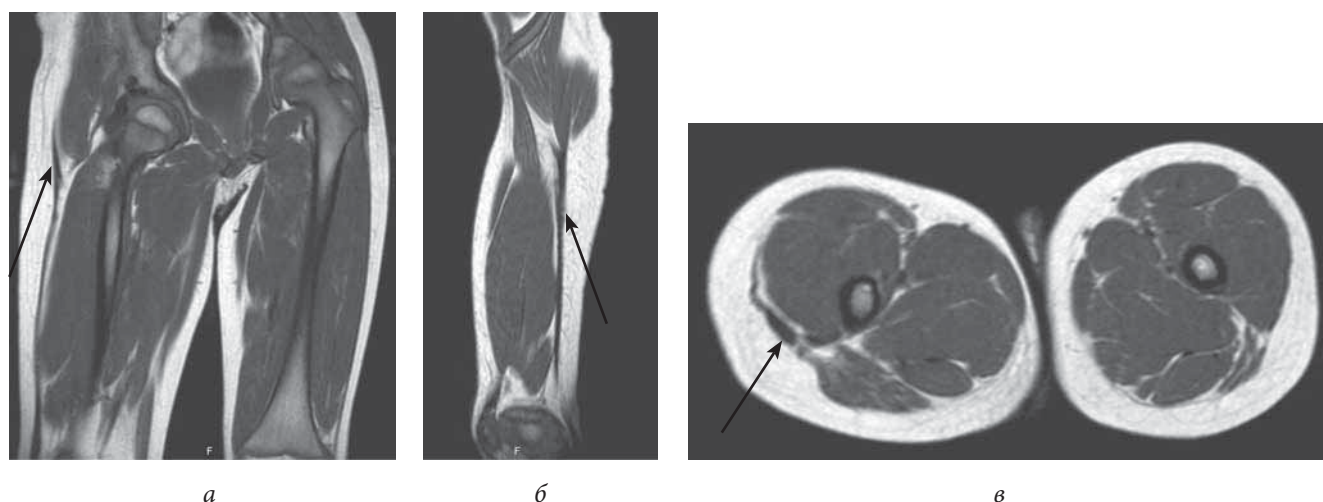


Рис. 4. Компьютерные срезы в коронарной (*а*), сагитальной (*б*) и аксиальной (*в*) плоскостях, где стрелками указаны утолщенные фиброзные структуры в мягких тканях правого бедра

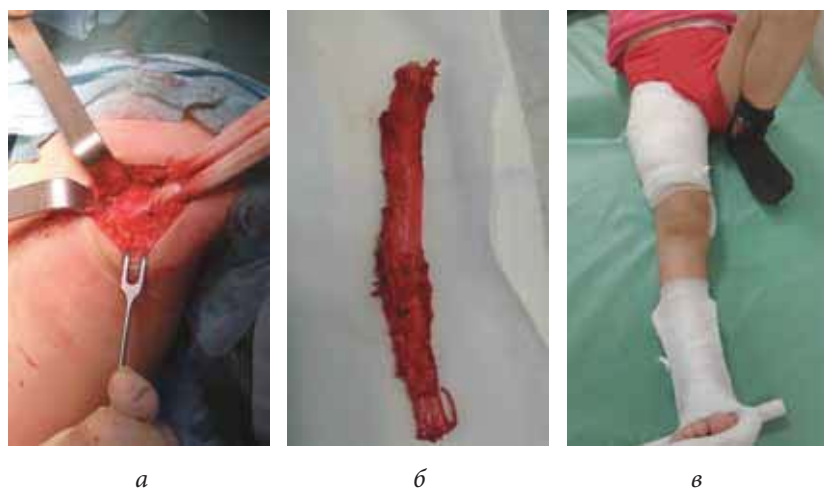


Рис. 5. Фиброзный тяж (взят на марлевую держалку) (а); иссеченный участок фиброзного тяжа (б); послеоперационная фиксация правой нижней конечности (в)

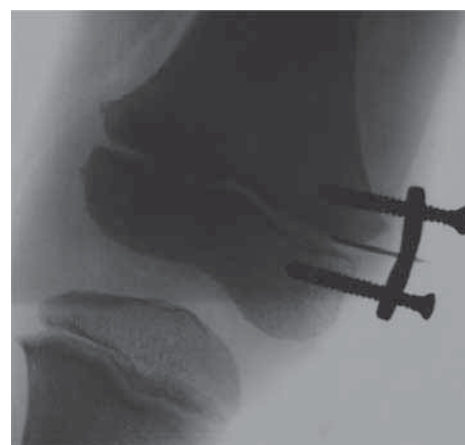


Рис. 6. Рентгенограмма правого коленного сустава на этапе блокирования медиальной порции дистальной зоны роста бедренной кости восьмиобразной пластиной

Оперативное вмешательство проведено под общим обезболиванием. Линейный разрез кожи и подкожной клетчатки длиной 15 см выполнен по наружной поверхности правого бедра в верхней и средней трети. Выделен фиброзный тяж шириной до 1,5 см, спаянный с подвздошно-большеберцовым трактом и окружающими мягкими тканями множественными рубцовыми тяжами. Тяж выделен из окружающих мягких тканей. При приведении правого бедра он натягивается, ограничивая амплитуду движений в правом тазобедренном суставе. Тяж иссечен на протяжении до 15 см (рис. 5). Рана дренирована и послойно ушита. Дополнительно из доступа длиной 4 см по передненаружной поверхности проксимального отдела правого бедра выполнена тенотомия субспинальных мышц и пересечены фиброзные тяжи, ограничивающие отведение в правом тазобедренном суставе. Рана дренирована и послойно ушита. Под контролем электронного оптического преобразователя определен уровень расположения дистальной зоны роста правой бедренной кости. Из медиального доступа длиной 2 см выделена дистальная метаэпифизарная зона роста правой бедренной кости и заблокирована 8-образной пластиной с двумя винтами, введенными в метаэпифизарный и эпифизарный отделы кости (рис. 6). Рана послойно ушита. Правая нижняя конечность фиксирована деротационной гипсовой лонгетой. Послеоперационный период протекал без осложнений. Раны зажили первичным натяжением. Ребенок был выписан из стационара в удовлетворительном состоянии.

Морфологическое исследование. Иссеченный участок тяжа (12,5 × 1,8 × 1,0 см) был представлен в основном равномерно окрашенной белесоватой тканью. После первичной фиксации

его в 10 % растворе нейтрального формалина были вырезаны несколько блоков, из которых после проведения в батарее из 10 смен изопропилового спирта и заливки в парафин при помощи ротационного микротомы (Thermo Scientific, Microm HM 340 E) изготовлены срезы толщиной 4 мкм. Депарафинированные ксилолом гистологические срезы окрашивали гематоксилином и эозином и по методу Ван Гизона.

Гистологические препараты исследовали при помощи светового микроскопа AXIO Scope. A1, ZEISS, в том числе с использованием поляризованного света. В препаратах были представлены срезы фрагментов плотной фиброзной ткани, по строению в большей степени напоминающей ткань сухожилия, слабо васкуляризованного и местами частично разволокненного. Пучки коллагеновых волокон разной толщины располагались параллельно и были ориентированы преимущественно в одном направлении (рис. 7).

В ткани фиброзного тяжа имелось относительно небольшое количество несколько неравномерно распределенных соединительнотканых клеток (фиibroцитов).

В некоторых местах на поверхности тяжа располагались «остатки» тонкой фиброзной «оболочки» с изредка встречающимися единичными мелкими ячейками дифференцированной жировой клетчатки, которая, наряду с одиночными липоцитами, в отдельных полях зрения обнаруживалась и в самой ткани фиброзного тяжа (рис. 8).

Некоторая неоднородность его строения была отмечена вблизи частично разволокненных участков: между параллельно ориентированными пучками относительно толстых коллагеновых волокон отмечалось «вклинение» нешироких пластов несколько более васкуляризированной фиброз-

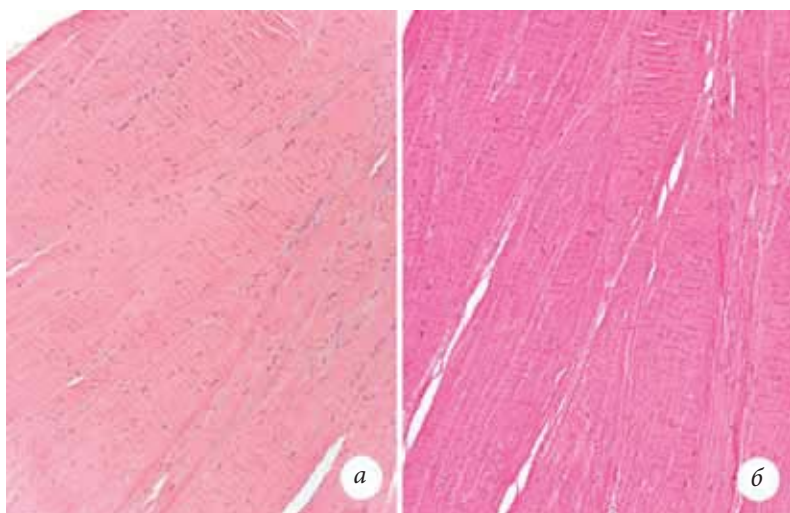


Рис. 7. Продольные срезы одного из участков слабо васкуляризованного фиброзного тяжа: располагающиеся в одном направлении пучки коллагеновых волокон с относительно небольшим количеством несколько неравномерно распределенных фиброцитов (*a* — окраска гематоксилином и эозином; *б* — окраска по Ван Гизону; увеличение $\times 300$)

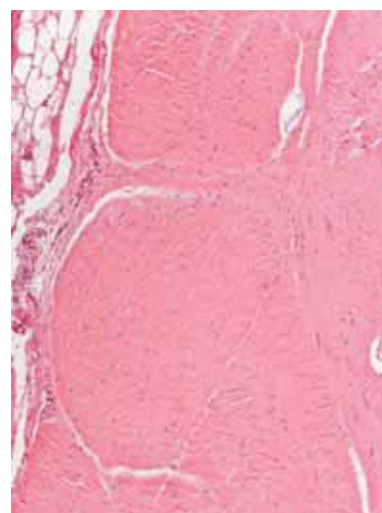


Рис. 8. Тангенциальный срез одного из участков фиброзного тяжа с хорошо различимыми пучками коллагеновых волокон и относительно небольшим количеством фиброцитов. По краю тяжа видна часть тонкой фиброзной «оболочки» с фрагментом ячейки дифференцированной жировой клетчатки (окраска гематоксилином и эозином; увеличение $\times 300$)

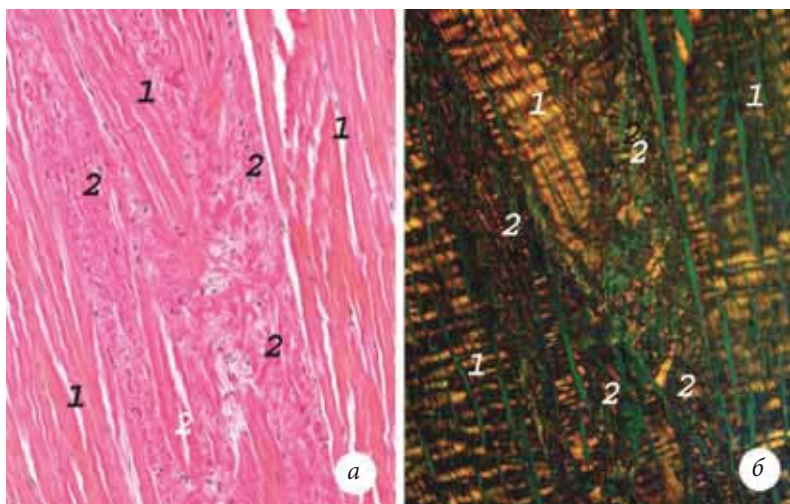


Рис. 9. Продольный срез одного из участков фиброзного тяжа: *a* — между располагающимися в одном направлении пучками относительно толстых коллагеновых волокон (1) «вклинивается» пласт соединительной ткани, представленный более тонкими хаотично ориентированными коллагеновыми волокнами (2) (окраска по Ван Гизону; увеличение $\times 600$); *б* — исследование в поляризованном свете того же участка (окраска по Ван Гизону + поляризованный свет; увеличение $\times 600$)

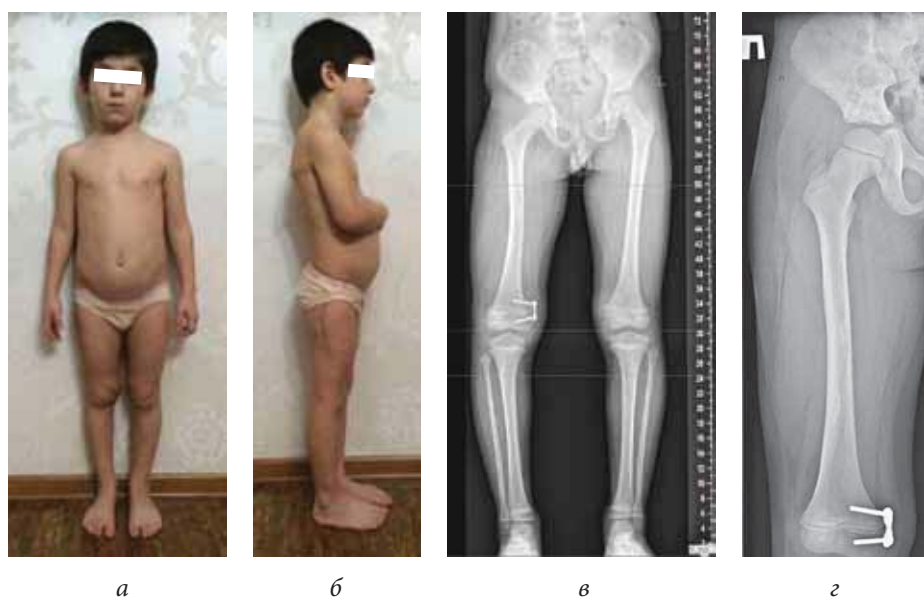


Рис. 10. Фотографии больного Д. через 1 год после оперативного лечения (*a*, *б*) и рентгенограммы нижних конечностей и правого бедра перед удалением металлоконструкций (*в*, *г*)

ной ткани, сформированной тонкими, хаотично ориентированными коллагеновыми волокнами (рис. 9).

Признаки опухолевого роста (доброкачественного или злокачественного), а также воспалительные изменения в исследованном материале не наблюдались.

Результат и обсуждение

При контрольном обследовании через 1 год пациент жалоб не предъявляет. Рецидива контрактуры нет. По данным рентгенологического исследования достигнута коррекция вальгусной деформации правой бедренной кости, металлические конструкции из которой удалены (рис. 10).

Несмотря на малое количество публикаций в отечественной научной печати [1], диагностика и клиника данной и схожей с ней патологии достаточно подробно описана в зарубежной литературе [4–7]. По свидетельству ряда авторов [4, 7], она встречается в США, Франции, Италии, Польше, Испании, Индии, но больше всего в Китае. Этиология процесса остается малоизученной, поэтому авторы говорят о ятрогенной, идиопатической и врожденной природе заболевания.

В зависимости от выраженности контрактуры и на основании предложенных классификаций выполняют консервативные, эндоскопические и открытые хирургические вмешательства [2, 4, 8]. Авторы обращают внимание на то, что при сохраняющейся контрактуре могут формироваться вторичные деформации в виде перекоса таза, вальгусной деформации шейки бедренной кости и укорочения нижней конечности [9].

Известно, что подвздошно-большеберцовый тракт (*tractus iliotibialis*) формируется из широкой фасции бедра, располагается в виде лампаса по наружной его поверхности и тянется от гребня подвздошной кости к бугорку Жерди на наружной поверхности большеберцовой кости, где и прикрепляется основной своей частью [10]. В проксимальный отдел тракта вплетаются мышца, напрягающая широкую фасцию бедра (*m. tensor fasciae latae*), и пучки большой ягодичной мышцы (*m. gluteus maximus*). В нормальных условиях подвздошно-большеберцовый тракт отводит и сгибает бедро. Деформация, обусловленная его контрактурой, включает фиксированное отведение, сгибание в тазобедренном и коленном суставах, наружную ротацию бедра, а также перекос таза и увеличенный лордоз. Таким образом, наиболее известные признаки контрактуры тракта — это ограничение разгибания и приведения бедра [11]. Вместе с тем направленность и выраженность

контрактуры, по-видимому, может зависеть от преобладающей зоны фиброзного перерождения мышечных групп. И при преобладающем поражении большой ягодичной мышцы можно ожидать более выраженный разгибательный компонент, в то время как при преобладающем поражении мышцы, напрягающей широкую фасцию бедра, — сгибательный. Что мы и наблюдали у нашего пациента.

Таким образом, тщательный клинический осмотр, а также применение дополнительных методов исследования (УЗИ, МРТ) позволяет правильно поставить диагноз и выбрать адекватный метод лечения.

Благодарность

Авторы выражают благодарность С.А. Брайлову, Н.Ю. Орловой, К.А. Строчицкой за помощь в обследовании пациента.

Информация о финансировании и конфликте интересов

Работа проведена на базе и при поддержке ФГБУ «НИДОИ им. Г.И. Турнера» Минздрава России. Авторы декларируют отсутствие явных и потенциальных конфликтов интересов, связанных с публикацией настоящей статьи.

Список литературы

1. Кожевников О.В., Кралина С.Э. Анализ ошибок при диагностике, лечении и проведении реабилитационных мероприятий наиболее распространенной ортопедической патологии у детей на этапе амбулаторно-поликлинической помощи // Научно-практическая конференция с международным участием «Медицинская реабилитация в педиатрической практике: достижения, проблемы и перспективы»; Июль 1, 2013; Якутск. – Якутск, 2013. [Kozhevnikov OV, Kralina SE. Analysis of errors in the diagnosis, treatment and rehabilitation of the most common orthopedic pathology in children at the stage of outpatient care. In: Proceedings of the Scientific-practical conference with international participation “Medical rehabilitation in pediatric practice: achievements, problems and prospects”; 2013 Jul 1; Yakutsk. (Conference proceedings). Yakutsk; 2013. (In Russ.)]
2. Джураев А.М., Кадыров И.М. Клинические аспекты диагностики и лечения разгибательно-отводящей контрактуры тазобедренного сустава у детей // Вісник ортопедії, травматології та протезування. – 2009. – № 1. – С. 40–42. [Dzhuraev AM, Kadyrov IM. Clinical aspects of diagnosis and treatment of extensor-deflecting hip contracture in children. *Visnyk ortopedii, travmatolohii ta protezuvannia*. 2009;(1):40-42. (In Russ.)]

3. Нарходжаев Н.С., Жуманов Т.Т. Опыт хирургического лечения врожденной контрактуры сухожилий больших ягодичных мышц у детей // Вестник Южно-Казахстанской государственной фармацевтической академии. – 2015. – № 4. – С. 64–66. [Narkhodzhaev NS, Zhumanov TT. Experience of surgical treatment of the congenital contracture of sinews of big gluteuses at children. *Vestnik of the South-Kazakhstan State Pharmaceutical Academy*. 2015;(4):64-66. (In Russ.)]
4. Zhao CG, He XJ, Lu B, et al. Classification of gluteal muscle contracture in children and outcome of different treatments. *BMC Musculoskelet Disord*. 2009;10:34. doi: 10.1186/1471-2474-10-34.
5. Kotha VK, Reddy R, Reddy MV, et al. Congenital gluteus maximus contracture syndrome — a case report with review of imaging findings. *J Radiol Case Rep*. 2014;8(4):32-37. doi: 10.3941/jrcr.v8i4.1646.
6. Pathak A, Shukla J. Idiopathic Bilateral Gluteus Maximus Contracture in Adolescent Female: A Case Report. *J Orthop Case Rep*. 2013;3(1):19-22.
7. Rai S, Meng C, Wang X, et al. Gluteal muscle contracture: diagnosis and management options. *SICOT J*. 2017;3:1. doi: 10.1051/sicotj/2016036.
8. Ye B, Zhou P, Xia Y, et al. New minimally invasive option for the treatment of gluteal muscle contracture. *Orthopedics*. 2012;35(12):e1692-1698. doi: 10.3928/01477447-20121120-11.
9. Ni B, Li M. The effect of children's gluteal muscle contracture on skeleton development. *Sichuan Da Xue Xue Bao Yi Xue Ban*. 2007;38(4):657-659.
10. Островерхов Г.Е., Лубоцкий Д.Н., Бомаш Ю.М. Курс оперативной хирургии и топографической анатомии. – М.: Медгиз, 1963. [Ostroverhov GE, Lubotskiy LN, Bomash YM. Course of operative surgery and topographic anatomy. Moscow: Medgiz; 1963. (In Russ.)]
11. Попелянский Я.Ю. Ортопедическая неврология (вертебрoneврология). Руководство для врачей. – М.: МЕДпресс-информ, 2011. [Popelyanskiy YY. Orthopedic neurology (vertebroneurology). A guide for doctors. Moscow: Medpress-inform; 2011. (In Russ.)]

Сведения об авторах

Юрий Евгеньевич Гаркавенко — д-р мед. наук, профессор кафедры детской травматологии и ортопедии ФГБОУ ВО «СЗГМУ им. И.И. Мечникова» Минздрава России, ведущий научный сотрудник отделения костной патологии ФГБУ «НИДОИ им. Г.И. Турнера» Минздрава России, Санкт-Петербург.

Иван Николаевич Красногорский — канд. мед. наук, старший научный сотрудник-гистолог научно-морфологической лаборатории ФГБУ «НИДОИ им. Г.И. Турнера» Минздрава России, Санкт-Петербург. E-mail: krasnogorsky@yandex.ru.

Багауддин Хавашевич Долгиев — врач травматолог-ортопед отделения костной патологии ФГБУ «НИДОИ им. Г.И. Турнера» Минздрава России, Санкт-Петербург.

Yuriy E. Garkavenko — MD, PhD, Professor of the Chair of Pediatric Traumatology and Orthopedics. North-Western State Medical University n.a. I.I. Mechnikov; Leading Research Associate of the Department of Bone Pathology of The Turner Scientific Research Institute for Children's Orthopedics, Saint Petersburg, Russia. E-mail: yurijgarkavenko@mail.ru

Ivan N. Krasnogorskiy — MD, PhD, senior research associate histologist of the scientific and morphological laboratory. The Turner Scientific Research Institute for Children's Orthopedics, Saint Petersburg, Russia. E-mail: krasnogorsky@yandex.ru.

Bahauddin H. Dolgiev — MD, Orthopedic and Trauma Surgeon of the Department of Bone Pathology. The Turner Scientific Research Institute for Children's Orthopedics, Saint Petersburg, Russia.