

DOI 10.11603/2414-4533.2025.1.15175

УДК 616.748.22-018.38-089.844:616.728.3-007.248-06

©Ю. Р. ТУГАРОВ¹tugarovdoc@gmail.com; ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-1583-6279>©І. Р. КОПИТЧАК²kopitchak-igor@ukr.net; ORCID: <https://orcid.org/0000-0002-3400-8823>©Т. О. ЛІВАР¹dr.tarasliivar@gmail.com; ORCID: <https://orcid.org/0009-0008-8019-674X>©Д.-М. Р. МАЙКА²maika.dariia.mariia@gmail.com; ORCID: <https://orcid.org/0009-0002-6589-9013>МЦ «Ортоклініка», Тернопіль, Україна¹Тернопільський національний медичний університет імені І. Я. Горбачевського МОЗ України, Тернопіль, Україна²

Міотеногенна пластика квадрицепса стегна при артрогрипозі колінного суглоба

Мета роботи: продемонструвати успішний випадок лікування тотального фіброзу сухожилка чотириголового м'яза стегна комбінованим аутоалотрансплантатом при артрогрипозі колінного суглоба.

Матеріали і методи. Серед вроджених вад розвитку опорно-рухового апарату артрогрипоз є одним із найтяжчих захворювань з багатьма ураженнями, розвитком больового синдрому на тлі множинних вроджених контрактур, вираженої деформації, м'язової гіпотонії, гіперрефлексії, вегето-вісцеральних розладів тощо. Виявити дану хворобу можна ще під час пренатальної діагностики у II–III триместрах вагітності за допомогою УЗД у поєднанні з підрахунком рухів плода. Сонографічно – досліджують тотальний фіброз та відсутність сухожилка чотириголового м'яза (сумарний дефект близько 15 см). А потім виконують пластику сухожилкової частини чотириголового м'яза за допомогою трупного алотрансплантата ахіллового сухожилка та частини власного іліотібіального тракту.

Результати. Наведено клінічний випадок 21-річної пацієнтки з артрогрипозом, яку неодноразово прооперовано у провідних клініках із приводу деформації нижніх кінцівок та контрактур. Проте близько року тому хвора відмітила поступову втрату активної розгинальної функції у колінному суглобі. Виявлено тотальний фіброз та відсутність сухожилка чотириголового м'яза. Проведено міотеногенну пластику квадрицепса. Післяопераційний період перебігав без ускладнень, пацієнтку виписано на амбулаторне лікування на 3-ю добу після оперативного лікування в задовільному стані. Рана загоїлась первинним натягом, шви знято на 14-ту добу після операції. Імобілізація тупором становила 4 тижні. Відновились активні розгинальні рухи у гоміляці та згинання стегна, ходить без сторонньої допомоги.

Висновки. Методика аутоалопластики дефектів сухожилків при артрогрипозі є ефективною за умови дотримання пацієнтом рекомендацій у післяопераційному періоді, а також тривалого реабілітаційного лікування.

Ключові слова: артрогрипоз; фіброз; пластика сухожилків; аутоалотрансплантат; колінний суглоб.

Постановка проблеми й аналіз останніх досліджень та публікацій. Генералізований артрогрипоз – це захворювання, що характеризується вродженою системною непрогресуючою дисплазією опорно-рухового апарату, а саме, множинними контрактурами двох і більше великих суглобів із дефектами у м'язовій та сполучній тканинах, у зв'язку із заміщенням м'язів фіброзною та жировою тканиною, що призводить до деформації кінцівок і, відповідно, порушенням їх функцій [1].

Серед вроджених вад розвитку опорно-рухового апарату артрогрипоз є однією з найтяжчих хвороб через ураження, розвиток больового синдрому на тлі множинних вроджених контрактур,

виражені деформації, м'язову гіпотонію, гіперрефлексії, вегето-вісцеральні розлади тощо [2]. Поширення даного захворювання у середньому складає 1/10 тис. дитячого населення.

Етіологічними факторами розвитку даної патології є більше 150 причин: вірусні й бактеріальні інфекції, фізичні, хімічні чинники, лікарські препарати (тератогени), обмеження внутрішньоматкового простору, плацентарна недостатність, багатоводдя тощо [3].

Виявити дане захворювання можна ще під час пренатальної діагностики у II–III триместрах вагітності за допомогою УЗД (згинальні контрактури, деформації кінцівок, затримка росту, мікрогнатія, змінений об'єм амніотичної рідини, це-

ребральна вентрикуломегалія, дисморфізми тощо) у поєднанні з підрахунком рухів плода.

Верифікацію клінічної ж форми захворювання проводять виключно за консиліарної участі, суміжних лікарів-спеціалістів, а саме, ортопеда-травматолога, щелепно-лицевого хірурга, невролога та генетика.

У більшості пацієнтів з артрогрипозом деформації симетричні й не поширюються на інші сегменти протягом життя, тому своєчасний початок лікування та його комплексний підхід дозволяє вести повноцінний спосіб життя [4].

На даний час у світі немає ні уніфікованого протоколу, ні ефективних схем лікування пацієнтів з артрогрипозом, тому дане питання залишається відкритим. Лікування розпочинають з шинувальних та бандажувальних кінцівок залежно від локалізації та ступеня деформації [5]. Також невід'ємною частиною є реабілітаційне лікування, лікувальна фізкультура та фізіотерапевтичне лікування. З часом виконують оперативне лікування: корегувальні остеотомії, транспозиції м'язів та сухожилків, пластика сухожилків та зв'язок. На сьогодні медикаментозного патоморфологічного лікування артрогрипозу не існує, лише симптоматична терапія. Запорукою успіху лікування таких пацієнтів є ранній початок, комплексний підхід, а також активна допомога батьків та бажання досягти результату, незважаючи на тяжкість деформацій. Своєчасний початок консервативного лікування дозволяє у ряді випадків повністю усунути контрактури або значною мірою зменшити їх тяжкість. У разі збереження деформацій кінцівок після проведеного консервативного лікування з 3–4-місячного віку дитини показане оперативне лікування [6].

Мета роботи: продемонструвати успішний випадок лікування тотального фіброзу сухожилка чотириголового м'яза стегна та відсутності розгинальних рухів колінного суглоба комбінованим аутоалотрансплантатом при артрогрипозі колінного суглоба. Оцінити віддалені наслідки даного методу лікування та функцію кінцівки в окремо взятому випадку.

Матеріали і методи. Серед вроджених вад розвитку опорно-рухового апарату артрогрипоз є одним із найтяжчих захворювань із багатьма ураженнями, розвитком больового синдрому на тлі множинних вроджених контрактур, вираженої деформації, м'язової гіпотонії, гіпорексії, вегето-вісцеральних розладів тощо. Виявити дану хворобу можна ще під час пренатальної діагностики у II–III триместрах вагітності за допомогою УЗД у поєднанні з підрахунком рухів плода. Сонографіч-

но – досліджують тотальний фіброз та відсутність сухожилка чотириголового м'яза (сумарний дефект близько 15 см). А потім виконують пластику сухожилкової частини чотириголового м'яза за допомогою трупного алотрансплантата ахіллового сухожилка та частини власного іліотібіального тракту.

Результати. *Клінічний випадок.* На лікування у медичний центр «Ортоклініка» звернулася пацієнтка віком 21 рік, якій при народженні поставили діагноз артрогрипозу. Неодноразово їй було прооперовано за кордоном з приводу деформації нижніх кінцівок. У 2019 р. оперована у МЦ «Ортоклініка» з приводу розгинальної контрактури лівого колінного суглоба, виконано реліз капсули суглоба з подовженням та Y-пластикою сухожилка чотириголового м'яза. Після операції пацієнтка відмічала суттєве покращення функції колінного суглоба. Проте близько року тому почала відчувати втрату сили при розгинанні його, а з часом активні розгинальні рухи у колінному суглобі зникли. Сонографічно було виявлено тотальний фіброз та відсутність сухожилка чотириголового м'яза (сумарний дефект близько 15 см). Прийняли рішення щодо виконання пластики сухожилкової частини чотириголового м'яза за допомогою трупного алотрансплантата ахіллового сухожилка та частини власного іліотібіального тракту.

Виконано доступ по передній поверхні до 25 см із поширенням латерально. Знайдено та виділено іліотібіальний тракт, за допомогою стріпера забрано частину останнього. При ревізії виявлено відсутність сухожилкової частини прямого м'яза стегна з тотальним фіброзом, латеральний та медіальний м'язи стегна з вираженою гіпотрофією та з фіброзними тяжами. За допомогою скальпеля та електроножа видалено рубцевозмінені тканини, мобілізовано м'язи переднього відділу стегна та сформовано ложе для постановки аутоалотрансплантатів (рис. 1).

На попередньо підготовлений стерильний столик розміщено 2 алотрансплантати та один аутоалотрансплантат (рис. 2, 3), останні виміряно та зіставлено із розмірами дефекту. З використанням FiberWire 0 прошивато дистальні кінці трансплантатів та підшити кістковими швами до надколінка, виконано тест на міцність кісткових швів та фіксації.

Проксимальні кінці за допомогою FiberWire 2/0 та Vicryl 0 підшивають до м'язової частини прямого, латерального та медіального широкого м'язів стегна (рис. 4). Таким чином виконано формування сухожилкової частини чотириголового м'яза стегна (рис. 5).



Рис. 1. Рубцевозмінені тканини.



Рис. 4. Аутоалотрансплантат, підшитий до надколінка.



Рис. 2. Трупний алотрансплантат ахіллового сухожилка.



Рис. 5. Аутоалотрансплантат, підшитий до чотириголового м'яза.



Рис. 3. Аутографт.

Післяопераційний період перебігав без ускладнень, пацієнтку виписали на амбулаторне лікуван-

ня на 3-ю добу після оперативного лікування в задовільному стані. Загальний час перебування на стаціонарному лікуванні склав 3 доби. Рана загоїлась первинним натягом, шви знято на 14-ту добу після операції. Іммобілізацію тугором проводили 4 тижні. Реабілітаційне лікування почали виконувати на 3-ю добу одразу після зменшення больового синдрому, що включало у себе комплекс вправ та процедур (зокрема, електроміостимуляція) для запобігання формування контрактури колінного суглоба і гіпотрофії м'язів стегна та гомілки (рис. 6).

На даний час післяопераційний період складає 3 місяці (рис. 7, 8) та продовжується реабілітація. Пацієнтка відмічає покращення самопочуття та функціонального стану колінного суглоба, вона самостійно ходить та повністю обслуговує себе сама.



Рис. 6. Стан м'яких тканин стегна, 15-та доба після зняття швів.



Рис. 8. Розгинання гомілки через 3 місяці.



Рис. 7. Згинання стегна через 3 місяці.

Відновились розгинальні рухи в колінному та згинальні рухи в кульшовому суглобах, на даному етапі їхній дефіцит становить близько 25 %, проте потрібно врахувати давність захворювання, неодноразові оперативні лікування та стан м'язів, параартикулярних тканин та суглобів.

Обговорення. У статті автори продемонстрували успішне лікування тотального фіброзу сухожил-

ка чотириголового м'яза стегна та відсутності розгинальних рухів колінного суглоба у пацієнтки з артрогрипозом. Розгинальні рухи у колінному та згинальні рухи в кульшовому суглобах частково відновилися через 3 місяці після оперативного лікування (аутоалопластики дефектів сухожилків) та системної реабілітації. Пацієнтка повернулася до звичайного способу життя та продовжує реабілітацію з позитивною динамікою. Хоча було досягнуто значного відновлення функції колінного суглоба, потрібно ще продовжити спостереження за подальшим функціональним станом кінцівки. Необхідне подальше проведення розгорнутих досліджень для визначення ефективності даного методу лікування у пацієнтів з артрогрипозом колінного суглоба як частини етапного хірургічного лікування.

Висновки. Враховуючи отримані результати лікування, на нашу думку, методика аутоалопластики дефектів сухожилків при артрогрипозі є ефективною за умови дотримання пацієнтом рекомендацій у післяопераційному періоді, а також ефективного і тривалого реабілітаційного лікування.

Конфлікт інтересів. Автори декларують відсутність конфлікту інтересів.

Джерела фінансування. Власні кошти авторів.

Внесок авторів. Тугаров Ю. Р. – ідея, дизайн дослідження. Копитчак І. Р. – огляд літератури, аналіз, обговорення та написання статті. Лівар Т. О. – ідея, концепція та обговорення дослідження. Майка Д.-М. Р. – аналіз та обговорення.

СПИСОК БІБЛІОГРАФІЧНИХ ПОСИЛАНЬ

1. Multiple congenital contractures: Birth prevalence, etiology, and outcome / N. Darin et al. *J. Pediatr.* 2002. Vol. 140. P.61–67.
2. Diagnosing arthrogryposis multiplex congenita: a review / E. Kalampokas E. et al. *ISRN Obstet. Gynecol.* 2012. No. 2012. 264 918. DOI: 10.5402/2012/264918.
3. Kowalczyk B., Feluś J. Arthrogryposis: an update on clinical aspects, etiology, and treatment strategies. *Archives of Medical Science.* 2016. No. 12 (1). P. 10–24.
4. Review of perinatal management of arthrogryposis at a large UK teaching hospital serving a multiethnic population / O. B. Navti et al. *Prenatal Diagnosis.* 2010. Vol. 30 (1). P. 49–56.
5. Treatment and outcomes of arthrogryposis in the lower extremity. *American Journal of Medical Genetics Part C: Seminars in Medical Genetics* / R. C. Hamdy et al. 2019. No. 181 (3). P. 372–384.
6. Langston S., Chu A. Arthrogryposis Multiplex Congenita. *Pediatric Annals.* 2020. Vol. 1. No. 49 (7). P. e299–e304.

REFERENCES

1. Darin N, Kimber E, Kroksmark A, et al. Multiple congenital contractures: Birth prevalence, etiology, and outcome. *J. Pediatr.* 2002; 140:61-7.
2. Kalampokas E, Kalampokas T, Sofoudis C, Deligeoroglou E, Botsis D. Diagnosing arthrogryposis multiplex congenita: a review. *ISRN Obstet. Gynecol.* 2012; 2012:264 918. DOI: 10.5402/2012/264918.
3. Kowalczyk B, Feluś J. Arthrogryposis: an update on clinical aspects, etiology, and treatment strategies. *Archives of Medical Science.* 2016; 12(1):10-24.
4. Navti OB, Kinning E, Vasudevan P, et al. Review of perinatal management of arthrogryposis at a large UK teaching hospital serving a multiethnic population. *Prenatal Diagnosis.* 2010; 30(1):49-56.
5. Hamdy RC, Bosse H, Altiok H, Abu-Dalu K, Kotlarsky P, Fafara A, et al. Treatment and outcomes of arthrogryposis in the lower extremity. *American Journal of Medical Genetics Part C: Seminars in Medical Genetics.* 2019; 181(3):372-84.
6. Langston S, Chu A. Arthrogryposis Multiplex Congenita. *Pediatric Annals.* 2020; 49(7):e299-e304.

Отримано 10.11.2024

Електронна адреса для листування: kopitchak-igor@ukr.net

YU. R. TUHAROV¹, I. R. КОPYTЧAK², T. O. LIVAR¹, D.-M. R. MAIKA²

MC "Ortoklinika", Ternopil, Ukraine¹

I. Horbachevsky Ternopil National Medical University, Ternopil, Ukraine²

MYOTENOGENIC QUADRICEPSPLASTY IN ARTHROGRYPOSIS OF THE KNEE JOINT

The aim of the work: to demonstrate a successful case of treatment of total fibrosis of quadriceps tendon with a combined auto-allograft in arthrogryposis of the knee joint.

Materials and Methods. Among congenital malformations of the musculoskeletal system, arthrogryposis is one of the most severe diseases with many lesions, the development of pain syndrome against the background of multiple congenital contractures, pronounced deformation, muscle hypotonia, hyporeflexia, vegetative-visceral disorders, etc. This disease can be detected during prenatal diagnosis in the 2nd–3rd trimesters of pregnancy using ultrasound in combination with counting fetal movements. Sonographically, total fibrosis and absence of the quadriceps tendon were examined (total defect of about 15 cm). And then the tendon part of the quadriceps muscle was plasticized using a cadaveric allograft of the Achilles tendon and part of the patient's own iliotibial tract.

Results. A clinical case of a 21-year-old patient with arthrogryposis is presented, who was repeatedly operated on in leading clinics for lower limb deformity and contractures. However, about a year ago, the patient noted a gradual loss of active extensor function in the knee joint. Total fibrosis and absence of the quadriceps tendon were detected. Myotogenic plasty of the quadriceps was performed. The postoperative period was without complications, the patient was discharged for outpatient treatment on the 3rd day after surgery in a satisfactory condition and with relieved pain syndrome in the acute period. The wound healed with primary tension, the sutures were removed on the 14th day after surgery. Immobilization with a splint was 4 weeks. Active extensor movements in the lower leg and hip flexion were restored, she walks without assistance.

Conclusions. The technique of autoallograft of tendon defects in arthrogryposis is effective provided that the patient follows the recommendations in the postoperative period, as well as long-term rehabilitation treatment.

Key words: arthrogryposis; fibrosis; tenoplasty; autoallograft; knee joint.