

Uniwersytet Medyczny
im. Karola Marcinkowskiego
w Poznaniu

Marcin Redman

Ocena wydłużania kości łokciowej na drodze
osteogenezy dystrakcyjnej we wrodzonym braku
kości promieniowej

ROZPRAWA DOKTORSKA

Promotor
prof. dr hab. Leszek Romanowski
Katedra i Klinika Traumatologii,
Ortopedii i Chirurgii Ręki

Poznań 2012

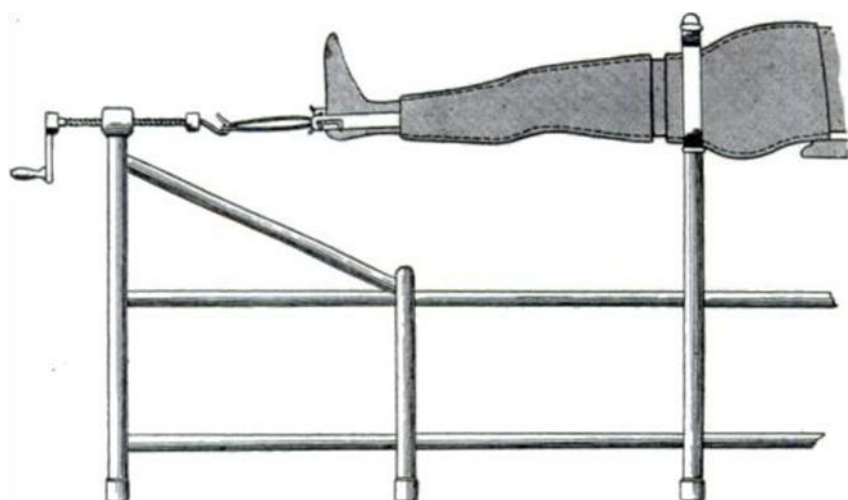
SPIS TREŚCI

1. WSTĘP	3
2. ZAŁOŻENIA I CELE PRACY	13
3. MATERIAŁ I METODYKA	15
4. WYNIKI BADAŃ	22
5. DYSKUSJA	38
6. WNIOSKI	45
7. SKRÓTY	46
8. SPIS TABEL I RYCIN	47
9. PIŚMIENICTWO	50
10. STRESZCZENIE	55
11. ABSTRACT	59

WSTĘP

Rys historyczny

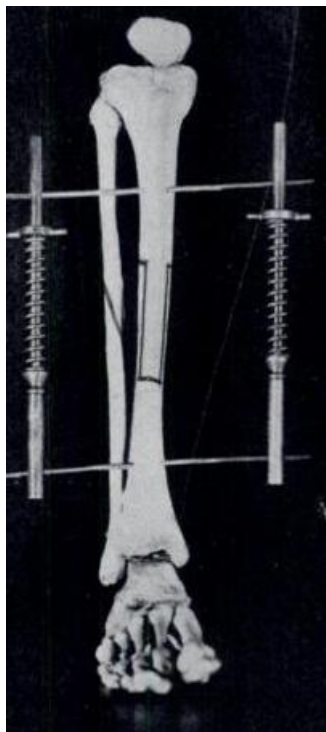
Historia wydłużania kości rozpoczęła swój dynamiczny rozwój w roku 1905, kiedy to Codivilla wykonał po raz pierwszy zakończone sukcesem wydłużenie kości kończyny dolnej sposobem jednoczasowym. Opisuje on w swojej pracy użycie



Rycina 1. Schemat aparatu wyciągowego konstrukcji Codivilli (11)

aparatu w którym siła trakcyjna, działająca poprzez pin przeprowadzony przez kość piętową umożliwiła mu wykonywanie, po uprzedniej osteotomii, wydłużeń kości piszczelowych lub udowych w przypadkach wadliwie wygojonych złamań, wad wrodzonych czy pozapalnych niedoborów długości (11). Użycie stabilizatora zewnętrznego do wydłużania kości jako pierwszy opisał Ombredanne w 1913 roku. Wykonanie skośnej osteotomii kości udowej umożliwiło mu rozpoczęcie dystrakcji z prędkością 5 mm na dobę. Procedura zakończyła się jednak niepowodzeniem z powodu infekcji. W roku 1921 pamiętając o prawdopodobnych przyczynach niepowodzenia swojego poprzednika, Putti zwolnił tempo dystrakcji kości do 3 mm na dobę. Do wydłużania stosował on stabilizator monolateralny. Sześć lat później za sprawą Abbotta pojawiła się idea okresu latencji, który

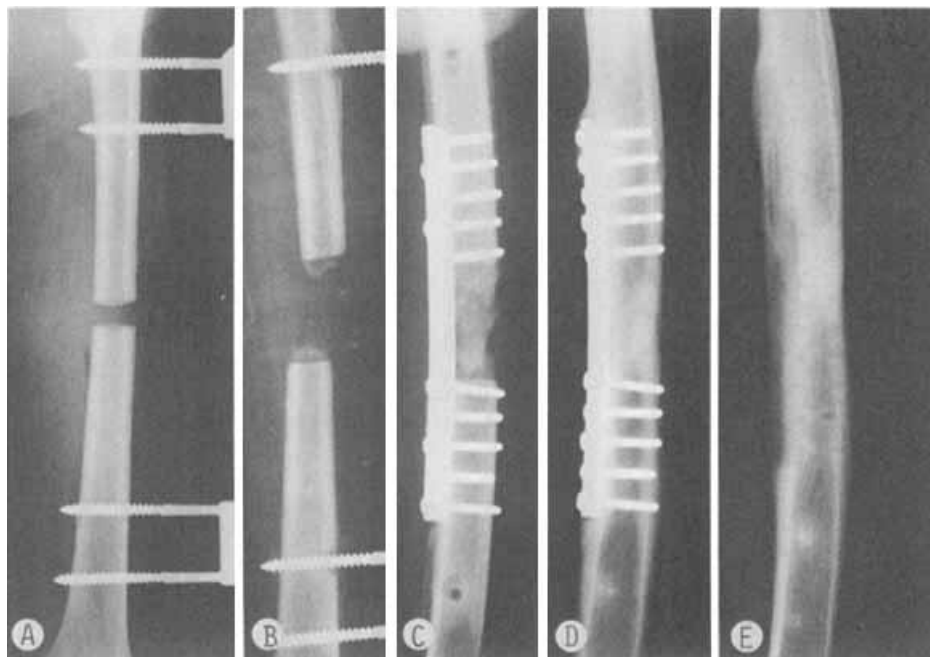
zdaniem autora winien trwać od 7 do 10 dni. Poza skonstruowaniem sprężynowego aparatu dystrykcyjnego, Abbott postulował wykonywanie osteotomii z dbałością o zaoszczędzenie okostnej co miało korzystnie wpływać na gojenie się kości podczas jej wydłużania (2,4,39).



Rycina 2. Aparat sprężynowy konstrukcji Abbotta (2)

Kolejne modyfikacje metody Abbotta jak użycie napiętych drutów zamocowanych do sprężynowego aparatu jego konstrukcji czy technika przezskórnej osteotomii zostały wprowadzone przez Andersona w 1936 roku. Bost i Larsen w 1956 roku zaproponowali technikę wydłużania kości udowej wzdłuż umieszczonego śródszpikowo pręta. Do wykonania osteotomii używali oni piły Gigliego (2,4). Od roku 1970 rosnącą popularność zaczęła zdobywać koncepcja przedstawiona przez Wagnera. Zakładała ona wykonanie śródtrzonowej osteotomii oraz natychmiastowe śródoperacyjne wydłużenie o około 5 mm z użyciem aparatu monolateralnego. Poza wykonaniem osteotomii Wagner zalecał przecięcie okostnej oraz powięzi celem zmniejszenia oporu ze strony tkanek miękkich podczas wydłużania. Następnie dystrykcja przebiegała w jak najszybszym, akceptowalnym dla pacjenta

tempie (do 3 mm na dobę), do czasu osiągnięcia pożądanego wydłużenia nie przekraczającego w tej metodzie 7 cm. W trakcie leczenia pacjent miał obciążać wydłużaną kończynę oraz wykonywać ćwiczenia stawów przyległych do wydłużanego segmentu kończyny. Po zakończeniu dystrakcji powstałą przerwę wypełniano przeszczepem kostnym oraz stabilizowano płytą do czasu uzyskania konsolidacji (1,46).



Rycina 3. Przykład wydłużania kości udowej z pracy Wagnera (46)

Osteogeneza dystrakcyjna

Krokiem milowym stała się obowiązująca i szeroko stosowana do dnia dzisiejszego koncepcja zaproponowana przez Ilizarova. Zakłada ona użycie stabilnego dystraktora pierścieniowego pozwalającego jedynie na minimalne ruchy osiowe tworzącego się regeneratu, co stymuluje jego powstawanie. W metodzie tej osteotomia winna być wykonana na drodze osteoklacji i/lub korykotomii w celu zaoszczędzenia krążenia śródszpikowego oraz okostnowego. Okres latencji (czas między założeniem dystraktora a rozpoczęciem wydłużania) wynoszący od 5 do 7

dni, dystrakcja z prędkością 1 mm na dobę (w co najmniej 4 krokach) oraz okres neutralnej stabilizacji niezbędny do konsolidacji, co najmniej tak długi jak okres wydłużania, są podstawą tworzenia się regeneratu na drodze osteogenezy dystrakcyjnej według teorii Ilizarova. Nie należy zapominać także o przywróceniu funkcji wydłużanej tą metodą kończyny o co postulował autor (1,19,20,21).

Definicja, częstość występowania, etiologia oraz typy wrodzonego braku kości promieniowej

Wrodzony brak kości promieniowej jako pierwszy opisał Petit w 1733 roku. Jest to uogólniony niedorozwój kończyny górnej ze skróceniem oraz zagięciem przedramienia, promieniowym odchyleniem i przemieszczeniem nadgarstka w stosunku do końca dalszego kości łokciowej. W wadzie tej obecny jest zawsze niedorozwój kciuka, występujący w bardzo różnym stopniu nasilenia. Ponadto wrodzony brak kości promieniowej jest często (25%–33%) jednym z elementów składowych zespołów wad wrodzonych takich jak np.: zespół Holt–Oram, VACTERL czy TAR lub współwystępuje z innymi wrodzonymi nieprawidłowościami takimi jak np.: anemia Fanconiego, palczozrost czy choroba Sprengela (9,15,16,25,27,33,36).

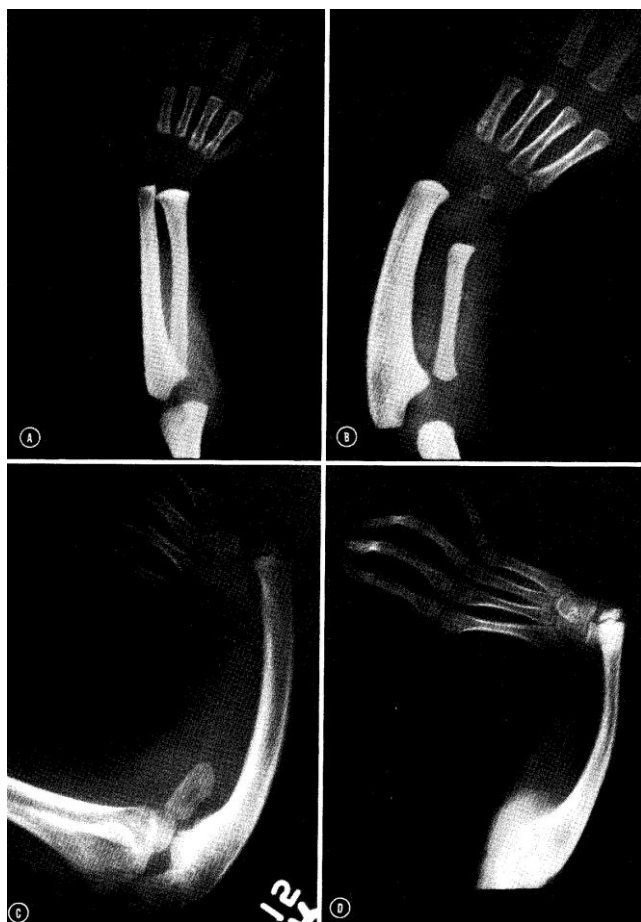
Częstość występowania wrodzonego braku kości promieniowej waha się według różnych autorów między 1 na 30.000 do 1 na 100.000 urodzeń. Wada ta w 38%–66% występuje obustronnie i jest często asymetryczna. Jednostronne występowanie dwukrotnie częściej dotyczy strony prawej. Występowanie w zależności od płci kształtuje się w proporcjach K:M od 1:1 do 3:2 (9,25,27,43,45).

Pomimo, iż wzory dziedziczenia wrodzonego braku kości promieniowej są znane, większość przypadków występuje spontanicznie jako wada nie będąca wynikiem dziedziczenia. Zdefiniowano także wiele czynników teratogennych mogących wpływać na zwiększoną częstość występowania tej wady, jak: promieniowanie rentgenowskie, infekcje wirusowe czy leki. Narażenie płodu na

talidomid w pierwszym trymestrze ciąży jest najlepiej poznany czynnikiem etiologicznym mogącym prowadzić do powstania tej deformacji (9,36).

Typy wrodzonego braku kości promieniowej

Najbardziej rozpowszechnionym podziałem wrodzonego braku kości promieniowej, wyróżniającym cztery jego typy, jest zaproponowany przez Bayne'a i Kluga w 1987 roku podział na podstawie oceny RTG kości przedramienia (5).



Rycina 4. Typy I – IV (A – D) wrodzonego braku kości promieniowej (5)

Typ I. (A) **Skrócenie części dalszej kości promieniowej.** Nasada dalsza kości promieniowej jest obecna ale jej pojawienie się jest opóźnione. Wzrost nasady dalszej jest osłabiony co powoduje jej skrócenie pomimo prawidłowego wyglądu. Występuje niewielkie promieniowe odchylenie nadgarstka adekwatne do jego

podparcia po tej stronie. Wzrost nasady bliższej kości promieniowej jest prawidłowy. Niedorozwój kciuka jest prawie zawsze obecny.

Obecnie większość autorów uważa, iż w każdym typie wrodzonego braku kości promieniowej występuje różnie nasilony niedorozwój kciuka (9,22,27,29).

Typ II. (B) **Niedorozwój kości promieniowej.** Zachowane są obie nasady kości promieniowej (bliższa i dalsza), których wzrost jest nieprawidłowy. Typ ten nazywany jest kością promieniową w miniaturze. Wzrost kości promieniowej zachodzi w wolniejszym tempie.

Typ III. (C) **Częściowy brak kości promieniowej.** Kość promieniowa jest częściowo nieobecna. Defekt ten może występować proksymalnie, centralnie lub dystalnie. Opisywano występowanie wszystkich typów, jednak najczęstszy jest brak $\frac{1}{3}$ do $\frac{2}{3}$ części dalszej kości promieniowej. Ręka jest przemieszczona dłoniowo. Kość łokciowa jest pogrubiała, skrócona i zagięta promieniowo, a nadgarstek jest niepodparty.

Typ IV. (D) **Całkowity brak kości promieniowej.** Jest to najczęstszy typ wrodzonego braku kości promieniowej. Ręka jest niepodparta i zwykle poważnie przemieszczona promieniowo (5).

Prawidłowe rozpoznanie wrodzonego braku kości promieniowej typu I może nastręczać nie lada trudności. W związku z tym określono minimalną wielkość skrócenia nasady dalszej kości promieniowej w stosunku do nasady dalszej kości łokciowej na ponad 2 mm. W przypadku takiego skrócenia rozpoznajemy typ I wady, a nie np. izolowaną hipoplazję kciuka. Ocenę taką wykonuje się na podstawie zdjęć RTG nadgarstka w projekcji AP (22).

Obecnie coraz częściej spotyka się klasyfikacje wrodzonego braku kości promieniowej obejmujące poza oceną niedoboru długości kości promieniowej pozostałe jego cechy charakterystyczne, jak niedorozwój nadgarstka i kciuka. Najbardziej rozpowszechnioną wśród nich jest zmodyfikowana klasyfikacja zaproponowana przez Jamesa, McCarrolla i Manskego w 1999 roku (22).

Metody leczenia

W leczeniu wrodzonego braku kości promieniowej stosuje się leczenie zachowawcze i operacyjne. Leczenie zachowawcze zarezerwowane jest przede wszystkim dla pacjentów z niewielką deformacją i stabilnymi stawami, choć także pacjenci z poważnymi zniekształceniami i/lub towarzyszącymi wadami wykluczającymi operacje bywają nim objęci. Polega ono głównie na rozciąganiu napiętych tkanek miękkich po stronie odpromieniowej nadgarstka i utrzymaniu uzyskanej korekcji za pomocą szyn i ortez. Celem tego leczenia jest bierna korekcja ustawienia nadgarstka zapobiegająca jego nekorygowalnemu przykurczowi. Optymalna częstotliwość oraz czas trwania redresji nie została dotychczas ustalona. Niektórzy autorzy uważają, iż leczenie zachowawcze jest całkowicie nieskuteczne i należy je traktować jedynie jako przygotowanie do leczenia operacyjnego (9,27,40).

Bezwzględny przeciwwskazaniem do rekonstrukcji operacyjnej są:

- ustalony wzór funkcjonalnej kompensacji u osób dorosłych lub starszych dzieci
- niewielkie zniekształcenia z dobrą funkcją i wyglądem
- wady towarzyszące wykluczające możliwość bezpiecznej operacji
- obustronny przykurcz wyprostny stawów łokciowych (pacjenci, u których niezbędne jest zgięcie dłoniowe nadgarstka i promieniowe odchylenie rąk w celu osiągnięcia do twarzy)

Jednostronny przykurcz wyprostny stawu łokciowego jest względnym przeciwwskazaniem do leczenia rekonstrukcyjnego (27,31).

Standardem leczenia operacyjnego jest centralizacja nadgarstka na końcu dalszym kości łokciowej. Jako pierwszy tę metodę leczenia opisał Sayre w 1893 roku. Technika ta wymagała zaostżenia końca dalszego kości łokciowej, a następnie wprowadzenia go w łożę przygotowaną w obrębie kości nadgarstka.

Postępowanie takie uniemożliwiało dalszy wzrost końca dystalnego kości łokciowej z powodu jatrogennego uszkodzenia chrząstki nasadowej. W 1969 roku Lidge zaproponował modyfikację techniki Sayre'a oszczędzającą nasadę dalszą kości łokciowej. Nadal jednak dla utrzymania korekcji wykonywał on w nadgarstku łożę. Technikę tę z dobrymi rezultatami stosowali Lamb oraz Bora. W latach 80 ubiegłego wieku pojawiła się za sprawą Watsona, Buck-Gramcko oraz Bayne'a i Kluga idea wykonywania centralizacji bez umieszczania końca dalszego kości łokciowej w łoży wykonanej w obrębie kości nadgarstka. Technika ta jest obecnie powszechnie stosowana (7,9,13,16,25,26,37,41,47,48).

Kolejną metodą leczenia będącą istotną modyfikacją centralizacji jest radializacja. Technika ta w swoim zamyśle ma doprowadzić do przekorygowania ustawienia nadgarstka w stosunku do końca dalszego kości łokciowej. Podczas gdy w przypadku centralizacji koniec dystalny kości łokciowej leży w jednej linii z kością śródręcza palca długiego, w przypadku radializacji ten sam koniec kości łokciowej ustawiany jest w jednej osi z położoną bardziej odpromieniowo kością śródręcza palca wskazującego. Stabilizacja w przypadku obu metod opiera się na drucie Kirschnera lub pręcie Steinmanna. W przypadku radializacji ważne jest nie tylko przekorygowanie ustawienia nadgarstka lecz także wykonanie transferów mięśniowych. Wszystkie mięśnie mogące nasilać promieniowe odchylenie nadgarstka tj. FCR, BR oraz ECRL i ECRB zostają przeniesione na stronę odłokciową osi przedramię-ręka. W swoim założeniu ta kosztna hiperkorekcja ustawienia nadgarstka razem ze sztucznie stworzoną dźwignią mięśniową działającą na stronę odłokciową nadgarstka ma ograniczać nawrót deformacji polegającej na odchylaniu się nadgarstka w stronę odpromieniową (10). Do chwili obecnej radializacja uważana jest za metodę równorzędną, w przypadku długotrwałej korekcji ustawienia nadgarstka we wrodzonym braku kości promieniowej, w porównaniu do centralizacji (49).

Po wykonanej centralizacji dalsza korekcja kątowna może zostać przeprowadzona np. za pomocą osteotomii łukowato zagiętej kości łokciowej, wykonywanej na szczycie deformacji. Zagięcia kątowe powyżej 30° są podatne na osteotomie zamykającego klina, ze stabilizacją osiowo wprowadzonym drutem Kirschnera (25,48). Osteotomia kości łokciowej daje znaczącą korekcję oraz poprawia wygląd estetyczny zagiętego przedramienia, nie wpływając niekorzystnie na zwiększenie częstości nawrotów deformacji (49).

Pacjenci z wrodzonym brakiem kości promieniowej borykają się także z niedorozwojem kciuka występującym w różnym stopniu nasilenia. Chorzy z niedorozwojem typu I wg Blautha posiadają stabilny i funkcjonalny kciuk często nie wymagający interwencji chirurgicznej (52,53,54). Anatomiczna rekonstrukcja hipoplastycznego kciuka jest właściwym postępowaniem u dzieci, które demonstrują funkcjonalnie wykorzystanie tego palca. Ponadto rekonstrukcja zachowując pięciopalczystą rękę daje potencjalną możliwość na wieloosiową rotację na wysokości stawu nadgarstkowo-śródręcznego I. Uzyskanie takiej funkcji jest nieosiągalne chirurgicznie po amputacji hipoplastycznego kciuka i policyzacji palca wskazującego (27). Pacjenci z niedorozwojem kciuka typu II wg Blautha posiadają wszystkie elementy szkieletu kostnego hipoplastycznego kciuka z niedorozwojem mięśni kłębku, niestabilnością na wysokości stawu śródręczno-paliczkowego I oraz różnego stopnia spłyceniem pierwszej przestrzeni międzykostnej. Rekonstrukcja chirurgiczna dotyczy każdego z tych problemów i składa się z opponensoplastyki, stabilizacji stawu śródręczno-paliczkowego I oraz pogłębienia pierwszej przestrzeni międzykostnej (53,54). Chorzy z hipoplazją kciuka typu IIIA wg Blautha posiadają stabilny staw nadgarstkowo-śródręczny I i są uważani za kandydatów do rekonstrukcji bardziej niż amputacji. W typie tym występują charakterystyczne dla typu II niedobory rekonstruowane w sposób wymieniony powyżej, łącznie z dodatkowymi nieprawidłowościami dotyczącymi

mięśni zewnętrznych kciuka, które leczone są odpowiednio do ich manifestacji klinicznej (52,53,54).

Pacjenci z typem IIIB i IV hipoplazji kciuka wg Blautha posiadają bardzo słabą reprezentację korową swoich kciuków. Rekonstrukcja w tych przypadkach może poprawić jedynie wygląd, ale nie poprawi funkcji ignorowanego przez ośrodkowy układ nerwowy palca. Z czasem kciuk ten stanie się jedynie problemem dla pacjenta (52,53,54). Rozwiązaniem wydaje się amputacja i policyzacja palca promieniowego. Policyzacja jest też leczeniem z wyboru w przypadku typu V hipoplazji kciuka (całkowity brak) wg Blautha. Aspekty techniczne tej wymagającej procedury zostały obszernie opisane, a jej wyniki zależą w dużym stopniu od stanu przedoperacyjnego policyzowanego palca (9,36,54). Sztywność palca wskazującego występuje często u pacjentów z towarzyszącym wrodzonym brakiem kości promieniowej. Ponad 20 letnie obserwacje wskazują gorsze wyniki policyzacji u pacjentów w tej grupie (55).

ZAŁOŻENIA I CELE PRACY

Na podstawie analizy piśmiennictwa opierającego się często na niewielkim materiale, w porównaniu z materiałem Katedry i Kliniki Traumatologii, Ortopedii i Chirurgii Ręki UM im. Karola Marcinkowskiego w Poznaniu i wynikających z tego opracowaniach statystycznych o małej wartości naukowej, postanowiłem przyrzeć się problemowi wydłużania kości łokciowej we wrodzonym braku kości promieniowej.

Najważniejsze w ocenie skuteczności danej metody leczenia są wieloletnie doświadczenia. Dotychczasowe publikacje oceniające wyniki wydłużania kości łokciowej we wrodzonym braku kości promieniowej opierają się jedynie na małych grupach badanych (34,35,38,51).

Opublikowane dotychczas wyniki nie dostarczają jednoznacznych wniosków, czy kończyny, w obrębie których wykonywano wydłużanie kości łokciowej oraz inne korekcyjne procedury operacyjne, jak: centralizacja, radializacja, dystrakcja tkanek miękkich czy osteotomia klinowa, osiągają ostatecznie większą długość kości łokciowej niż kończyny, w obrębie których procedury wydłużania nie wykonywano.

Założenia pracy

1. wydłużanie jest dobrą metodą leczenia deficytu długości kości łokciowej we wrodzonym braku kości promieniowej
2. występują różnice między długościami kości łokciowych, w obrębie których wykonywano i nie wykonywano procedury wydłużania, łącznie z innymi operacjami korekcyjnymi

Cele pracy

1. zbadanie skuteczności wydłużania kości łokciowej we wrodzonym braku kości promieniowej
2. określenie liczby i jakości powikłań występujących podczas wydłużania
3. porównanie wpływu wydłużania kości łokciowej lub jego braku na końcową długość kości łokciowej

MATERIAŁ I METODYKA

Materiał

Oceny dokonano na podstawie danych klinicznych i zdjęć rentgenowskich pacjentów leczonych z powodu wrodzonego braku kości promieniowej w Katedrze i Klinice Traumatologii, Ortopedii i Chirurgii Ręki UM im. Karola Marcinkowskiego w Poznaniu między rokiem 1955 a 2010.

Materiał obejmuje 44 kończyny górne, z rozpoznaniem typu III i IV wrodzonego braku kości promieniowej według klasyfikacji Bayne'a i Kluga. Ocenie poddano zdeformowane kończyny pacjentów po ukończeniu przez nich 3 roku życia, w związku z opóźnioną osyfikacją mogącą w przypadku wcześniejszej ewaluacji zafałszować ilościowy stosunek między oboma typami wady (45). Nie oceniano kończyn pacjentów po ukończeniu przez nich 18 roku życia.

Materiał podzielony został na dwie grupy:

- A . grupa, w której procedurę wydłużania kości łokciowej badanej kończyny wykonano jednokrotnie (razem z innymi korygującymi procedurami operacyjnymi) – **grupa badana**
- B . grupa, w której jako metody leczenia nie stosowano wydłużania kości łokciowej, lecz inne procedury operacyjne – **grupa kontrolna**

Grupa badana zawiera 22 kończyny górne (20 pacjentów, 8 kobiet oraz 12 mężczyzn), w obrębie których wykonywano procedurę wydłużania w wieku między 3,41 a 15,38 lat, ze średnią wartością $8,81 \pm 3,83$ lat. Procedury wydłużania kości łokciowych wykonywane były w latach 1990 – 2010. Ocenie poddano 5 kończyn górnych lewych oraz 17 prawych. W skład grupy badanej weszły 3 kończyny z

typem III wady oraz 19 kończyn z typem IV wrodzonego braku kości promieniowej. W grupie badanej wada ta występowała w 16 przypadkach jednostronnie oraz w 4 przypadkach obustronnie. W dwóch przypadkach procedurę wydłużania oceniano obustronnie. Pozostałe dwie nieanalizowane strony obustronnej wady to w jednym przypadku typ I, a w drugim niewydłużany typ IV, który włączony został w skład populacji z której wyłoniono grupę kontrolną. W grupie badanej 5 spośród 20 pacjentów miało rozpoznane zespoły wad wrodzonych, były to: zespół Holt–Oram (2 pacjentów), zespół Nager (1 pacjent), zespół TAR (1 pacjent) oraz zespół Klippel–Feila (1 pacjent).

Grupa kontrolna została wyłoniona z populacji 46 kończyn z wrodzonym brakiem kości promieniowej typ III i IV, u których wykonano od 2 do 12 pomiarów zdjęć RTG (wszystkie prawidłowo wykonane zdjęcia w projekcji bocznej dostępne w dokumentacji dla każdej z kończyn) mieszczących się w przedziale wiekowym grupy badanej (celem porównania grup między sobą), to jest między 3,41 a 18 lat. Jako metody leczenia w tej grupie nie stosowano wydłużania kości łokciowej. Spośród tej populacji wylosowano 22 przypadki (po 1 zdjęciu RTG dla 1 kończyny), które poddano analizie w badaniu własnym. W celu przydziału do grupy kontrolnej zastosowano procedurę losowego przydziału do grupy z wykorzystaniem tabeli liczb losowych wg Brzezińskiego (50).

Metodyka

Ocena grupy badanej, w której procedurę wydłużania kości łokciowej wykonano jednokrotnie (razem z innymi korekcyjnymi procedurami operacyjnymi) została przeprowadzona na podstawie następujących znanych z literatury (2,16,17,28,30,34,35,38,51) parametrów:

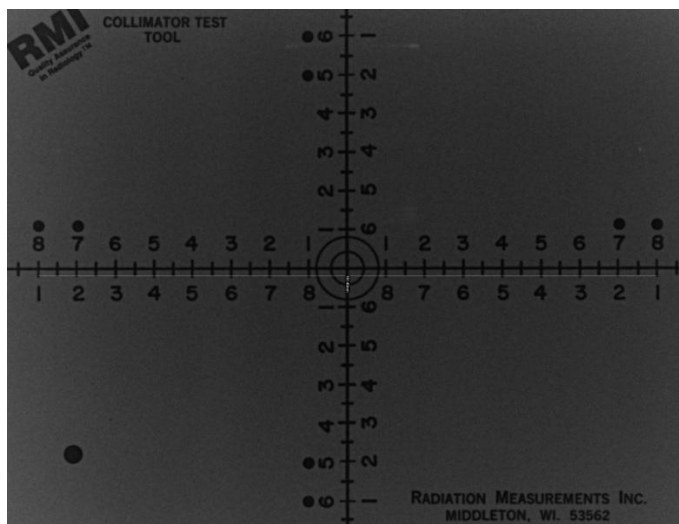
- długość początkowa [mm] – (długość kości łokciowej przed wydłużeniem)

- długość końcowa [mm] – (długość kości łokciowej po wydłużeniu)
- wydłużenie [mm] = długość końcowa – długość początkowa
- okres latencji [dzień] – (czas między założeniem dystraktora a rozpoczęciem wydłużania kości)
- % przyrostu długości = $(\text{wydłużenie} / \text{długość początkowa}) \cdot 100\%$ – (parametr ten określa jaki procent pierwotnej długości badanej kości stanowi uzyskane wydłużenie)
- całkowity okres stabilizacji [miesiąc] – (czas pomiędzy założeniem a usunięciem aparatu dystrakcyjnego)
- współczynnik gojenia [miesiąc/cm] = $(\text{całkowity okres stabilizacji} / 30) / \text{wydłużenie w cm}$ – (jest to parametr opisujący ile czasu w miesiącach potrzeba do uzyskania wydłużenia kości o 1 cm)

Pomiar długości

Długość kości łokciowej oceniano na podstawie prawidłowo wykonanych zdjęć rentgenowskich w projekcji bocznej. Dla każdej kończyny z grupy badanej dokonano pomiaru dwóch zdjęć przed i po wydłużaniu, zdjęcia te musiały być wykonane do 7 dni przed założeniem jak i usunięciem aparatu dystrakcyjnego. Podczas wykonywania wszystkich zmierzonych zdjęć RTG przedramię spoczywało bezpośrednio na kasecie z kliszą, a odległość lampy od kasety wynosiła od 800 do 1000 mm.

Na podstawie wykonanych zdjęć kontrolnych z zastosowaniem matrycy pomiarowej spoczywającej bezpośrednio na kasecie z kliszą, otrzymano następujące powiększenia geometryczne zdjęć rentgenowskich dla długości matrycy równej 160 mm:

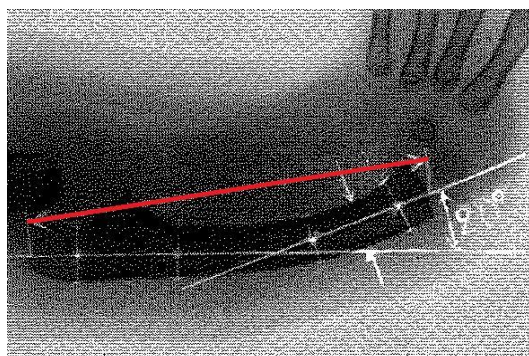


Rycina 5. Zdjęcie rentgenowskie matrycy pomiarowej

- 161,3 mm dla zdjęcia wykonanego z odległości, między kasetą z kliszą a lampą rentgenowską wynoszącej 500 mm
- 160,4 mm dla zdjęcia wykonanego z odległości, między kasetą z kliszą a lampą rentgenowską wynoszącej 1000 mm
- 160,3 mm dla zdjęcia wykonanego z odległości, między kasetą z kliszą a lampą rentgenowską wynoszącej 1400 mm

W związku z powyższymi pomiarami przyjęto, iż dla odległości między kasetą z kliszą a lampą rentgenowską mieszczącą się w granicach między 800 a 1000 mm (dystans z jakiego były wykonywane wszystkie analizowane zdjęcia) oraz faktu, iż prześwietlane przedramię spoczywa bezpośrednio na kasecie (tak jak matryca pomiarowa), uzyskiwane powiększenia geometryczne mieszczą się w granicach błędu pomiarowego i można je pominąć. Gdyby rozważyć to bardzo dokładnie, to tak naprawdę fotografowana kość oddalona jest od matrycy pomiarowej o grubość tkanek miękkich oraz grubość jej samej. Na podstawie pracy Conna (12), powiększenie geometryczne w takim przypadku wynosi około 1% do 2% długości fotografowanej kości i także zawiera się w błędzie metody pomiaru opisanej poniżej.

Pomiary długości kości łokciowych wykonano w sposób opisany w pracy Heikela z 1959 roku. Zaproponował on wyznaczenie na zdjęciu rentgenowskim



Rycina 6. Sposób pomiaru długości kości łokciowej zaproponowany przez Heikela (18)

następujących linii. Dwóch prostych między zewnętrznymi obrysami warstw korowych końca bliższego kości łokciowej, pierwszej w miejscu najniższego punktu wcięcia łokciowego, drugiej ku przodowi od wyrostka dziobiastego kości łokciowej. Przez środki tych linii przebiega oś części bliższej kości łokciowej. W analogiczny sposób Heikel wyznaczał dwie linie w części dystalnej kości łokciowej, których lokalizację wybierał przypadkowo. Środki tych linii wyznaczają oś części dystalnej kości łokciowej. Długością kości łokciowej (która w rzeczywistości jest długością funkcjonalną a nie bezwzględną) określił on odcinek zawarty między punktami przecięcia osi części proksymalnej kości łokciowej z jej końcem bliższym oraz osi części dystalnej kości łokciowej z jej końcem dalszym (kolor czerwony) (18).

W pracy korzystano z programu OrthoView w wersji licencjonowanej przez ORSK im. W. Degi w Poznaniu, który to program posłużył do wykonania pomiarów w sposób powtarzalny. Wszystkie zdjęcia rentgenowskie na podstawie, których wykonywano pomiary były skanowane z użyciem dedykowanego do klisz RTG skanera w jednakowej rozdzielczości (150 dpi), po uprzednim naniesieniu na nie 100 mm odcinka służącego do skalowania. Maksymalne dostępne w programie powiększenie stosowane było podczas wykonywania pomiarów, co pozwoliło na

zmniejszenie błędu pierwotnie wynikającego z nanoszenia odcinka skalującego linijką, jego pomiaru kalibracyjnego oraz ostatecznego pomiaru długości.

Ocena trudności występujących podczas wydłużania

Trudności występujące podczas całkowitego okresu stabilizacji w przypadku wydłużania kończyn, podzielone zostały według zaproponowanej przez Paleya w 1990 roku klasyfikacji na:

- **problemy** – są to trudności usuwane nieoperacyjnie przed zakończeniem wydłużania np. korekcja osi
- **przeszkody** – są to trudności wymagające dla ich usunięcia interwencji operacyjnej np. przedwczesny wzrost kostny
- **komplikacje** – są to trudności śródoperacyjne oraz problemy nierozwiązywalne przed zakończeniem wydłużania np. staw rzekomy

Do komplikacji Paley zaliczył także, tzw. późne komplikacje powodujące niemożność utrzymania osiągniętego wydłużenia jak np. zagięcie osi w miejscu nowo powstałej kości czy refraktura. Podział Paleya wprowadzony został w celu umożliwienia porównania wyników otrzymywanych przez niezależnych badaczy (32).

Analiza statystyczna

Otrzymane wyniki poddane zostały analizie statystycznej z użyciem programu IBM SPSS 19.0 PL. Wybór odpowiednich testów uzależniony był od skali, na której opisane były analizowane zmienne, charakteru rozkładu wyników oraz ich ewentualnych powiązań.

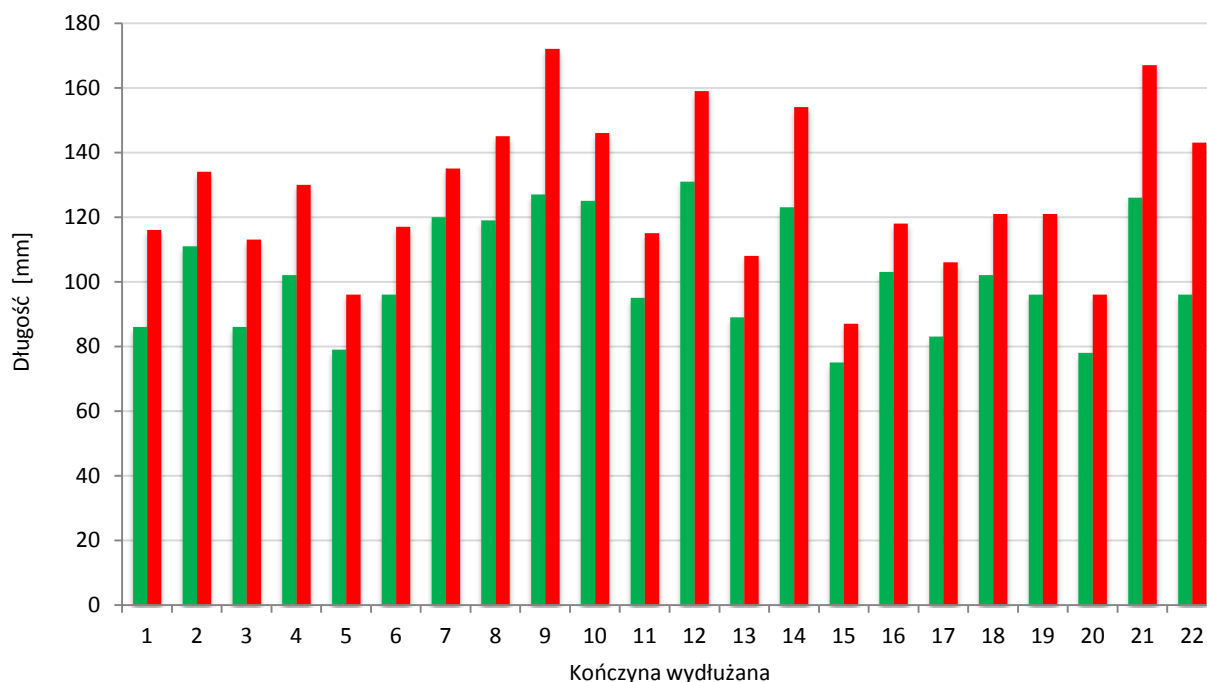
Zbadano istnienie różnic między istotnymi zmiennymi w obrębie grupy badanej oraz między grupą badaną i kontrolną. Określono także istnienie ewentualnych korelacji pomiędzy zmiennymi.

Cechy ilościowe opisano za pomocą średniej i odchylenia standardowego (SD). Przedział ufności, przy którym wynik został uznany za istotny statystycznie przyjęty został dla $p < 0,05$.

WYNIKI BADAŃ

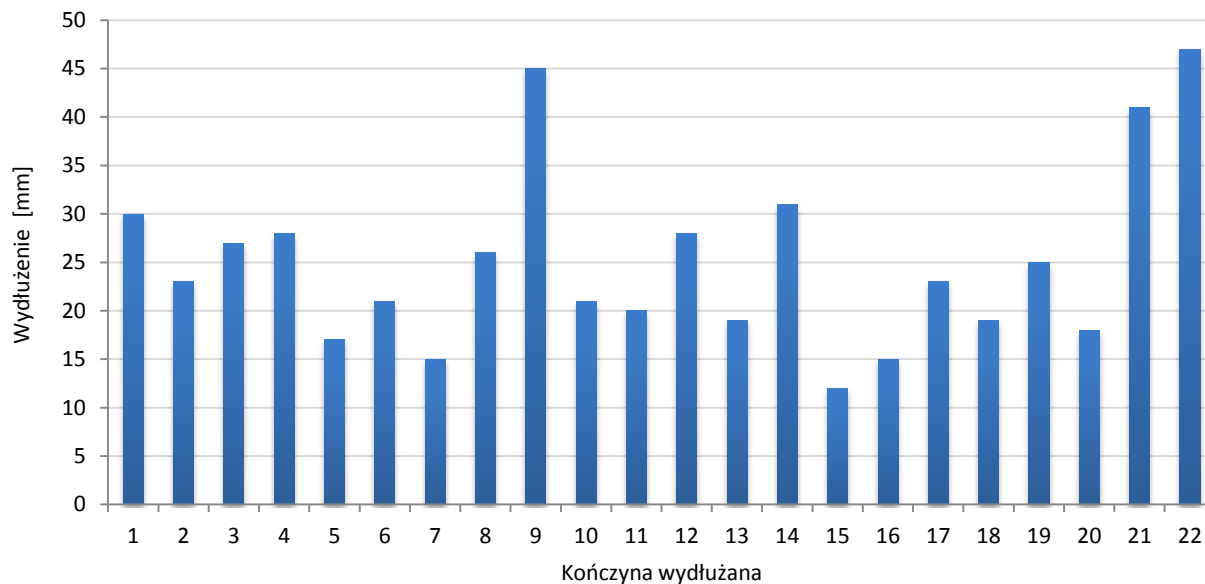
Grupa badana

Poniższa rycina przedstawia wartości długości początkowych i końcowych 22 kości łokciowych, w obrębie których wykonano procedurę wydłużania. Wartości długości początkowych zawierają się w przedziale od 75 mm do 131 mm, ze średnią wartością długości początkowej wynoszącą $102,18 \pm 17,91$ mm.



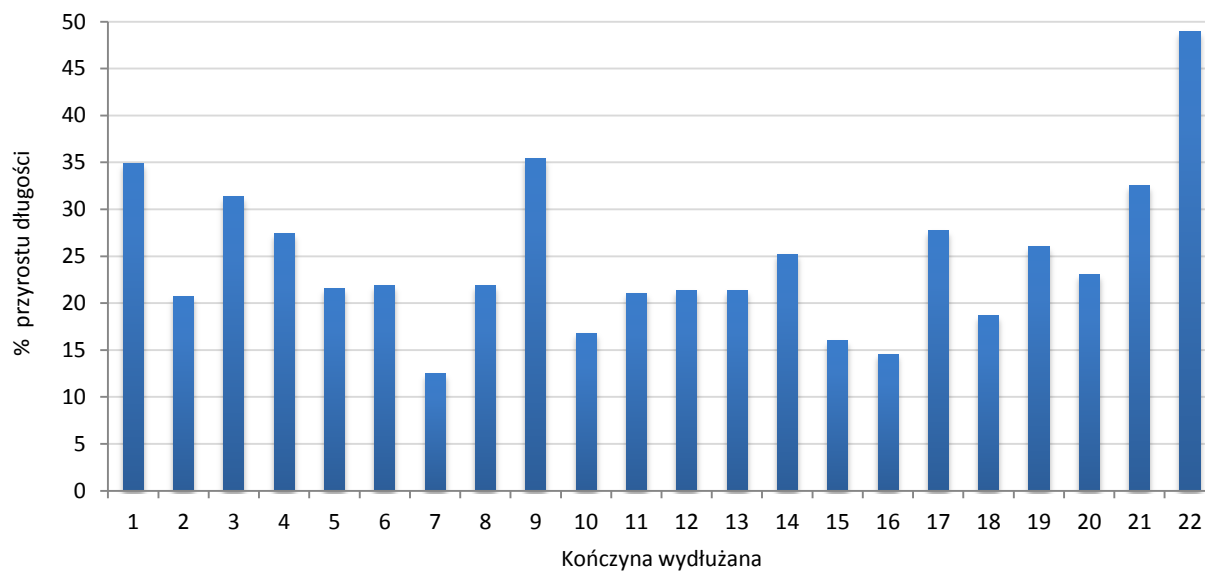
Rycina 7. Wartości długości początkowych (przed wydłużaniem) kości łokciowych (kolor zielony) oraz wartości długości końcowych (po wydłużaniu) kości łokciowych (kolor czerwony)

Wartości długości końcowych mieszczą się w przedziale od 87 mm do 172 mm, ze średnią wartością długości końcowej wynoszącą $127,23 \pm 23,38$ mm. Na ryc. 8 przedstawiono wartości wydłużeń 22 kości łokciowych. Wartości te zawierają się w przedziale między 12 mm a 47 mm, ze średnią wartością wydłużenia wynoszącą $25,05 \pm 9,37$ mm.



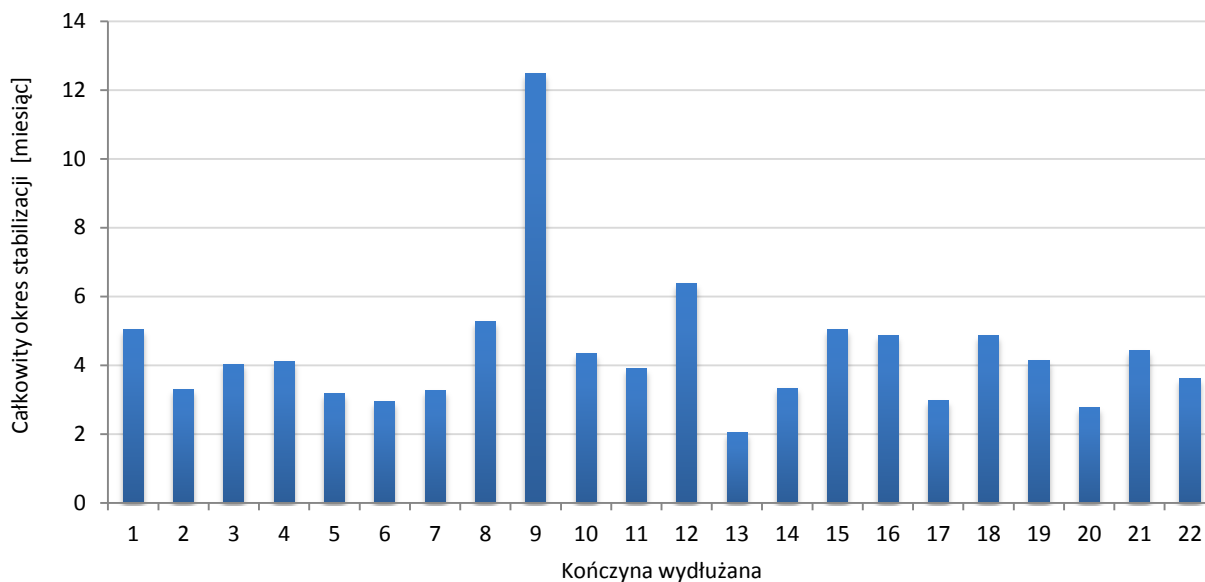
Rycina 8. Wartości wydłużeń kości łokciowych

Wartości przedstawione na powyższej rycinie stanowią następujący (przedstawiony poniżej) procent przyrostu długości początkowej wydłużanych kości łokciowych.



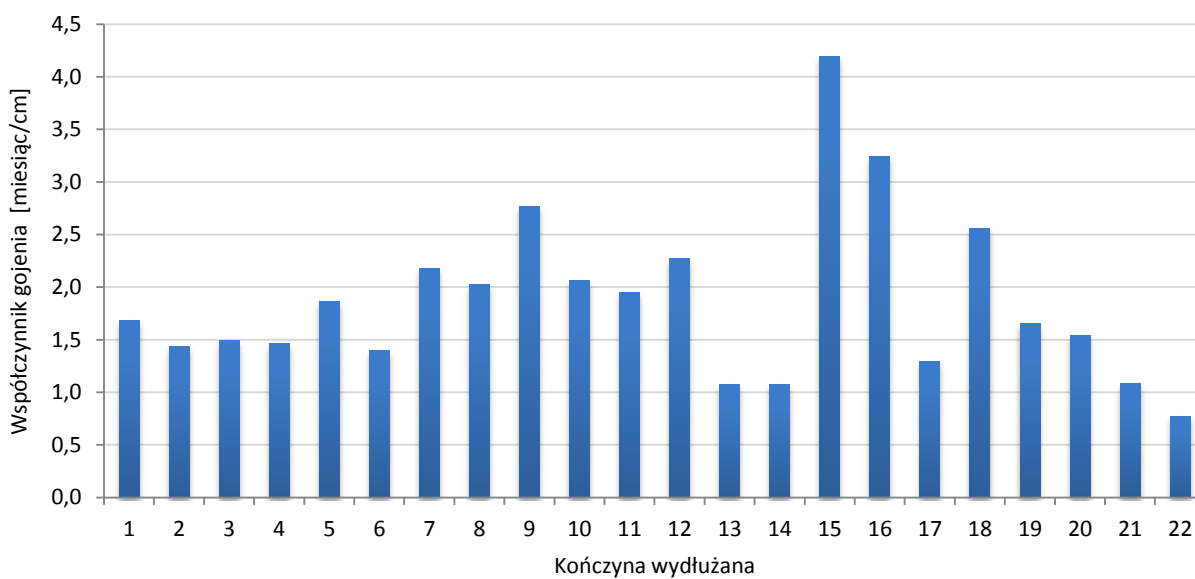
Rycina 9. Procent przyrostu długości początkowej wydłużanych kości łokciowych

Procent ten zawiera się w przedziale od 12,50% do 48,96%, ze średnią wartością wynoszącą $24,59 \pm 8,28\%$.



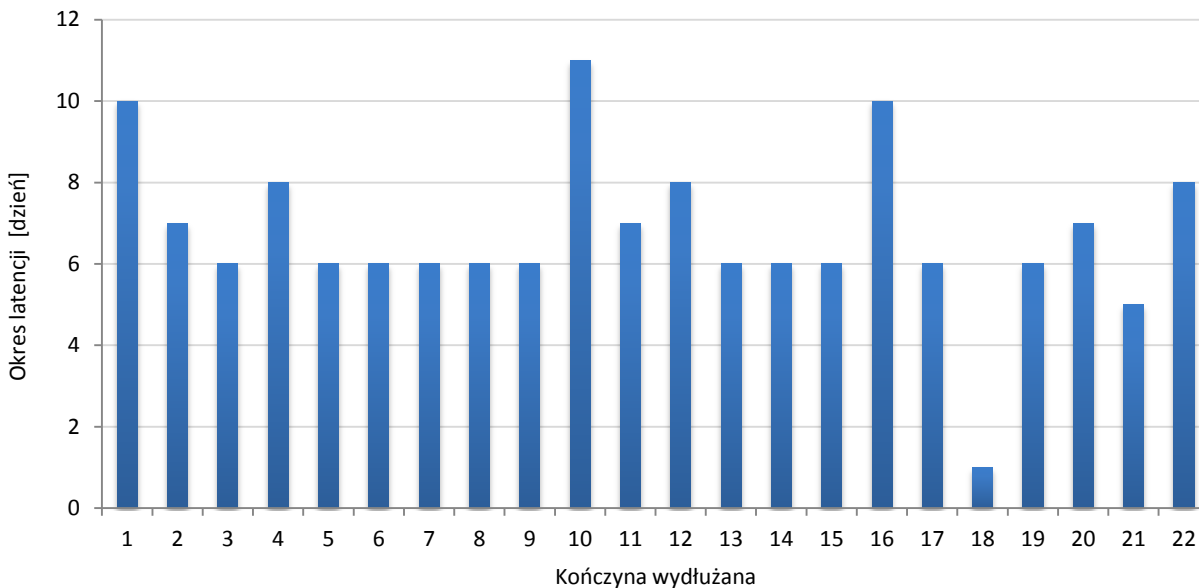
Rycina 10. Całkowity okres stabilizacji wydłużanych kości łokciowych

Całkowity okres stabilizacji mieści się w przedziale od 2,03 do 12,47 miesiąca, ze średnią wartością wynoszącą $4,37 \pm 2,07$ miesiąca.



Rycina 11. Współczynnik gojenia wydłużanych kości łokciowych

Współczynnik gojenia, parametr opisujący ile czasu (w miesiącach) zajmuje wydłużenie kości o 1 cm, wyniósł od 0,77 do 4,19 miesiąca/cm, ze średnią wartością współczynnika gojenia wynoszącą $1,87 \pm 0,79$ miesiąca/cm.



Rycina 12. Wartości okresu latencji wydłużanych kości łokciowych

Okres latencji, czas między założeniem aparatu dystrykcyjnego, a rozpoczęciem wydłużania zawiera się w przedziale między 1 a 11 dniami. Średnia wartość okresu latencji wyniosła $6,73 \pm 2,03$ dnia.

Tabela 1. Tabela podsumowująca statystyki opisowe zmiennych grupy badanej

Zmienna	n	Minimum	Maksimum	Mediana	Średnia	SD	Z	P
Długość początkowa [mm]	22	75	131	99	102,18	17,91	0,68	,750
Długość końcowa [mm]	22	87	172	121	127,23	23,38	0,71	,702
Wydłużenie [mm]	22	12	47	23	25,05	9,37	0,70	,713
% przyrostu długości	22	12,50	48,96	21,86	24,59	8,28	0,82	,519
Całkowity okres stabilizacji [miesiąc]	22	2,03	12,47	4,07	4,37	2,07	1,13	,153
Współczynnik gojenia [miesiąc/cm]	22	0,77	4,19	1,67	1,87	0,79	0,65	,790
Okres latencji [dzień]	22	1	11	6	6,73	2,03	1,26	,083

Rozkład powyższych zmiennych ilościowych istotnie nie różni się od rozkładu normalnego (test Kołmogorowa–Smirnowa), świadczy to o tym iż grupa badana jest grupą reprezentatywną z populacji chorych z wrodzonym brakiem kości promieniowej typ III i IV, u których jako jedną z metod leczenia operacyjnego było wydłużanie kości łokciowej.

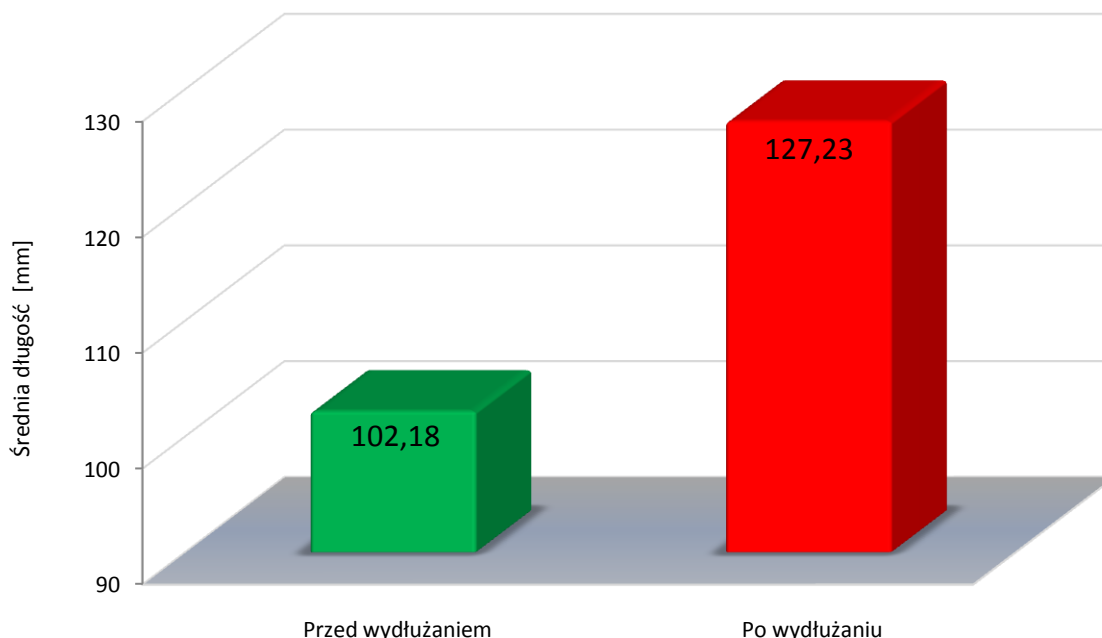
Tabela 2. Porównanie wartości zmiennych między typem III i IV wrodzonego braku kości promieniowej w grupie badanej

Zmienna	Typ wrodzonego braku kości promieniowej		Testy różnic	
	III	IV	Z	P
	Mediana	Mediana		
Długość początkowa [mm]	86	102	0,77	,443
Długość końcowa [mm]	116	121	0,72	,473
Wydłużenie [mm]	23	23	0,24	,811
% przyrostu długości	27,71	21,85	0,34	,738
Całkowity okres stabilizacji [miesiąc]	3,27	4,10	0,57	,566
Współczynnik gojenia [miesiąc/cm]	1,68	1,65	0,05	,962
Okres latencji [dzień]	6	6	0,21	,838

Tabela 3. Porównanie wartości zmiennych między stroną L i P w grupie badanej

Zmienna	Strona wrodzonego braku kości promieniowej		Testy różnic	
	L	P	Z	p
	Mediana	Mediana		
Długość początkowa [mm]	111	96	0,38	,705
Długość końcowa [mm]	134	121	0,38	,705
Wydłużenie [mm]	28	21	0,13	,900
% przyrostu długości	27,71	21,85	0,50	,614
Całkowity okres stabilizacji [miesiąc]	5,03	4,03	1,14	,256
Współczynnik gojenia [miesiąc/cm]	1,68	1,65	1,01	,313
Okres latencji [dzień]	7	6	0,07	,946

Porównywane grupy wyłonione w obrębie grupy badanej (tab. 2 i 3) są nierówno liczne, zarówno pod względem typów jak i stron deformacji. Porównania między nimi wykonane zostały testem nieparametrycznym Manna–Whitneya. Nie zauważono istotnych statystycznie różnic między zmiennymi w zależności od typu jak i strony występowania wrodzonego braku kości promieniowej.



Rycina 13. Średnia długość kości łokciowych przed wydłużaniem i po wydłużaniu w grupie badanej

Tabela 4. Tabela przedstawiająca różnicę średnich długości kości łokciowych przed i po wydłużaniu w obrębie grupy badanej

Parametr	Pomiar		Test różnicy		
	Przed wydłużaniem	Po wydłużaniu	t	df	p
	Średnia ± SD	Średnia ± SD			
Długość kości łokciowej	102,18 ± 17,91	127,23 ± 23,38	12,54	21	,000

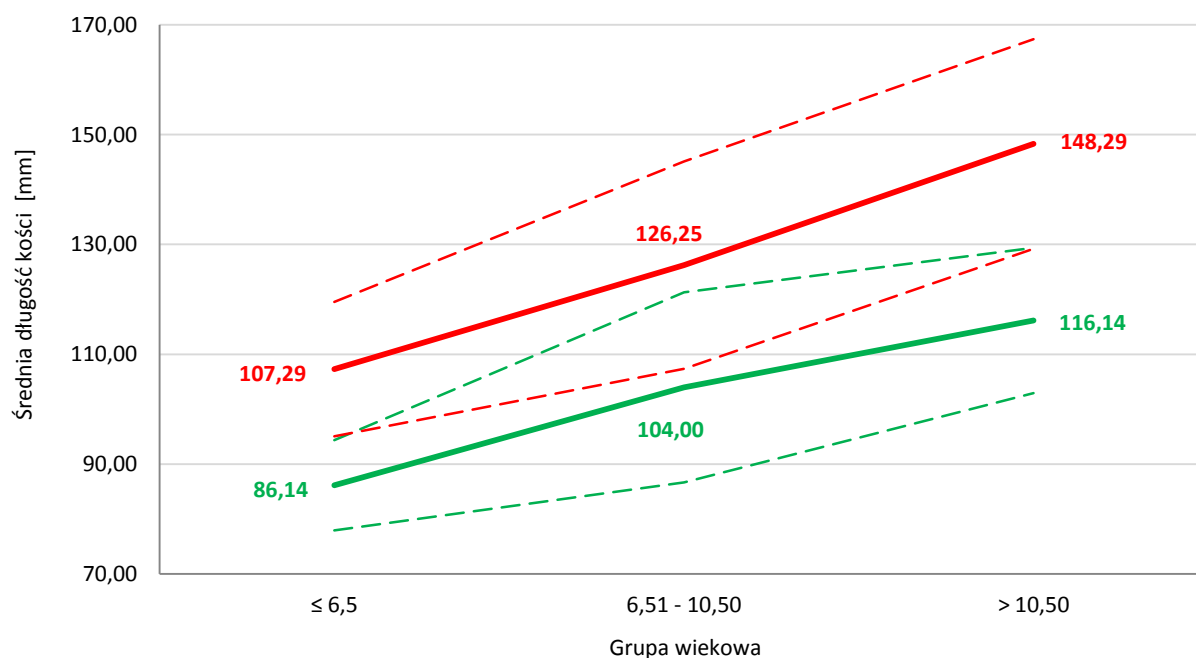
Sprawdzenie istotności przyrostu długości kości łokciowych przed wydłużaniem do długości kości łokciowych po wydłużaniu wykonano testem t–Studenta dla prób

zależnych. Odnotowano istotną statystycznie różnicę średnich długości kości łokciowych przed i po wydłużaniu w obrębie grupy badanej.

Wyłoniono następnie w obrębie grupy badanej 3 grupy wiekowe pod kątem liczebności:

- $\leq 6,50$ lat (n=7)
- 6,51 – 10,50 (n=8)
- $> 10,50$ (n=7)

Otrzymano następujące, przedstawione na ryc. 14 średnie długości kości łokciowych przed wydłużaniem i po wydłużaniu w opisanych grupach wiekowych.



Rycina 14. Średnia długość kości łokciowych w grupie badanej przed wydłużaniem (kolor zielony) oraz po wydłużaniu (kolor czerwony) w trzech grupach wiekowych

W obrębie powyższych grup wiekowych dokonano sprawdzenia istotności przyrostu długości kości łokciowych przed wydłużaniem do długości kości łokciowych po wydłużaniu. W tym celu zastosowano analizę wariancji w planie mieszanym 2 x 3. Porównania wewnątrzgrupowe mierzone na 2 poziomach (pomiar

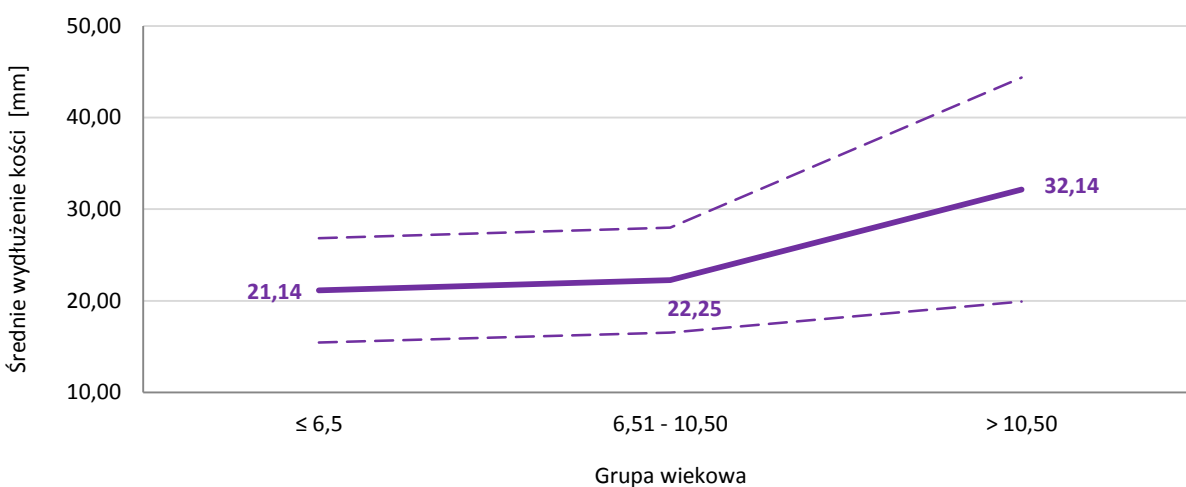
przed i po wydłużaniu) w stosunku do porównania międzygrupowego mierzonego na 3 poziomach (3 grupy wiekowe).

Tabela 5. Analiza wariancji w planie mieszanym 2 x 3 (przed i po wydłużaniu w stosunku do trzech grup wiekowych)

Grupa wiekowa	Pomiar				Porównanie między pomiarami		
	Przed wydłużaniem		Po wydłużaniu		F	df	p
	Średnia	SD	Średnia	SD			
≤ 6,5	86,14 c	8,19	107,29 c	12,24	45,00	1,19	,000
6,51 - 10,50	104,00 b	17,30	126,25 b	18,88	56,96	1,19	,000
> 10,50	116,14 a	13,22	148,29 a	19,09	104,00	1,19	,000
Porównania między grupami wiekowymi	F (2,19) = 8,55; p < 0,01		F (2,19) = 10,03; p < 0,01				

Porównania wielokrotne z poprawką Bonferroniego: a = a, b = b, c = c; a > b > c

Kolejną analizę jaką wykonano, to jednoczynnikowa analiza wariancji, sprawdzająca istotność wskaźników wydłużenia kości łokciowej między trzema grupami wiekowymi grupy badanej. Analiza ta ma pokazać czy w którejś z wyłonionych grup wiekowych istnieje istotnie większy statystycznie przyrost wydłużenia w stosunku do pozostałych grup.



Rycina 15. Średnie wydłużenie kości łokciowej w trzech grupach wiekowych grupy badanej

Tabela 6. Jednoczynnikowa analiza wariancji (wydłużenie w trzech zdefiniowanych grupach wiekowych grupy badanej)

Zmienna	Grupa wiekowa						F	df	p
	≤ 6,5		6,51 - 10,50		> 10,50				
	Średnia	SD	Średnia	SD	Średnia	SD			
Wydłużenie [mm]*	21,14 b	5,70	22,25 b	5,73	32,14 a	12,23	3,75	2,19	,042
% przyrost długości	24,42	5,94	21,82	6,07	27,92	11,76	1,02	2,19	,380
Całkowity okres stabilizacji [miesiąc]	3,56	1,18	3,88	,59	5,76	3,13	2,73	2,19	,090
Współczynnik gojenia [miesiąc/cm]	1,83	1,06	1,83	,47	1,94	,90	,25	2,19	,782
Okres latencji [dzień]	6,71	1,50	6,38	2,77	7,14	1,68	,25	2,19	,782

* Test Duncana: a = a, b = b; a > b

Jednoczynnikowa analiza wariancji wykazała, iż istotnie statystycznie wydłużenie kości łokciowych w grupie wiekowej powyżej 10,5 roku różni się od pozostałych dwóch młodszych grup wiekowych. Daje się tutaj zauważyć jednak niską wartość testu Fishera (poniżej 4) co prawdopodobnie wynika ze zbyt małej liczebności grupy. Niestety liczebność ta spowodowana jest specyfiką rzadkiego schorzenia oraz procedury operacyjnej (wydłużania) wykonywanej w tym przypadku.

Podobne informacje jak z tab. 6 otrzymujemy po obliczeniu współczynnika korelacji Pearsona, wskazującego na dodatnią korelację między wiekiem, a bezwzględną wielkością wydłużenia kości łokciowej w grupie badanej.

Tabela 7. Korelacje Pearsona między zmiennymi opisującymi grupę badaną a wiekiem

Zmienne	Wiek
Długość początkowa [mm]	,803**
Długość końcowa [mm]	,810**
Wydłużenie [mm]	,487*
% przyrostu długości	,114
Całkowity okres stabilizacji [miesiąc]	,529*
Współczynnik gojenia [miesiąc/cm]	,068
Okres latencji [dzień]	,081

*p < 0,05; **p < 0,01

Ponadto dają się zauważyć inne dodatnie korelacje między wiekiem a długością początkową, długością końcową oraz całkowitym okresem stabilizacji.

Trudności występujące podczas wydłużania ujawniły się w 59% wydłużanych kończyn (w 13 spośród 22 wydłużeń). Według podziału Paleya problemy stanowiły 15% trudności (2 kończyny), 54% trudności stanowiły przeszkody (7 kończyn), a 31% trudności to komplikacje (4 kończyny).

Grupa kontrolna

Tabela 8. Charakterystyka ilościowa grupy kontrolnej

	n	Minimum	Maksimum	Mediana	Średnia	SD	Test K - S	
							Z	p
Długość kości [mm]	22	74	136	99	103,95	19,72	,91	,385

Rozkład zmiennych ilościowych grupy kontrolnej nie różni się istotnie statystycznie od rozkładu normalnego (test Kołmogorowa–Smirnowa), co świadczy o tym iż jest to grupa reprezentatywna z populacji chorych z wrodzonym brakiem kości promieniowej typu III i IV, u których nie wykonywano jako korekcji operacyjnej procedury wydłużania kości łokciowej.

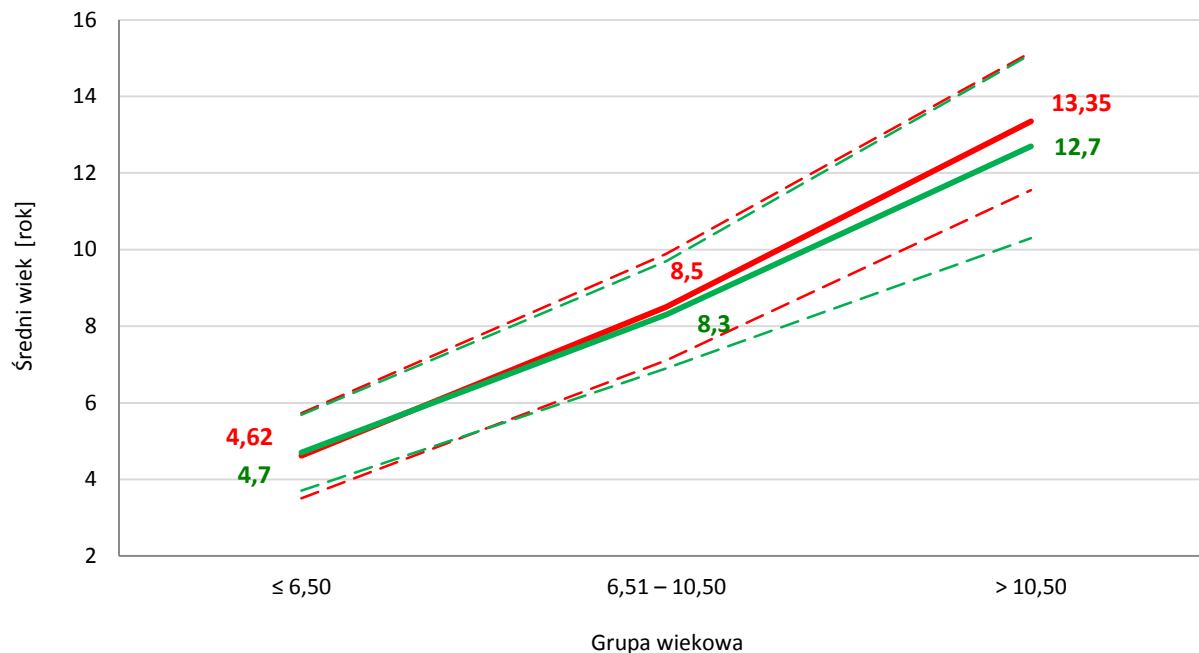
W grupie kontrolnej dokonano podziału na jednakowe pod względem wieku z grupą badaną trzy przedziały wiekowe:

- $\leq 6,50$ lat (n=7)
- 6,51 – 10,50 (n=8)
- $> 10,50$ (n=7)

Liczebność każdego z otrzymanych przedziałów wiekowych jest identyczna z liczebnością analogicznych przedziałów wiekowych w grupie badanej.

Porównanie między grupą badaną a grupą kontrolną

W następujący sposób pokazany na ryc. 16 przedstawia się średni wiek pacjentów w momencie oceny RTG, w grupach wiekowych w obrębie grupy badanej i grupy kontrolnej.



Rycina 16. Średni wiek w grupie badanej (kolor czerwony) i grupie kontrolnej (kolor zielony) w przedziałach wiekowych

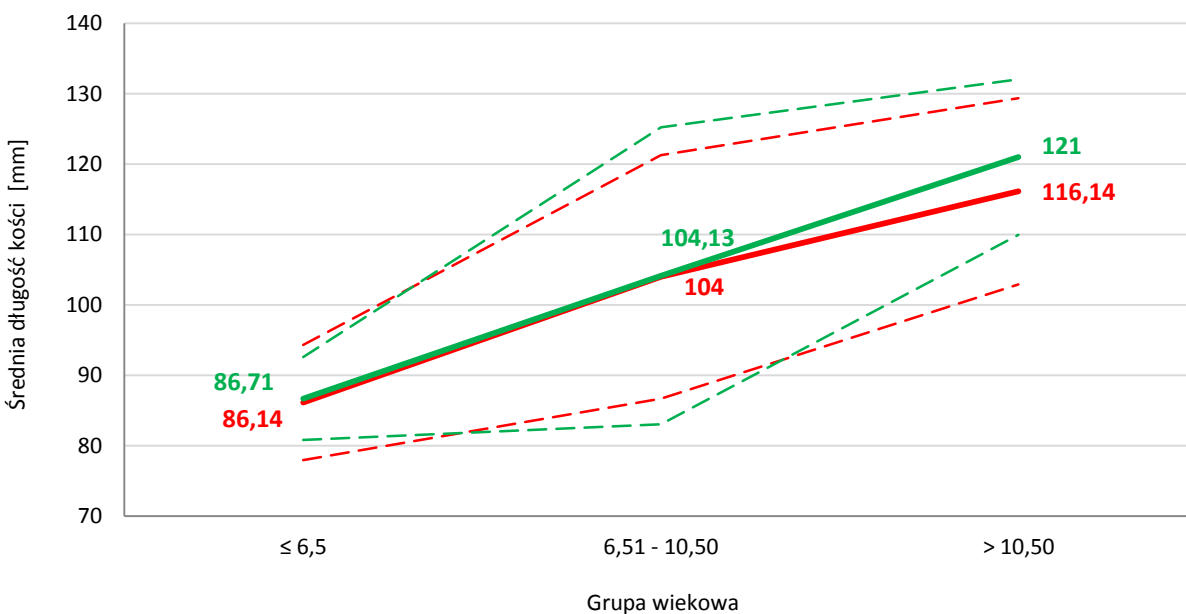
Stwierdzono brak istotnych statystycznie różnic między średnim wiekiem grupy badanej, a średnim wiekiem grupy kontrolnej w osobno każdej z grup wiekowych (tab. 9). Brak istnienia ww. różnic statystycznych umożliwia porównanie grupy badanej i kontrolnej między sobą.

Tabela 9. Dwuczynnikowa analiza wariancji między grupą badaną, a grupą kontrolną w zależności od grupy wiekowej

Grupa wiekowa	Grupa				Porównania między grupami		
	Badana		Kontrolna		F	df	p
	Średnia	SD	Średnia	SD			
≤ 6,50	4,62 c	1,11	4,70 c	,99	0,01	1,38	,927
6,51 - 10,50	8,50 b	1,39	8,30 b	1,40	0,07	1,38	,799
> 10,50	13,35 a	1,80	12,70 a	2,40	0,60	1,38	,445
Porównania w grupach	*F (2,38) = 53,83; p < 0,001		*F (2,38) = 45,19; p < 0,001				

* Porównania wielokrotne z poprawką Bonferroniego: a = a, b = b, c = c; a > b > c

Na podstawie dwuczynnikowej analizy wariancji w planie 2 x 3 dokonano porównania średniej długości kości łokciowych w grupie badanej przed wydłużaniem, a średnią długością kości łokciowych w grupie kontrolnej w przedziałach wiekowych.



Rycina 17. Średnia długość kości łokciowych przed wydłużaniem w grupie badanej (kolor czerwony), a średnia długość kości łokciowych w grupie kontrolnej (kolor zielony) w przedziałach wiekowych

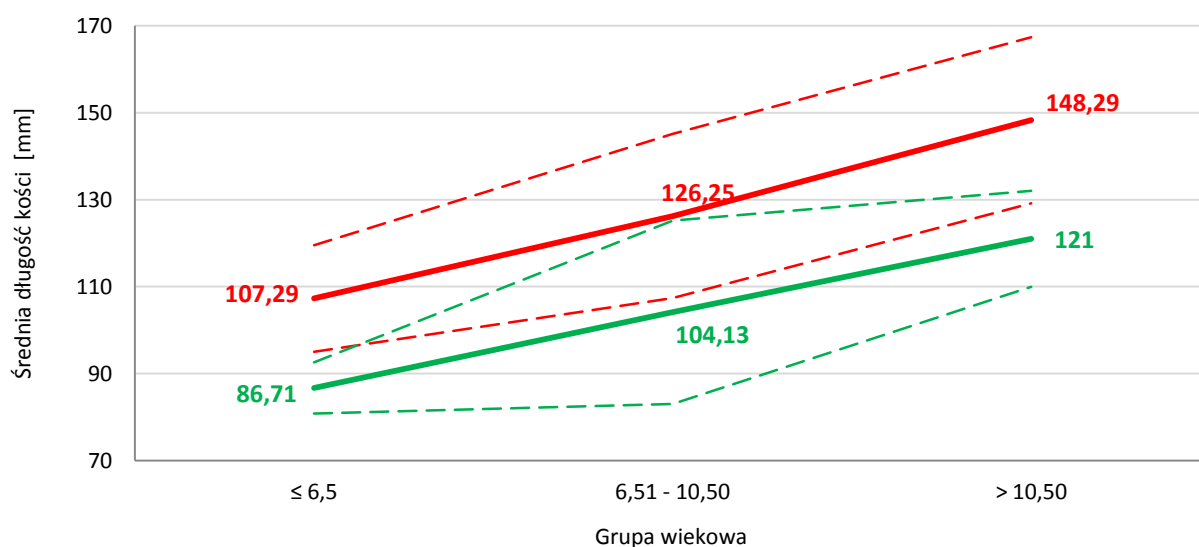
Tabela 10. Dwuczynnikowa analiza wariancji między średnią długością kości łokciowych w grupie badanej przed wydłużaniem, a średnią długością kości łokciowych w grupie kontrolnej w przedziałach wiekowych

Grupa wiekowa	Grupa				Porównania między grupami		
	Badana		Kontrolna		F	df	p
	Średnia	SD	Średnia	SD			
≤ 6,5	86,14 c	8,19	86,71 c	5,88	,01	1,38	,940
6,51 - 10,50	104,00 b	17,30	104,13 b	21,09	,00	1,38	,986
> 10,50	116,14 a	13,22	121,00 a	11,05	,41	1,38	,524
Porównania między grupami wiekowymi	*F(2,38) = 7,98; p < 0,01		*F(2,38) = 10,29; p < 0,001				

Porównania wielokrotne z poprawką Bonferroniego: a = a, b = b, c = c; a > b > c

Stwierdzono brak istotnych statystycznie różnic między średnią długością kości łokciowych w grupie badanej przed wydłużaniem, a średnią długością kości łokciowych w grupie kontrolnej, w osobno każdej z grup wiekowych.

Na podstawie dwuczynnikowej analizy wariancji w planie 2 x 3 dokonano porównania średniej długości kości łokciowych w grupie badanej po wydłużaniu, ze średnią długością kości łokciowych w grupie kontrolnej w przedziałach wiekowych (ryc. 18).



Rycina 18. Średnia długość kości łokciowych po wydłużaniu w grupie badanej (kolor czerwony) a średnia długość kości łokciowych w grupie kontrolnej (kolor zielony) w przedziałach wiekowych

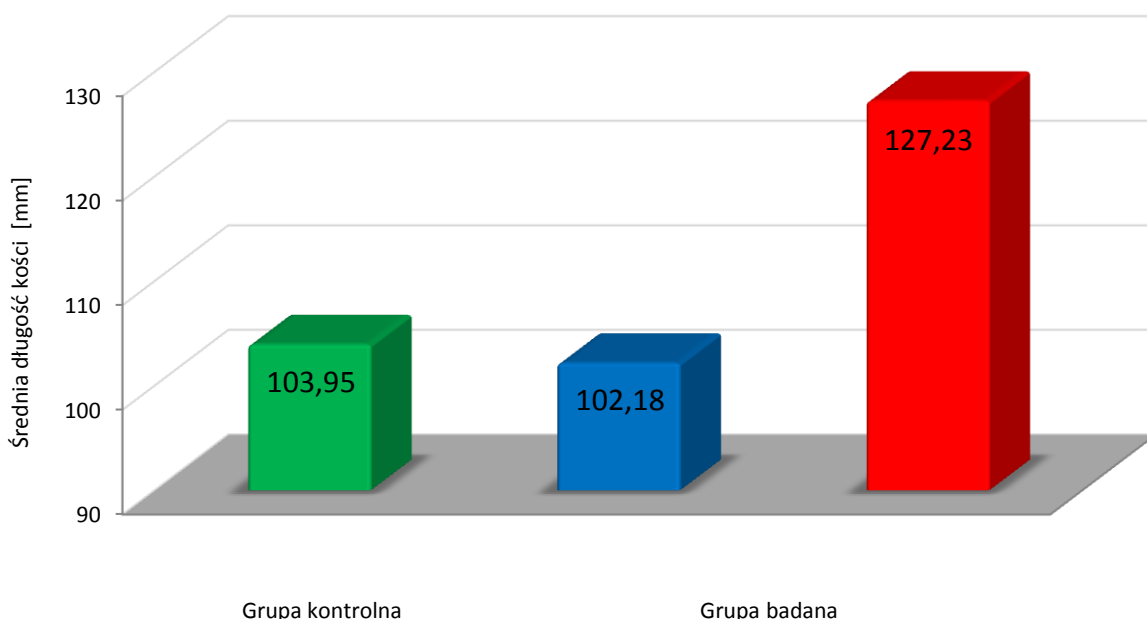
Tabela 11. Dwuczynnikowa analiza wariancji między średnią długością kości łokciowych w grupie badanej po wydłużaniu, a średnią długością kości łokciowych w grupie kontrolnej w przedziałach wiekowych

Grupa wiekowa	Grupa				Porównania między grupami		
	Badana		Kontrolna		F	df	p
	Średnia	SD	Średnia	SD			
≤ 6,5	107,29 c	12,24	86,71 c	5,88	5,84	1,38	,021
6,51 - 10,50	126,25 b	18,88	104,13 b	21,09	7,72	1,38	,008
> 10,50	148,29 a	19,09	121,00 a	11,05	10,28	1,38	,003
Porównania między grupami wiekowymi	*F(2,38) 11,63; p < 0,001		*F(2,38) = 8,11; p < 0,01				

Porównania wielokrotne z poprawką Bonferronio: a = a, b = b, c = c; a > b > c

Stwierdzono istnienie statystycznych różnic pomiędzy średnimi długościami kości łokciowych w grupie badanej po wydłużaniu, a średnią długością kości łokciowych w grupie kontrolnej, w każdej z grup wiekowych. Stwierdzono także istnienie statystycznych różnic średnich długości kości łokciowych między grupami wiekowymi, w obrębie zarówno grupy badanej jak i kontrolnej.

Następnie porównano średnią długości kości łokciowych w grupie kontrolnej, ze średnią długością kości łokciowych w grupie badanej przed i po wydłużaniu. Analizy tej dokonano z wykorzystaniem testu t-Studenta dla prób niezależnych (tab. 12).



Rycina 19. Średnia długość kości łokciowych w grupie kontrolnej (kolor zielony), a średnia długość kości łokciowych w grupie badanej przed (kolor niebieski) i po wydłużaniu (kolor czerwony)

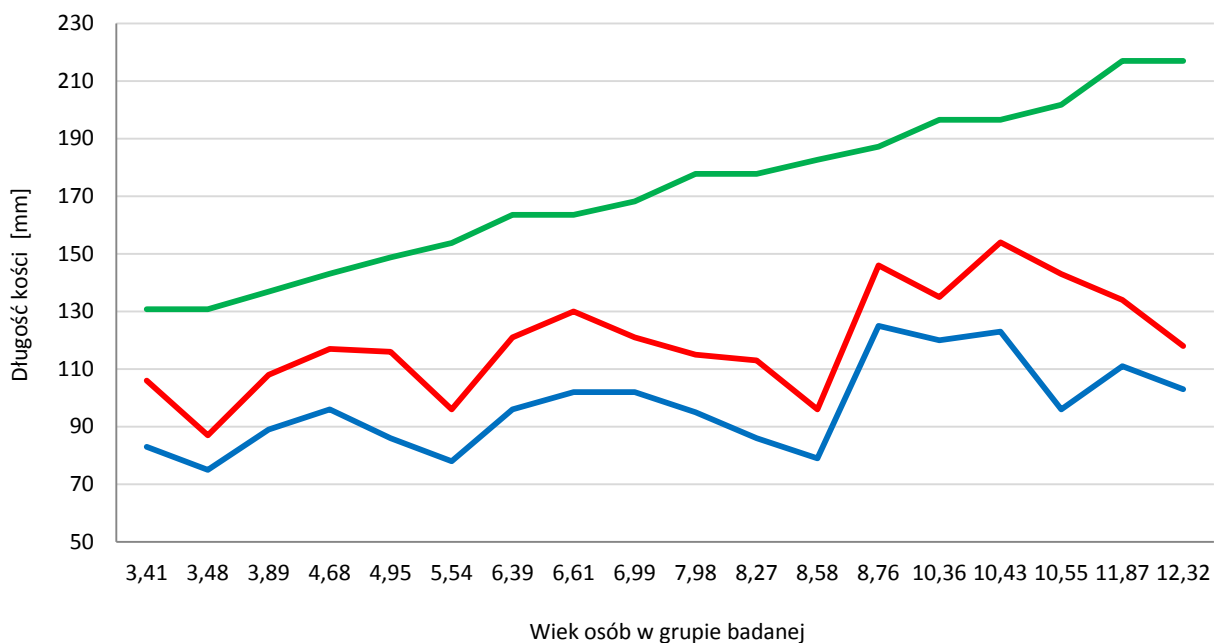
Tabela 12. Porównanie średniej długości kości łokciowych w grupie kontrolnej ze średnią długością kości łokciowych w grupie badanej przed i po wydłużaniu

Pomiar w grupie wydłużanej	Grupa				Porównania między grupami		
	Wydłużana		Niewydłużana		t	df	p
	Średnia	SD	Średnia	SD			
Przed wydłużaniem	102,18	17,91	103,95	19,72	0,31	42	,757
Po wydłużaniu	127,23	23,379	103,95	19,72	3,57	42	,001

Stwierdzono istotną statystycznie różnicę pomiędzy średnią długością kości łokciowych w grupie badanej po wydłużaniu, a średnią długością kości łokciowych w grupie kontrolnej.

Poniższa rycina porównuje trend między długościami kości łokciowych w grupie badanej przed i po wydłużaniu, z długościami kości łokciowych podczas naturalnego procesu wzrostu wg Maresha. Maresh badał naturalny proces wzrostu kości długich kończyn między wiekiem 6 miesięcy a 12 lat. Autorzy często

porównują otrzymanywane przez siebie wyniki długości kończyn po leczeniu operacyjnym z wartościami długości kości nieoperowanych zawartymi w jego pracy (18,42).



Rycina 20. Porównanie długości kości łokciowych przed wydłużaniem (kolor niebieski) i po wydłużaniu (kolor czerwony) w grupie badanej z długością kości łokciowych według Maresha (kolor zielony)

DYSKUSJA

Skrócenie przedramienia obecne we wrodzonym braku kości promieniowej stanowi istotny dla pacjenta problem ograniczający funkcję zajętej kończyny, a także nie mniej ważny problem kosmetyczny.

Procedurę wydłużania kości łokciowej w tej wadzie zaczęto stosować w Klinice Traumatologii, Ortopedii i Chirurgii Ręki na początku lat 90 ubiegłego stulecia. Jako podstawę dla tej metody przyjęto założenia zaproponowanej przez Ilizarova teorii osteogenezy dystrykcyjnej. Z niewielkimi tylko modyfikacjami dotyczącymi użycia aparatu monolateralnego lepiej tolerowanego przez pacjentów w obrębie kończyny górnej czy wykonywania podokostnowej osteotomii, metoda ta stosowana jest w naszej praktyce klinicznej do dnia dzisiejszego. Przyjęliśmy także używać zaproponowanego przez autora tempa dystrykcji kości $4 \times \frac{1}{4}$ mm na dobę, uważając je za optymalne i korygując w trakcie wydłużania zależnie od potrzeb (19,20,21).

Praca ta traktuje o dwóch spośród czterech typów wrodzonego braku kości promieniowej (5,6,24), w których to mamy do czynienia z istotnym skróceniem oraz zagięciem osi przedramienia. Są to typy III i IV. W typie I, w którym występuje minimalne skrócenie kości promieniowej jako metody leczenia nie stosuje się wydłużania. W typie II procedura wydłużania ma inny charakter, dotyczy głównie kości promieniowej i ma na celu odtworzenie prawidłowego podparcia dla nadgarstka.

Założyłem, iż wydłużanie jest dobrą metodą leczenia niedoboru długości kości łokciowej. W celu zbadania skuteczności wydłużania mierzyłem i wyznaczałem wspomniane w metodyce, a szeroko występujące w literaturze parametry (17,34,35,38,51,56). Najważniejsze spośród nich, długość początkowa i końcowa odnoszą się do długości funkcjonalnej kości łokciowej, a ich pomiar

wykonany został metodą opisaną bardzo dokładnie przez Heikela (18), w porównaniu do podobnych, lecz pobieżnych opisów, metod pomiarowych innych autorów (34,35,38).

W pracy tej wykorzystałem program komputerowy OrthoView, który posłużył mi do wykonania obliczeń w sposób powtarzalny. Uważam, że takie podejście umożliwia ujednoczenie wykonywanych pomiarów, ułatwia ich archiwizację oraz dostęp do wyników. Wszystkie zdjęcia rentgenowskie na podstawie, których wykonywano pomiary były skanowane w jednakowej rozdzielczości (150 dpi) po uprzednim naniesieniu na nie 100 mm odcinka służącego do skalowania. Maksymalne dostępne w programie powiększenie stosowane było podczas wykonywania pomiarów, co pozwoliło na zmniejszenie błędu, wynikającego pierwotnie z wykreślenia odcinka skalującego linijką, jego pomiaru kalibracyjnego oraz z ostatecznego pomiaru długości.

Długość kości łokciowej we wrodzonym braku kości promieniowej, w przypadku naturalnego przebiegu wzrostu tej kości, oceniana jest przez autorów (8,18,24,27) na odpowiednio 60% oraz $1/2$ do $3/4$ prawidłowej długości. Stosunek ten pozostaje niezmienny przez cały okres wzrostu, co ma swoje kosmetyczne oraz funkcjonalne implikacje (35). Jest to więc znacznego stopnia skrócenie, które wymaga leczenia operacyjnego celem poprawy funkcji kończyny. Technika zaproponowana przez Ilizarova wykorzystując osteogenezę dystrykcyjną w celu osiągnięcia stopniowego wydłużenia kończyn, wydaje się być odpowiednią dla pacjentów z wrodzonym brakiem kości promieniowej (56). Ponadto w wadzie tej podejmowane są także inne działania operacyjne mające na celu poprawę funkcji kończyny górnej jak np.: centralizacja czy osteotomie korekcyjne. Manske i wsp. (26) piszą, iż centralizacja nadgarstka nie zmniejsza wygięcia łokciowego kości łokciowej, która to kość nie ma tendencji do naturalnej korekcji. Daje ona jednak funkcjonalny przyrost długości kończyny i jest poza pewnymi wyjątkami podstawową procedurą korekcyjną u pacjentów z wrodzonym brakiem kości

promieniowej, u których nadgarstek z powodu braku podparcia ustawia się w odchyleniu promieniowym. Warto tu zaznaczyć, iż wykonanie przed centralizacją dystrakcji tkanek miękkich (23,40,44) może nie tylko w znaczący sposób ułatwić korekcję ustawienia nadgarstka lecz także, jak podają w swojej pracy Nanchahal i wsp., pozwala uniknąć resekcji kostnych oraz nadmiernego napięcia struktur naczyniowo–nerwowych. Centralizacja obecnie zalecana, a opierająca się na miękko tkankowej stabilizacji w większości przypadków nie zapewnia utrzymania trwałej korekcji odchylenia promieniowego nadgarstka co pociąga za sobą konieczność reoperacji (13,26,37,44,47). Glossop i wsp. w swojej pracy (14) udowadniają w sposób matematyczny, iż korekcja zagięcia kości łokciowej nie spowoduje znaczącego jej wydłużenia, nawet w przypadku wykonania wielokrotnych osteotomii otwierających. W obliczu powyższego liczne podejmowane próby wydłużania kości łokciowej wydają się jak najbardziej zasadne.

Grupa badana obejmująca 22 wydłużenia kości łokciowych (20 pacjentów) we wrodzonym braku kości promieniowej jest najliczniejszą grupą spośród znanego mi piśmiennictwa (34,35,38). Rozkład zmiennych ilościowych charakteryzujących tę grupę nie różni się istotnie od rozkładu normalnego, świadczy to o tym, iż jest to grupa reprezentatywna z populacji chorych z wrodzonym brakiem kości promieniowej typ III i IV, u których jako jedną z metod leczenia operacyjnego było wydłużanie kości łokciowej. Otrzymane dane różnią się w sposób dość istotny od danych z przytoczonego poniżej piśmiennictwa opierającego się na znacznie mniejszych grupach badanych. W badanym przeze mnie materiale średnie wydłużenie kości łokciowej wyniosło 2,5 cm co stanowi średni przyrost pierwotnej długości kości łokciowej o 24,6%. Całkowity okres stabilizacji wyniósł średnio 4,4 miesiąca (17,6 tygodnia), przy średnim współczynniku gojenia równym 1,67 miesiąca/cm (6,68 tygodnia/cm).

Dla porównania Pickford i wsp. na podstawie 8 wydłużeń (6 pacjentów) podają uzyskanie średniego wydłużenia kości łokciowej o 4,7 cm co stanowi 46% przyrost pierwotnej długości kości łokciowej przy zastosowaniu aparatu Ilizarova. Wiek pacjentów przedstawionych w tej pracy zawiera się w przedziale między 5 a 14 lat (średnia 10,12 roku), a współczynnik gojenia wynosi 3,8 tygodnia/cm. W pracy tej brak jest informacji na temat całkowitego okresu stabilizacji, a autorzy podają jedynie czas wydłużania wynoszący średnio 15 tygodni, sugerując tylko iż po zakończeniu wydłużania uzyskanie zadowalającej konsolidacji wymaga ponad 4 tygodniowego okresu stabilizacji. Trudności podczas wydłużania w opisywanej grupie pacjentów występowały we wszystkich przypadkach i były to głównie: bóle nocne, infekcje w okolicy wszczepów, złamania regeneratu czy zrost opóźniony. Peterson i wsp. na podstawie 13 wydłużeń (9 pacjentów) podają bardzo podobne wartości wydłużenia kości łokciowej średnio o 4,4 cm (1,8 do 8,0 cm) nie informują nas jednak jaki procent pierwotnej długości stanowi uzyskane wydłużenie. Średni czas wydłużania w tej grupie wynosi 14,4 tygodnia (od 3 do 23 tygodni), przy średnim czasie konsolidacji 23 tygodnie (od 12 do 45 tygodni). Współczynnik gojenia wg Petersona i wsp. wynosi średnio 8,6 tygodnia/cm. Trudność podczas wydłużania objawiające się infekcjami w okolicy wszczepów dotyczyły wszystkich przypadków, a sztywność łokcia i palców ujawniła się w obrębie sześciu kończyn. Interwencja chirurgiczna okazała się niezbędną w czterech przypadkach z powodu braku lub wadliwego zrostu. Wyraźnie niższy współczynnik gojenia w pracy Pickforda i wsp. świadczy o znacznie krótszym całkowitym okresie stabilizacji wydłużanych kości, a tym samym krótszym okresie konsolidacji regeneratu w stosunku do pracy Petersona i wsp. i może być odpowiedzialny za wyższy odsetek złamań regeneratu i opóźnionego zrostu (4 spośród 8 wydłużeń).

Raimondo i wsp. w materiale 4 wydłużeń kości łokciowych uzyskali wydłużenia od 6,1 do 8,1 cm. Prawdopodobnie uzyskanie takich wydłużeń odbyło się kosztem

długiego okresu całkowitej stabilizacji wynoszącego od 8 do 10 miesięcy. Czas wydłużania w tej grupie mieści się w przedziale od 6 do 29 tygodni, a współczynnik gojenia wynosi od 1,2 do 1,6 miesiąca/cm.

Kolejnym celem tej pracy była ocena ilości oraz jakości powikłań występujących podczas wydłużania. Do tego celu wykorzystałem podział zaproponowany przez Paleya (32) dzielący trudności występujące podczas wydłużania na problemy, przeszkody i komplikacje. W badanym przeze mnie materiale trudności ujawniły się w 59% wydłużanych kończyn (w 13 z 22 wydłużeń). Według tego podziału problemy wystąpiły w 15% (2 wydłużenia), 54% stanowiły przeszkody (7 wydłużeń), a 31% to komplikacje (4 wydłużenia). Klasyfikacja ta znana jest od wielu lat i ma za zadanie umożliwić porównanie otrzymywanych przez różnych autorów wyników. Niestety operują nią w większości osoby zajmujące się wydłużeniami w obrębie kości kończyny dolnej, podczas gdy powikłania związane z wydłużaniem kości kończyny górnej pozostają w większości nie sklasyfikowane. Część powikłań tu występujących stanowi osobny problem leczniczy i często wymaga osobnych procedur operacyjnych.

Jest zasadniczym pytaniem czy wydłużanie kości łokciowej u dziecka rosnącego da w końcowym efekcie realny przyrost długości, czy też wzrost dziecka spowoduje utratę przyrostu długości uzyskanego przez procedurę wydłużania. Istnieje bowiem prawdopodobieństwo, iż wydłużanie przez zwiększenie sił działających na tkanki może w konsekwencji doprowadzić do zmniejszenia długości przez uraz doprowadzający do zaburzenia naturalnego procesu wzrostu. Dlatego postanowiłem zbadać wpływ wydłużania lub jego braku na końcową długość kości łokciowej. W tym celu dokonałem podziału grupy badanej i kontrolnej na trzy kategorie wiekowe.

Brak jest w literaturze piśmiennictwa porównującego między sobą wyniki uzyskiwanych długości kości łokciowych zarówno w przypadku ich wydłużania, jak i nie stosowania tej metody leczenia. W pracy tej zaobserwowałem istotnie większą

długość kości łokciowej w grupie, w której jako jedną z metod leczenia stosowano wydłużanie kości łokciowej we wszystkich trzech podgrupach wiekowych. Ponadto co warto podkreślić, średnia wartość wydłużenia kości łokciowych w najstarszej grupie wiekowej jest istotnie statystycznie większa w stosunku do pozostałych grup.

Mechanizm w jakim dochodzi do osłabienia wzrostu kości łokciowej jest nadal nieznan, a wydłużanie na drodze osteogenezy dystrykcyjnej poprawia deficyt długości jedynie w pewnym stopniu. Osiągana dodatkowa długość kości łokciowej jest jednak atrakcyjna zarówno ze względów funkcjonalnych jak i kosmetycznych. Niestety wykorzystanie tej techniki skutkuje trudną do zaakceptowania ilością powikłań i jej wykorzystanie musi być rozważone w sposób niezmiernie ostrożny (3,27). W celu zminimalizowania trudności występujących podczas wydłużania pacjent winien być często monitorowany. W ocenie poza badaniem przedmiotowym niezwykle ważny jest udział badań dodatkowych jak RTG i USG. Badania te umożliwiają dostosowywanie prędkości wydłużania do stanu aktualnie tworzącego się regeneratu. Tetsworth i wsp. w swojej pracy sugerują, iż przerwa między końcami tworzącego się regeneratu na zdjęciach rentgenowskich nie powinna przekraczać 5 mm. Odstęp większy niż zalecany sugeruje, iż dystrykcja przebiega szybciej niż formowanie się kostniny. W takim przypadku przerwa między końcami regeneratu winna być skompresowana na kilka dni celem uzyskania konsolidacji, przed ponownym rozpoczęciem wydłużania ze zwolnionym tempem (57). Jeszcze dokładniejsze monitorowanie tworzącej się kostniny daje badanie ultrasonograficzne, będące badaniem prostym i łatwym do wykonania (39).

Przy wyborze metody leczenia należy także wziąć pod uwagę wpływ wielomiesięcznego leczenia, jakim jest wydłużanie kości łokciowej, na rozwój dziecka i rozważyć czy, a jeśli tak to w jakim wieku podjąć się tego obciążającego zarówno dla pacjenta jak i rodziców leczenia. W większości przypadków

jednostronnego wrodzonego braku kości promieniowej typ III i IV, wydłużanie kości łokciowej nie daje możliwości osiągnięcia egalizacji kończyn. W związku z tym podejmowane się próby powtarzania wydłużeń w obrębie tej samej kości, celem uzyskania sumarycznie większego przyrostu długości. W swojej pracy Kiyoshi i wsp. zwracają szczególną uwagę na występowanie częstszych i poważniejszych komplikacji w przypadku ponownego wydłużania tego samego segmentu. Paley w swojej pracy (32) zauważa, iż współczynnik gojenia różni się znacząco między wydłużeniami u dzieci i u dorosłych oraz między grupami z pojedynczą i dwupoziomową osteotomią wydłużanej kości. Ponadto należy mieć na uwadze, iż jak podaje Catagni i wsp. (58) wydłużanie przedramienia często zwiększa sztywność palców, obniżając tym samym ogólną funkcję ręki. Niezwykle ważna jest także wiedza na temat wpływu wydłużania kości na jej dalszy wzrost. Badanie takie przeprowadzone przez McCarthy'ego i wsp. (30) w obrębie kości kończyn dolnych wydłużonych średnio o 24% wykazało brak istotnych statystycznych różnic między tempem wzrostu kończyn po wydłużaniu oraz tempem wzrostu kończyn nie wydłużanych. Nie jest to jednak sprawa jednoznaczna i podczas gdy część autorów (m.in. Hope i Sabharwal) nie odnotowuje istotnego zwolnienia tempa wzrostu kości po wydłużaniu, pozostała część (m.in. Sharma, Viehweger) zauważa istotne jego zwolnienie. Lee i wsp. zbadali zachowanie się nasad kości po ich wydłużaniu w oparciu o model zwierzęcy. Zauważyli, iż wydłużenie o 20% niezależnie od tempa dystrakcji nie powoduje występowania żadnych znaczących zmian w obrębie nasad. Dopiero przy wydłużeniu o ponad 30% znacząco spada tempo wzrostu wydłużanej kości, a wydłużenie o 50% i więcej w stosunku do pierwotnej długości skutkuje przedwczesnym zamknięciem się chrząstki nasadowej.

Praca ta, jak i inne (27,41,48) podkreśla fakt, iż optymalne leczenie w tej złożonej wadzie nie zostało jeszcze odkryte. Jednakże można mieć nadzieję, iż wspólnymi wysiłkami stopniowo zbliżamy się do jego poprawy.

WNIOSKI

1. Nie stwierdzono istotnych różnic między badanymi parametrami w zależności od typu (III i IV) jak i strony (P i L) występowania wrodzonego braku kości promieniowej w grupie badanej
2. Istnieją różnice między długościami kości łokciowych we wrodzonym braku kości promieniowej typ III i IV, w obrębie których wykonywano i nie wykonywano procedurę wydłużania
3. W badanych grupach wiekowych istotnie większe wydłużenie kości łokciowej we wrodzonym braku kości promieniowej typ III i IV, uzyskano w grupie powyżej 10,5 roku życia
4. Powikłania występują w 59% wydłużanych kości łokciowych

SKRÓTY

BR – brachioradialis (mięsień ramienno–promieniowy)

DPI – dots per inch (ilość kropek na cal)

ECRB – extensor carpi radialis brevis (mięsień prostownik promieniowy krótki nadgarstka)

ECRL – extensor carpi radialis longus (mięsień prostownik promieniowy długi nadgarstka)

FCR – flexor carpi radialis (mięsień zginacz promieniowy nadgarstka)

RTG – zdjęcie rentgenowskie

SD – standard deviation (odchylenie standardowe)

TAR – thrombocytopenia absent radius syndrome (wrodzony brak kości promieniowej z trombocytopenią)

USG – badanie ultrasonograficzne

VACTERL – zespół wad wrodzonych w skład którego wchodzi: wady rozwojowe kręgow (V – vertebral anomalies), zarośnięcie odbytu (A – anal atresia), wady sercowo–naczyniowe (C – cardiovascular anomalies), przetoka przełykowo–tchawicza (T – tracheoesophageal fistula), zarośnięcie przełyku (E – esophageal atresia), wady nerek (R – renal anomalies) oraz wady kończyn (L – limb defects)

SPIS TABEL I RYCIN

Ryciny

Rycina 1. Schemat aparatu wyciągowego konstrukcji Codivilli

Rycina 2. Aparat sprężynowy konstrukcji Abbotta

Rycina 3. Przykład wydłużania kości udowej z pracy Wagnera

Rycina 4. Typy I – IV (A – D) wrodzonego braku kości promieniowej

Rycina 5. Zdjęcie rentgenowskie matrycy pomiarowej

Rycina 6. Sposób pomiaru długości kości łokciowej zaproponowany przez Heikela

Rycina 7. Wartości długości początkowych (przed wydłużaniem) kości łokciowych (kolor zielony) oraz wartości długości końcowych (po wydłużaniu) kości łokciowych (kolor czerwony)

Rycina 8. Wartości wydłużeń kości łokciowych

Rycina 9. Procent przyrostu długości początkowej wydłużanych kości łokciowych

Rycina 10. Całkowity okres stabilizacji wydłużanych kości łokciowych

Rycina 11. Współczynnik gojenia wydłużanych kości łokciowych

Rycina 12. Wartości okresu latencji wydłużanych kości łokciowych

Rycina 13. Średnia długość kości łokciowych przed wydłużaniem i po wydłużaniu w grupie badanej

Rycina 14. Średnia długość kości łokciowych w grupie badanej przed wydłużaniem (kolor niebieski) oraz po wydłużaniu (kolor czerwony) w trzech grupach wiekowych

Rycina 15. Średnie wydłużenie kości łokciowej w trzech grupach wiekowych grupy badanej

Rycina 16. Średni wiek w grupie badanej (kolor czerwony) i grupie kontrolnej (kolor zielony) w przedziałach wiekowych

- Rycina 17.** Średnia długość kości łokciowych przed wydłużaniem w grupie badanej (kolor czerwony), a średnia długość kości łokciowych w grupie kontrolnej (kolor zielony) w przedziałach wiekowych
- Rycina 18.** Średnia długość kości łokciowych po wydłużaniu w grupie badanej (kolor czerwony), a średnia długość kości łokciowych w grupie kontrolnej (kolor zielony) w przedziałach wiekowych
- Rycina 19.** Średnia długość kości łokciowych w grupie kontrolnej (kolor zielony), a średnia długość kości łokciowych w grupie badanej przed (kolor niebieski) i po wydłużaniu (kolor czerwony)
- Rycina 20.** Porównanie długości kości łokciowych przed wydłużaniem (kolor niebieski) i po wydłużaniu (kolor czerwony) w grupie badanej z długością kości łokciowych według Maresha (kolor zielony)

Tabele

- Tabela 1.** Tabela podsumowująca statystyki opisowe zmiennych grupy badanej
- Tabela 2.** Porównanie wartości zmiennych między typem III i IV wrodzonego braku kości promieniowej w grupie badanej
- Tabela 3.** Porównanie wartości zmiennych między stroną L i P w grupie badanej
- Tabela 4.** Tabela przedstawia różnicę średnich długości kości łokciowych przed i po wydłużaniu w obrębie grupy badanej
- Tabela 5.** Analiza wariancji w planie mieszanym 2 x 3 (przed i po wydłużaniu w stosunku do trzech grup wiekowych)
- Tabela 6.** Jednoczynnikowa analiza wariancji (wydłużenie w trzech zdefiniowanych grupach wiekowych grupy badanej)
- Tabela 7.** Korelacje Pearsona między zmiennymi opisującymi grupę badaną a wiekiem
- Tabela 8.** Charakterystyka ilościowa grupy kontrolnej

Tabela 9. Dwuczynnikowa analiza wariancji między grupą badaną, a grupą kontrolną w zależności od grupy wiekowej

Tabela 10. Dwuczynnikowa analiza wariancji między średnią długością kości łokciowych w grupie badanej przed wydłużaniem, a średnią długością kości łokciowych w grupie kontrolnej w przedziałach wiekowych

Tabela 11. Dwuczynnikowa analiza wariancji między średnią długością kości łokciowych w grupie badanej po wydłużaniu, a średnią długością kości łokciowych w grupie kontrolnej w przedziałach wiekowych

Tabela 12. Porównanie średniej długości kości łokciowych w grupie kontrolnej ze średnią długością kości łokciowych w grupie badanej przed i po wydłużaniu

PIŚMIENICTWO

1. **Aaron AD, Eilert RE.** Results of the Wagner and Ilizarov methods of limb-lengthening. *J Bone Joint Surg Am.* 1996;78:20–29.
2. **Abbott LC.** The operative lengthening of the tibia and fibula. *J Bone Joint Surg Am.* 1927;9:128–152.
3. **Antoci V, Ono CM, Antoci V Jr, Raney EM.** Bone lengthening in children: how to predict the complications rate and complexity? *J Pediatr Orthop.* 2006;26:634–640.
4. **Aronson J.** Current concepts review – limb-lengthening, skeletal reconstruction, and bone transport with the Ilizarov method. *J Bone Joint Surg Am.* 1997;79:1243–1258.
5. **Bayne LG, Klug MS.** Long-term review of the surgical treatment of radial deficiencies. *J Hand Surg Am.* 1987;12:169–179.
6. **Bednar MS, James MA, Light TR.** Congenital longitudinal deficiency. *J Hand Surg Am.* 2009;34:1739–1747.
7. **Bora FW Jr, Nicholson JT, Cheema HM.** Radial meromelia. The deformity and its treatment. *J Bone Joint Surg Am.* 1970;52:966–979.
8. **Bora FW Jr, Osterman AL, Kaneda RR, Esterhai J.** Radial club-hand deformity. Long-term follow-up. *J Bone Joint Surg Am.* 1981;63:741–745.
9. **Buck-Gramcko D.** Congenital malformations of the hand and forearm. *Churchill Livingstone.* London, 1998.
10. **Buck-Gramcko D.** Radialization as a new treatment for radial club hand. *J Hand Surg Am.* 1985;10:964–968.
11. **Codivilla A.** On the means of lengthening, in the lower limbs, the muscles and tissues which are shortened through deformity. *J Bone Joint Surg Am.* 1905;s2-2:353–369.

12. **Conn KS, Clarke MT, Hallett JP.** A simple guide to determine the magnification of radiographs and to improve the accuracy of preoperative templating. *J Bone Joint Surg Br.* 2002;84:269–272.
13. **Damore E, Kozin SH, Thoder JJ, Porter S.** The recurrence of deformity after surgical centralization for radial clubhand. *J Hand Surg Am.* 2000;25:745–751.
14. **Glossop ND, Flatt AE.** Opening versus closing wedge osteotomy of the curved ulna in radial clubhand. *J Hand Surg Am.* 1995;20:133–143.
15. **Goldfarb CA, Wall L, Manske PR.** Radial longitudinal deficiency: the incidence of associated medical and musculoskeletal conditions. *J Hand Surg Am.* 2006;31:1176–1182.
16. **Green DP, Hotchkiss RN, Pederson WC, Wolfe SW.** Green's operative hand surgery. *Churchill Livingstone, 5th edition.* 2005
17. **Griffith SI, McCarthy JJ, Davidson RS.** Comparison of the complication rates between first and second (repeated) lengthening in the same limb segment. *J Pediatr Orthop.* 2006;26:534–536.
18. **Heikel HV.** Aplasia and hypoplasia of the radius: studies on 64 cases and on epiphyseal transplantation in rabbits with the imitated defect. *Acta Orthop Scand Suppl.* 1959;39:1–155.
19. **Ilizarov GA.** The tension–stress effect on the genesis and growth of tissues. Part I. The influence of stability of fixation and soft–tissue preservation. *Clin Orthop Relat Res.* 1989;238:249–281.
20. **Ilizarov GA.** The tension–stress effect on the genesis and growth of tissues. Part II. The influence of the rate and frequency of distraction. *Clin Orthop Relat Res.* 1989;239:263–285.
21. **Ilizarov GA.** Clinical application of the tension–stress effect for limb lengthening. *Clin Orthop Relat Res.* 1990;250:8–26.
22. **James MA, McCarroll HR Jr, Manske PR.** The spectrum of radial longitudinal deficiency: a modified classification. *J Hand Surg Am.* 1999;24:1145–1155.

23. **Kessler I.** Centralization of the radial club hand by gradual distraction. *J Hand Surg Br.* 1989;14:37–42.
24. **Lamb DW.** Radial club hand. A continuing study of sixty–eight patients with one hundred and seventeen club hands. *J Bone Joint Surg Am.* 1977;59:1–13.
25. **Lourie GM, Lins RE.** Radial longitudinal deficiency. A review and update. *Hand Clin.* 1998;14:85–99.
26. **Manske PR, McCarroll HR Jr, Swanson K.** Centralization of the radial club hand: an ulnar surgical approach. *J Hand Surg Am.* 1981;6:423–433.
27. **Maschke SD, Seitz W, Lawton J.** Radial longitudinal deficiency. *J Am Acad Orthop Surg.* 2007;15:41–52.
28. **Matsuno T, Ishida O, Sunagawa T, Ichikawa M, Ikuta Y, Ochi M.** Bone lengthening for congenital differences of the hands and digits in children. *J Hand Surg Am.* 2004;29:712–719.
29. **McCarroll HR.** Congenital anomalies: a 25–year overview. *J Hand Surg Am.* 2000;25:1007–1037.
30. **McCarthy JJ, Kim H, Saluan P, Karsky D, Davidson RS.** The effects of limb lengthening on growth. *J Pediatr Orthop B.* 2003;12:328–331.
31. **Nagay B.** Chirurgia ręki. *Wydawnictwo Lekarskie PZWL.* Warszawa, 1996.
32. **Paley D.** Problems, obstacles, and complications of limb lengthening by the Ilizarov technique. *Clin Orthop Relat Res.* 1990;250:81–104.
33. **Pardini AG Jr.** Radial dysplasia. *Clin Orthop Relat Res.* 1968;57:153–177.
34. **Peterson BM, McCarroll HR Jr, James MA.** Distraction lengthening of the ulna in children with radial longitudinal deficiency. *J Hand Surg Am.* 2007;32:1402–1407.
35. **Pickford MA, Scheker LR.** Distraction lengthening of the ulna in radial club hand using the Ilizarov technique. *J Hand Surg Br.* 1998;23:186–191.

36. **Protasewicz A.** Funkcja chwytnej ręki po policyzacji palca promieniowego we wrodzonej hypoplazji kości promieniowej. *Rozprawa doktorska.* AM Poznań, 2006.
37. **Puchała J.** Charakterystyka oraz leczenie podłużnych wad promieniowych i łokciowych u dzieci własna modyfikacja centralizacji nadgarstka. *Rozprawa habilitacyjna.* UJ Kraków, 1997.
38. **Raimondo RA, Skaggs DL, Rosenwasser MP, Dick HM.** Lengthening of pediatric forearm deformities using the Ilizarov technique: functional and cosmetic results. *J Hand Surg Am.* 1999;24:331–338.
39. **Rajewski F.** Ocena wybranych czynników wpływających na zwiększenie bezpieczeństwa wydłużanej kończyny. *Rozprawa habilitacyjna.* AM Poznań, 1995.
40. **Romanowski L, Wiese J.** Wydłużanie przedramienia we wrodzonym braku kości promieniowej. *Chir Narz Ruchu Ortop Pol.* 1994;59,SUPL.1:243–247.
41. **Saini N, Patni P, Gupta SP, Chaudhary L, Sharma V.** Management of radial clubhand with gradual distraction followed by centralization. *Indian J Orthop.* 2009;43:292–300.
42. **Sestero AM, Van Heest A, Agel J.** Ulnar growth patterns in radial longitudinal deficiency. *J Hand Surg Am.* 2006;31:960–967.
43. **Skerik SK, Flatt AE.** The anatomy of congenital radial dysplasia. Its surgical and functional implications. *Clin Orthop Relat Res.* 1969;66:125–143.
44. **Smith AA, Greene TL.** Preliminary soft tissue distraction in congenital forearm deficiency. *J Hand Surg Am.* 1995;20:420–424.
45. **Trumble TE.** Hand surgery update 3. *American Society for Surgery of the Hand.* 2003.
46. **Wagner H.** Operative lengthening of the femur. *Clin Orthop Relat Res.* 1978;136:125–142.

47. **Watson HK, Beebe RD, Cruz NI.** A centralization procedure for radial clubhand. *J Hand Surg Am.* 1984;9:541–547.
48. **Urban MA, Osterman AL.** Management of radial dysplasia. *Hand Clin.* 1990;6:589–605.
49. **Geck MJ, Dorey F, Lawrence JF, Johnson MK.** Congenital radius deficiency: radiographic outcome and survivorship analysis. *J Hand Surg Am.* 1999;24:1132–1144.
50. **Brzeziński J.** Metodologia badań psychologicznych. *Wydawnictwo Naukowe PWN.* Warszawa, 2007.
51. **Villa A, Paley D, Catagni MA, Bell D, Cattaneo R.** Lengthening of the forearm by the Ilizarov technique. *Clin Orthop Relat Res.* 1990;250:125–137.
52. **Manske PR, McCarroll HR Jr, James M.** Type IIIA hypoplastic thumb. *J Hand Surg Am.* 1995;20:246–253.
53. **Plancher KD, Kahlon RS.** Diagnosis and treatment of congenital thumb hypoplasia. *Hand Clin.* 1998;14:101–118.
54. **Manske PR, McCarroll HR Jr.** Reconstruction of the congenitally deficient thumb. *Hand Clin.* 1992;8:177–196.
55. **Clark DI, Chell J, Davis TR.** Pollicization of the index finger: a 27 year follow-up study. *J Bone Joint Surg Br.* 1998;80:631–635.
56. **Damsin JP, Ghanem I.** Upper limb lengthening. *Hand Clin.* 2000;16:685–701.
57. **Tetsworth K, Krome J, Paley D.** Lengthening and deformity correction of the upper extremity by the Ilizarov technique. *Orthop Clin North Am.* 22:689–713.
58. **Catagni MA, Szabo RM, Cattaneo R.** Preliminary experience with Ilizarov method in late reconstruction of radial hemimelia. *J Hand Surg Am.* 1993;18:316–321.

STRESZCZENIE

WSTĘP

Na podstawie analizy piśmiennictwa opierającego się często na niewielkim materiale i wynikających z tego opracowaniach statystycznych o małej wartości naukowej, postanowiłem przyjrzeć się problemowi wydłużania kości łokciowej we wrodzonym braku kości promieniowej.

Najważniejsze w ocenie skuteczności danej metody leczenia są wieloletnie doświadczenia. Dotychczasowe publikacje oceniające wyniki wydłużania kości łokciowej we wrodzonym braku kości promieniowej opierają się jedynie na małych grupach badanych.

Opublikowane dotychczas wyniki nie dostarczają jednoznacznych wniosków czy kończyny w obrębie których wykonywano wydłużanie kości łokciowej oraz inne korekcyjne procedury operacyjne, jak: centralizacja, radializacja, dystrakcja tkanek miękkich czy osteotomia klinowa, osiągają ostatecznie większą długość kości łokciowej niż kończyny, w obrębie których procedury wydłużania nie wykonywano.

CEL PRACY

Celem pracy była ocena wydłużania kości łokciowej we wrodzonym braku kości promieniowej typ III i IV polegająca na:

1. zbadaniu skuteczności wydłużania kości łokciowej we wrodzonym braku kości promieniowej
2. określeniu ilości i jakości powikłań występujących podczas wydłużania

3. porównaniu wpływu wydłużania kości łokciowej lub jego braku na długość kości łokciowej

MATERIAŁ I METODYKA

Materiał obejmuje 44 kończyny górne, z rozpoznaniem typu III i IV wrodzonego braku kości promieniowej według klasyfikacji Bayne'a i Kluga. Ocenie poddano zdeformowane kończyny pacjentów po ukończeniu przez nich 3 roku życia, w związku z opóźnioną osyfikacją mogącą w przypadku wcześniejszej ewaluacji zafałszować ilościowy stosunek między oboma typami wady. Nie oceniano kończyn pacjentów po ukończeniu przez nich 18 roku życia.

Grupa badana zawiera 22 kończyny górne (20 pacjentów, 8 kobiet oraz 12 mężczyzn), w obrębie których wykonywano procedurę wydłużania w wieku między 3,41 a 15,38 lat.

Grupa kontrolna została wyłoniona z populacji 46 kończyn z wrodzonym brakiem kości promieniowej typ III i IV, u których wykonano od 2 do 12 pomiarów zdjęć RTG mieszczących się w przedziale wiekowym grupy badanej (celem porównania grup między sobą), to jest między 3,41 a 18 lat. Jako metody leczenia operacyjnego w tej grupie nie stosowano wydłużania kości łokciowej. Spośród tej populacji wylosowano 22 przypadki (po 1 zdjęciu RTG dla 1 kończyny), które poddano analizie w badaniu własnym. W celu przydziału do grupy kontrolnej zastosowano procedurę losowego przydziału do grupy z wykorzystaniem tabeli liczb losowych wg Brzezińskiego.

Ocena grupy badanej, w której procedurę wydłużania kości łokciowej wykonano jednokrotnie (razem z innymi korekcyjnymi procedurami operacyjnymi) została przeprowadzona na podstawie następujących znanych z literatury parametrów jak długość początkowa, długość końcowa, wydłużenie, okres latencji, % przyrostu długości, całkowity okres stabilizacji oraz współczynnik gojenia.

Trudności występujące podczas całkowitego okresu stabilizacji w przypadku wydłużania kończyn, podzielone zostały według zaproponowanej przez Paleya klasyfikacji na problemy, przeszkody i komplikacje.

WYNIKI

Nie stwierdzono istotnych statystycznie różnic między badanymi parametrami w zależności od typu (III i IV) jak i strony (P i L) występowania wrodzonego braku kości promieniowej w grupie badanej.

Odnotowano istotną statystycznie różnicę średnich długości kości łokciowych przed i po wydłużaniu w obrębie grupy badanej.

Wykazano istotną statystycznie różnicę wydłużenia kości łokciowych w grupie wiekowej powyżej 10,5 roku w stosunku od pozostałych dwóch młodszych grup wiekowych grupy badanej.

Powikłania występujące podczas wydłużania ujawniły się w 59% wydłużanych kończyn i były to w 15% trudności, 54% przeszkody, a w 31% komplikacje wg klasyfikacji Paleya.

Stwierdzono istnienie statystycznych różnic pomiędzy średnimi długościami kości łokciowych w grupie badanej po wydłużaniu, a średnią długością kości łokciowych w grupie kontrolnej, w osobno każdej z grup wiekowych.

WNIOSKI

1. Nie stwierdzono istotnych różnic między badanymi parametrami w zależności od typu (III i IV) jak i strony (P i L) występowania wrodzonego braku kości promieniowej w grupie badanej

2. Istnieją różnice między długościami kości łokciowych we wrodzonym braku kości promieniowej typ III i IV, w obrębie których wykonywano i nie wykonywano procedurę wydłużania
3. W badanych grupach wiekowych istotnie większe wydłużenie kości łokciowej we wrodzonym braku kości promieniowej typ III i IV, uzyskano w grupie powyżej 10,5 roku życia
4. Powikłania występują w 59% wydłużanych kości łokciowych

ABSTRACT

INTRODUCTION

Based on the analysis of the literature on limited material and the resulting statistical studies of small scientific value, I have decided to look at the problem of ulna lengthening in radial longitudinal deficiency.

The most important in evaluating the effectiveness of the method of treatment are years of experience. Previous publications evaluating the results of ulna lengthening in radial longitudinal deficiency are based only on small groups of patients.

Previously published results do not provide unambiguous conclusions whether the limbs among which lengthening of the ulna were performed, together with other corrective operational procedures such as: centralization, radialization, soft tissue distraction or wedge osteotomy, eventually reaching a greater length of the ulna, than the limbs among which the elongation procedure were not performed.

AIM

The aim of the study was to assess the ulna lengthening in radial longitudinal deficiency type III and IV, which consists of:

1. examining the effectiveness of ulna lengthening in radial longitudinal deficiency
2. determining the number and quality of complications encountered during lengthening
3. comparing the impact of ulna lengthening or not on the length of the ulna

MATERIALS AND METHODS

The material consists of 44 upper limbs, diagnosed with type III and IV of radial longitudinal deficiency according to the Bayne's and Klug's classification. Deformed limbs were evaluated in patients on completion of 3 years, due to a delayed ossification that might in those cases of early evaluation falsify the quantitative relationship between the two types of defect. Limbs of patients have not been evaluated on completion of 18 years.

The study group includes 22 upper limbs (20 patients, 8 women and 12 men), in which lengthening procedure were performed at the age of between 3.41 and 15.38 years.

The control group was selected from a population of 46 limbs with radial longitudinal deficiency type III and IV who underwent from 2 to 12 measurements of X-rays falling in the age of study group (in order to compare groups with each other), it is between 3.41 and 18 years. As a method of surgical treatment in this group no ulna lengthening was performed. Of this population were drawn 22 cases (1 X-ray for 1 limb), which were analyzed in our study. For the allocation to the control group, a procedure of random assignment to group using a table of random numbers according to Brzezinski was performed.

Evaluation of the study group, in which the ulna lengthening procedure was performed once (along with other corrective operational procedures) was conducted on the basis of the following parameters known from the literature as the initial length, final length, elongation, latency period, % increase in length, the total period of stabilization and the coefficient of healing.

The difficulties occurring during the total period of stabilization in the case of lengthening limbs, were classified according to the classification proposed by Paley to the problems, obstacles and complications.

RESULTS

There were no significant differences between the studied parameters depending on the type (III and IV) and side (R and L) the occurrence of radial longitudinal deficiency among the study group.

There was a statistically significant difference in average ulnas length before and after the lengthening within the study group.

There was a significant difference in ulna elongation in the group aged over 10.5 years compared to the other two younger age groups of the study group.

Complications occurring during the elongation revealed in 59% of elongated limbs, and there were difficulties in 15%, 54% the obstacles, and complications in 31% according to Paley's classification.

Found that there is statistical difference between the average lengths of the ulnas in the study group after lengthening, and the average length of the ulnas in the control group, in each age group separately.

CONCLUSIONS

1. No significant differences between the studied parameters depending on the type (III and IV) and side (R and L) the occurrence of the radial longitudinal deficiency in the study group
2. There are differences between the lengths of the ulnas in the radial longitudinal deficiency type III and IV, in which the procedure of lengthening were performed or not
3. In the tested age groups the significantly higher ulna elongation in radial longitudinal deficiency type III and IV, were obtained in a group of over 10.5 years of age
4. Complications occur in 59% of the elongated ulnas