

先天性距下关节融合2例报道以及相关临床诊治分析综述

张 栋,南少奎,朱 跃,李 菲,何 勃

[摘要] 距下关节融合,是跟距骨桥或跟距联合的一种,指跗骨联合中跟骨与距骨之间的异常连接,常导致足踝慢性疼痛、活动受限。临床上,先天性距下关节外融合发病隐匿,缺乏特征性,难以得到及时准确的诊断和正确的治疗。既往文献报道先天性距下关节外融病例较少,其中多为个案报道。中国人民解放军总医院第六医学中心骨科发现并治疗2例罕见先天性距下关节融合患者(共三足)。通过对该病例的诊治和文献回顾及影像学检查、诊断、治疗以及相关进展,进行系统性综述,提醒基层医生对患者反复足踝痛时,应警惕是否存在先天性距下关节融合的可能;并且推荐CT作为其诊断方法。

[关键词] 先天距下关节融合;足踝痛;习惯性脚扭伤

[中图分类号] R68

[文献标志码] A

[文章编号] 2095-3097(2021)05-347-4

doi: 10.3969/j.issn.2095-3097.2021.05.016

Congenital talocalcaneal coalition: case-report and literature review

ZHANG Dong, NAN Shaogui, ZHU Yue, LI Fei, HE Qing

(Department of Orthopedics, Sixth Medical Center, of PLA General Hospital, Beijing 100048, China)

[Abstract] Talocalcaneal coalition, a kind of calcaneal talus bridge or calcaneal talus union, refers to the abnormal connection between calcaneus and talus. This results in movement and pain of the foot and ankle. Clinically, the incidence of CTCC is hidden and lack of characteristics, so it is often difficult to get accurate diagnosis and correct treatment in time. Previous literature rarely reported cases of congenital talocalcaneal coalition (CTCC), of which case-report accounts for a large proportion, the author discovers and manages two rare cases (three feet) with CTCC. Via the imaging examination, diagnosis, treatment and update literature on this deformity, the author tries to depict an explicable review on congenital talocalcaneal coalition, so as to draw doctors' attention in outpatient, especially confronting the young with recurrent foot sprain and pain. And CT is recommended as its diagnostic method.

[Key words] Congenital talocalcaneal coalition; Foot and ankle pain; Foot recurrent sprain

距下关节融合分为先天性和获得性,而先天性距下关节融合(congenital talocalcaneal coalition, CTCC)是跟距关节融合(也称为“跟距骨桥”)的一种。既往文献报道先天性距下关节外融病例很少,其中多为个案报道,该病常被误诊为慢性足踝痛、习惯性脚扭伤。除此之外,CTCC早期无临床症状表现,很难得到真实的跟距骨桥发病率。因此,关于CTCC相关研究鲜有报道,基层医师对CTCC疾病的诊疗缺乏经验。解放军总医院第六医学中心骨科发现并治疗先天性距下关节融合2例,现将病例特点和诊治过程及近年来国内外文献报道如下,以期提升基层医师对CTCC的诊治能力。

1 病例资料

1.1 病例1 患者男,24岁,健身爱好者,主因“双足

踝痛3年,加重2 d就诊”。3年前曾有训练后双侧足跟痛病史,之后双足交替性、习惯性脚扭伤,2月前在国外户外奔走后双足跟疼痛、沉重感,2 d前上述症状加重。查体:步态正常,双足踝对称、外观大致正常,无红肿皮温升高,双足内翻、旋后诱发痛,踝关节背伸、内翻受限,足跟叩击试验阳性,双载距突处压痛,提踵试验阴性,美国足与踝关节协会(american orthopaedic foot and ankle society, AOFAS)踝与后足评分64分。影像学CT扫描和MRI检查,如图1(A~G)所示,诊断为:①先天性距下关节融合(双侧);②跟骨骨髓水肿(双侧);③踝关节软骨损伤(双侧)。给予足踝石膏固定,前两周卧床,第3周部分负重、渐进性功能康复训练,第5周患者疼痛感明显缓解,AOFAS评分86分,拆除石膏,进行适应性训练后返回工作岗位。

[作者单位] 100048 北京,解放军总医院第六医学中心骨科(张 栋,南少奎,朱 跃,李 菲,何 勃)

[通讯作者] 朱 跃,E-mail: ilovebjfs@163.com



图1 病例1影像学图像

A: X线侧位片提示双足“C”字征(星形轮廓,组成C型),多个关节面硬化;B:CT冠状位提示双足距下关节融合;C~D: MRI-T₂加权相提示双足距下关节融合;E: MRI-pd-fse-矢状位压脂相提示距、跟骨髓水肿;F~G: MRI-pd-fse-斜冠状位压脂相提示双踝关节积液、距下关节中关节残存关节面水肿反应信号;H: MRI-T1-fse-斜冠状位提示踝关节面软骨退化

1.2 病例2 患者男,22岁,兼职运动员,主因“左足踝习惯性扭伤5年,蛇形跑时再次扭伤1h”就诊。既往5年间断出现拉练时习惯性扭脚,劳累后左足踝有酸痛不适等症状,症状反复。查体:跛行步态,左内踝下方红肿压痛,内外翻应力试验诱发痛,AOFAS评分52分。影像学检查,如图2(A~F)所示,诊断为:①先天性距下关节融合(左);②跟距桥骨损伤(左);③足踝骨性关节炎(左);④踝关节软骨损伤(左);⑤跟骨骨髓水肿(左);⑥内侧三角韧带损伤(左踝)。石膏托固定5周拆除,仍诉内踝痛,步行无力,AOFAS评分62分。保守治疗效果欠佳,存在手术治疗适应证。但考虑患者出差,如行彻底手术则恢复周期较长,暂时予以局部封闭治疗。遂以1%利多卡因与曲安奈德1:1混合2 mL于内踝下方骨突处骨膜层面注射,配合以物理治疗和康复训练,1周后疼痛好转,AOFAS评分82分。



图2 病例2影像学图像

A: X线正位片提示左足距骨内侧突出与跟骨载距突显示不清;B: X线侧位片提示左足“C”字征;C: CT冠状位提示左足距下关节融合、右足正常;D~E: MRI-T₁、T₂-fse斜冠状位提示左足距下关节融合、踝关节积液、软骨退变;F~G: MRI-pd-fse和stir-fse的斜冠状位压脂相提示距下关节融合部位水肿(箭形)以及骨膜反应,提示应力集中部位可能存在隐形骨裂伤;H: MRI-pd-fse-斜冠状位压脂相提示跟骨水肿以及三角韧带损伤(三角形)。

2 CTCC 概述

2.1 CTCC 的流行病学和病因学 CTCC人群中发病率不足1%,50%~80%表现为双侧,分为非骨性和骨性融合两类^[1]。多数骨性CTCC生理基础为先天胚胎期软骨基分离不全、青少年时骨化为骨桥,可能由常染色体显性遗传控制;非骨性CTCC和少数骨性CTCC则由后天继发性原因引起,如炎症、感染、创伤和慢性损伤、肿瘤、骨坏死等^[2]。本文2例患者,限于患者原因,并未进行病理学和基因学检查,但从职业性质判断,有创伤和慢性损伤等危险因素。

2.2 CTCC 的生物力学和临床表现 CTCC多发生在距下关节的中关节面。正常距下关节尚有5°~15°活动度,而CTCC减少了足踝部关节活动度及运动时的转向和缓冲,易加速软骨磨损、退化,导致关节面硬化、足部力线紊乱^[3]。本文2例三足皆有不同程度的关节退变,如软骨下骨损伤、软骨下骨硬化、骨髓水肿、局部少量积液等;同时,CTCC可伴发足踝其他先天畸形,如距舟融合、跗骨短小、腓骨缺如等;亦可伴发其他足部发育异常,如扁平足、外翻足等^[4]。临床上患者多以少年、青年多见,以慢性足踝痛、反复发作的足扭伤为主诉,查体可见步态僵硬、扁平足、足内翻或外翻;可在踝关节内下方触及骨性包块,坚硬触痛,偶及腓肠肌痉挛和踝关节韧带走行处压痛;在足内外翻时诱发痛或活动度下降。本文第1例患者有足踝活动度减少,第2例有内踝韧带处压痛,MRI检查提示骨桥有损伤,说明CTCC患者,再次扭伤或摔伤后剧痛,则应警惕骨桥处是否发生骨折^[5]。

2.3 CTCC 的影像学检查 X线正位片可在内踝下方看见距骨、跟骨异常增大的骨块影,习惯性扭伤患者还可见内、外踝尖有撕脱骨折,踝关节面硬化影;侧位片可见跟骨、距骨间有长舌状异常骨块影,另可见距骨头与载距突边缘轮廓组成环状高密度影,称为“C”字征。Sakellariou医生^[6]发现“C”字征对距下关节融合的敏感性和特异性达98%。然而,Taniguchi教授^[7]对日本某青年足痛群体进行X线检查却发现,“C”字征的敏感性和特异性分别为49%和91%,所以即便没有“C”字征也不能否认跟距骨桥诊断。Moraleda教授^[8]通过对足踝门诊患者的调查,发现“C”字征在CTCC中阳性率77%,在扁平足中阳性率也有45%,故认为“C”字征不仅存在距下关节融合中,也见于扁平足中,所以更推荐CT扫描。如合并距舟融合或距骰骨融合时,X线侧位片上可见距骨头前沿翘起,呈“鸟嘴征”,为长时间不恰当应力牵拉和磨损所致^[9]。因此,X线为CTCC的筛查手段之一,有时可以提供典型的“C”字征,但

不能作为确诊工具。

CT扫描作为诊断CTCC的“金标准”,既能明确诊断及分型,又能指导手术方案^[10]。CTCC根据病理结果可分为骨性、软骨性、纤维性,Rozansky教授^[11]采用CT三维立体重建联合二维冠状位扫描的方法,将CTCC分为5种类型,其中前3类为非骨性(即软骨性、纤维性),根据非骨性关节面与距下关节面的夹角方向分为:①平行型;②钩状型;③叠瓦型。后两型为骨性:④关节面完全骨化型(此型绝大多数为先天性);⑤后关节面骨性连接型。本文2例皆为第4种类型。

MRI除了清晰显示跟距骨桥的形态外,还可以发现其他合并伤,如韧带损伤、软骨剥脱、骨髓和神经水肿等^[12],推荐序列为FSE-T₁和T₂加权相、质子密度相、STIR相、压脂相,推荐位置为横轴斜位,该位置更能体现CTCC的解剖特点。但对于足踝关节严重退变的患者,MRI有时难以区分软骨性和骨性连接。本文第2病例中,MRI清晰显示了韧带损伤、骨膜反应、骨桥应力集中以及骨桥骨损伤。

近年来随着高分辨率多普勒超声技术的发展,B超在诊断CTCC方面也具有独特优势。纤维性跟距桥患者,超声可清晰显示关节间隙变窄;骨性跟距桥患者,超声可提示骨皮质强声影的平滑连续性;病情严重患者,也可发现踝管和跗骨管水肿、踝关节积液、距腓前韧带损伤等,具有无创简便、实时动态可视的特点^[13]。

2.4 CTCC的治疗 治疗原则应当综合考虑患者年龄和职业、融合部位、CT分型、足踝关节退化程度和主诉严重程度而具体分析,很多患者病情可通过非手术治疗得到缓解。非手术治疗包括减少负重、加强休息、口服非甾体抗炎药物、外用药膏、封闭药物注射、物理因子和康复理疗等^[14],如症状加重或新发足扭伤,可佩戴足踝支具、石膏托,固定时间一般3~6周。

3 讨论

先天距下关节融合集中于青年群体,发病率虽然不高,但是一旦发生,则会严重影响患者的日常工作和生活。因此,提高该病的诊断率、降低误诊率,尤为重要。国内外学者为提高该病的检出率提出很多相应的辅诊方法,然而均缺乏相应的灵敏性和特异性^[6-13]。这提示医生影像学特征要和临床结合,切忌凭借单一影像学而下结论。一经诊断,应观察症状是否严重影响患者生活。非手术治疗6个月症状仍持续时,可考虑手术治疗。经典手术方法为:骨桥切除联合脂肪填充术。Gantsoudes医生^[15]以该术式治疗93例CTCC患者,85%取得良好

疗效。Bonasia医生^[16]认为,单纯切除术(联合或不联合脂肪填充术)的指征为:年轻患者,融合关节面小于距下关节中关节面的50%,关节无明显退行性改变,无其他畸形。同时也提到切开手术的并发症:神经损伤,表浅感染和伤口延迟愈合,住院时间较长,二次矫形手术。德国Hamel医生^[17]对80例青少年CTCC患者进行手术治疗,分为3种术式:单纯切除和脂肪填充术;切除骨桥以及趾骨截骨矫形术及I期距下关节融合术。发现当CTCC合并足踝其他畸形时,矫形和融合术更有助于改善患者主诉。融合材料可在手术区域取骨,也可使用自体髂骨。Giannini医生^[18]采用了可降解吸收的人工骨,融合效果令人满意。随着微创理念的更新,关节镜技术也被应用于治疗CTCC。Jagodzinski教授^[19]对有症状的CTCC和非骨性融合患者,进行关节镜下骨桥切除术,并且对两个医疗中心的患者进行随访,认为微创治疗不仅改善了距下关节活动度,减轻了患者疼痛,而且切口小、康复快、减少了并发症。但是这些手术的远期效果,是否会造成新的足踝关节不稳、远期创伤性关节炎,并未得知。

本文中2例三足患者,职业特殊,均为体力要求更高、负荷重于常人,病史迁延,一经诊断,使用物理治疗、痛点封闭、石膏固定等保守治疗办法,可将足踝功能评分大为改善,说明多数患者症状可经非手术治疗方法予以缓解。这些治疗措施简便易得,也为基层偏远地区医生提供了思路。

4 结论

2008年奥运会后,“全民健身,全民健康”理念逐渐深入人心,跑步、球类运动、对抗性运动、攀爬类运动等项目,逐渐成为我国居民日常健身活动的主要组成部分,对于足踝部灵活性和协调性要求均高。当患者出现慢性足踝痛、疼痛位置集中在内踝下方、反复发作的足扭伤时,基层临床医生应当警惕CTCC可能,建议患者行CT检查,降低误诊漏诊可能性。本文不足之处为:未将骨桥切除做病理检查。待继续随访此2例患者,如非手术治疗无效时,应采取手术治疗。

【参考文献】

- [1] Di Gennaro GL, Stallone S, Olivotto E, et al. Operative versus nonoperative treatment in children with painful rigid flatfoot and talocalcaneal coalition[J]. BMC Musculoskelet Disord, 2020, 21(1):185.
- [2] Farid A, Faber FWM. Bilateral triple talocalcaneal, calcaneonavicular, and talonavicular tarsal coalition: a case report[J]. J Foot Ankle Surg, 2019, 58(2):374-376.
- [3] Docquier PL, Maldaque P, Bouchard M. Tarsal coalition in paediatric patients[J]. Orthop Traumatol Surg Res, 2019, 105(1S):