

· 病例报告 ·

踝前小切口踝关节融合术治疗 踝关节血友病性关节炎 1 例

刘凡¹,程士欢²,张德宝¹,李伟¹,谷贵山¹

(1.吉林大学第一医院骨关节外科,吉林 长春 130021;2.吉林大学第一医院康复科,吉林 长春 130021)

关键词 踝关节; 血友病性关节炎; 融合术

中图分类号:R684.3

DOI:10.12200/j.issn.1003-0034.2023.06.016

开放科学(资源服务)标识码(OSID):



Treatment of hemophilic arthropathy of ankle by arthrodesis with a small anterior approach:a case report

LIU Fan¹, CHENG Shi-huan², ZHANG De-bao¹, LI Wei¹, GU Gui-shan¹ (1. Department of Orthopaedics Surgery, the First Hospital of Jilin University, Changchun 130021, Jilin, China; 2. Department of Rehabilitation, the First Hospital of Jilin University, Changchun 130021, Jilin, China)

KEYWORDS Ankle joint; Hemophilic arthropathy; Arthrodesis

患者,男,27岁,因“右踝关节疼痛7年,加重伴活动受限3个月”于2021年4月入院。患者幼年被确诊为血友病A,此前未接受凝血因子替代治疗。7年前开始出现右踝关节疼痛,近3个月疼痛加重,步行距离<600 m。查体见右踝关节外踝、后踝压痛明显,背伸跖曲受限,活动范围<15°。疼痛视觉模拟评分(visual analogue scale, VAS)8分,美国骨科足踝协会(American Orthopaedic Foot and Ankle Society, AOFAS)评分48分,改良Arnold-Hilgartner分级Ⅲ级^[1]。

术前血液学检查:凝血因子Ⅷ定量1.2%,凝血因子Ⅸ定量108.9%,Ⅷ抑制物阴性,凝血活酶混合孵育试验35 s,凝血活酶混合即刻试验34 s,活化部分凝血活酶时间(activated partial thromboplastin time, APTT)68.6 s,白细胞、红细胞、血小板及肝肾功能等实验室检查正常。影像学检查:右踝关节正侧位DR示踝关节间隙狭窄,关节面模糊,关节面骨质密度不均匀增高,组成骨边缘变尖(图1a-1b);右踝关节MRI示右踝关节组成骨质边缘变尖,胫骨前部及距骨颈部呈鸟嘴样改变,胫距关节胫骨及距骨、距下关节距骨及更鼓关节面下骨质内斑片状长T1长T2异常信号。关节间隙变窄,局部软骨变薄缺失,关节面欠光滑,关节腔内液体量增多,信号不均。周围软组织内未见明确异常信号影。

治疗计划:踝关节融合术参考大型手术凝血因子替代治疗方案,维持到切口拆线后。血友病甲患者

采用血源性或重组凝血Ⅷ因子替代,若Ⅷ抗体阳性则选择凝血酶原复合物替代。术前按补充90%凝血因子的水平行预试验。因子用量:(拟达到的凝血因子水平-术前凝血因子水平)×体重×0.5。测定输注后即刻、30 min 及1、3、6、8、12、24 h 血液中凝血因子浓度及APTT,并确定凝血因子体内使用半衰期及浓度高峰,同时于预试验前及凝血因子输注后24 h 检测凝血因子抗体。手术当日根据凝血因子水平(因子Ⅷ或Ⅸ)补充凝血因子量:(拟达到的凝血因子水平-术前凝血因子水平)×体重×0.5,使其活性水平达到100%,患者术后每日间隔12 h 检查Ⅷ因子活性,根据结果补充凝血因子。术后1周保持活性80%以上,拆线前保持60%以上。

麻醉与手术方法:采用静吸复合全麻。麻醉生效后取仰卧位,右踝垫高,右大腿近端扎电动止血带,常规消毒铺单。右下肢驱血后,设置压力45 kPa 开始充气止血。取右踝前正中切口,长约8 cm,逐层切开皮肤、皮下及筋膜,电凝止血,注意保护腓浅神经,并将其向外侧牵开。显露伸肌支持带,沿拇长伸肌表面锐性分离,将胫前肌、拇长伸肌向两侧牵开,保护深部血管神经。切开关节囊,剥离胫骨远端和距骨背侧骨膜,显露踝关节、内外侧沟及内外踝。术中见踝关节有炎性改变,胫距关节表面软骨破坏。用摆锯彻底清除胫距关节面的软骨和部分骨皮质,直至暴露软骨下骨面点状渗血,后用刮勺彻底清除内外踝及后踝关节面内的软骨。将备用的同种异体股骨头去除表面软骨,修整成适合胫距关节间隙的矩形骨块。跖曲位在胫距关节间隙内填充修整好的同种异体

通讯作者:谷贵山 E-mail:gugs@jlu.edu.cn

Corresponding author:GU Gui-shan E-mail:gugs@jlu.edu.cn

骨，并用剩余碎骨块植入股间隙，打压夯实。在 C 形臂 X 线机引导下用 3 枚斯氏针从足跟进入，将胫距关节固定于跖曲 5°、轻度外翻轻度外旋位。术中拍片见胫距关节内同种异体骨植入充分，斯氏针固定牢靠。逐层缝合切口，弹力绷带包扎固定，并以支具辅助外固定。

术后处理：静脉应用头孢菌素预防感染至术后 24 h 以及对症止痛治疗，患肢抬高并予间断冰敷减轻肿胀。凝血功能监测：术后第 1~3 天每日 1 次，第 4~7 天隔日 1 次，第 2 周 1~2 次。保持凝血因子活性术后 1 周在 80% 以上，拆线前在 60% 以上。因本病例未应用凝血酶原复合物，未予药物抗凝，患肢以足趾和膝关节活动为主，健侧行踝泵和直腿抬高等练习。术后第 3 天开始拄双拐下地行走，患肢不负重，术后 2 周拆线，8 周后允许部分负重。

随访和结果：术后第 6 周（图 1c-1d），VAS 4 分，X 线示部分融合，无出血感染等并发症，肿胀程度

轻。术后第 14 周（图 1e-1f）：VAS 2 分，X 线示已融合，无出血感染等并发症，肿胀程度轻。入院后在补充凝血因子基础上于处置室取出斯氏针，并予无菌敷料覆盖。取出内固定术后 X 线示踝关节已融合（图 1g-1h），VAS 1 分。

讨论

血友病性关节炎是血友病患者常见的继发性病变，其中踝关节血友病性关节炎发病率在膝关节和肘关节之后的第 3 位，约为 14.5%^[2]。但其是疼痛症状最显著的关节，约占 45%^[3]。由于承载负荷大、起病时间早、进展快，在 20~30 岁即可进展为晚期关节炎^[4-5]。常表现为疼痛、关节肿胀、功能障碍并合并畸形，影像学主要表现为骨赘形成、软骨下骨硬化、关节间隙狭窄及距骨倾斜等^[6]。其他治疗措施无效时，应考虑行踝关节置换术或融合术^[7-9]。二者均能在短期内缓解疼痛并提高患者满意度，但踝关节置换术后不良事件和感染率较高，假体生存时间不长，有时



图 1 患者，男，27岁，血友病性关节炎 **1a, 1b.** 术前右踝正位侧位 X 线片示踝关节间隙狭窄，关节面模糊，关节面骨质密度不均匀增高，组成骨边缘变尖 **1c, 1d.** 融合术后第 6 周右踝关节正位侧位 X 线片示部分融合 **1e, 1f.** 融合术后第 14 周右踝关节正位侧位 X 线片示已融合 **1g, 1h.** 融合术后 15 周，取出内固定后 2 d，右踝关节正位侧位 X 线片示踝关节已融合

Fig.1 Male, 27-year-old, Hemophilic arthropathy **1a, 1b.** Preoperative AP and lateral X-ray films of right ankle joint showed that the ankle joint space was narrow; the articular surface was vague; the bone density of the articular surface was increased unevenly; and the composition bone edge became sharp **1c, 1d.** AP and lateral X-ray films of right ankle 6 weeks after fusion showed that partial union **1e, 1f.** AP and lateral X-ray films of right ankle 14 weeks after fusion showed that the ankle had fused **1g, 1h.** AP and lateral X-ray films of right ankle 15 weeks after fusion and 2 days after removal of internal fixation showed that the ankle had fused

需二次手术，因此踝关节融合术仍是终末期踝关节血友病性关节炎的主要治疗方式^[10-12]。

文献报道有超过 40 种踝关节融合方法，固定方式包括钢板固定、螺钉固定、髓内钉固定和外固定架固定等，但具有手术创伤大、花费高。结合血友病患者特点，本病例采用踝前小切口异体骨植骨斯氏针内固定的方式，具有创伤小、术中出血少、花费少、固定可靠及取出内固定简单等优势。

查阅国内外相关文献，目前尚无本文采用的踝前小切口异体骨植骨斯氏针固定的方案报道。本案采用的手术方案有较多优势：(1)手术切口小、出血少，减少了对凝血因子的需要，可减少住院时间，降低住院费用。(2)采用保留内外踝的前方入路，相较于外侧入路可保留腓骨、踝关节的正常轮廓和部分功能，具有一定的活动度，同时并不影响术中显露，并且融合位置摆放准确。(3)固定可靠，本病例采用 3 枚斯氏针呈三角柱状固定，在原理上类似其他案例报道使用的交叉螺钉固定，虽然无加压作用，但操作相对简单。(4)融合充分，笔者在其他终末期创伤性踝关节炎患者中采用此种术式，取得了满意疗效，尚无融合失败的案例。(5)植骨少，血友病患者由于反复出血，软骨保留少，软骨下骨硬化程度较高，交叉螺钉固定方案不植骨，存在不融合的风险。若血友病患者采用髂骨植骨，额外手术可引起出血，增加手术风险，因此自体骨移植方案不可行。因此，本案采用的少量同种异体骨植骨方案不增加出血风险，同时可增加融合概率。(6)取出内固定简单。本案例在术后 14 周回院复查时 X 线显示融合充分，可在补充凝血因子基础上，保证无菌条件下在处置室即可操作，无须再次手术和麻醉，减少患者损伤和花费。

目前关于踝关节血友病性关节炎的研究以小样本的案例报道和回顾性分析为主，手术方式多采用关节镜下踝关节融合术，少数采用开放手术。采用关节镜下踝关节融合术的优势在于：(1)创伤较小，患者出血少。(2)术后疼痛程度较轻，血栓形成风险较低。(3)缩短融合时间。但关节镜技术也具有如下劣势：(1)关节镜融合对技术要求高，学习曲线较长，采用关节镜技术手术清理软骨和软骨下骨较困难。(2)血友病患者由于反复出血，关节软骨残留较少，邻近骨硬化程度高，可导致较高的不愈合率。(3)踝关节镜手术指征为冠状面<15°的内外翻畸形、胫骨距骨前后<1 cm 的移位，对内外翻>15°的患者则无法行踝关节镜手术^[13]。(4)有研究报道患者因内固定螺钉刺激软组织，并且疼痛严重，常需再次手术取出螺钉^[14-15]，增加患者风险。

相较于关节镜技术，本案采用的开放手术方案

清理残留软骨和硬化的软骨下骨较为彻底。另外，对于踝关节镜无法矫正的内外翻畸形和胫骨距骨的前后移位，采用开放手术更易纠正。但本术式的缺点是融合时间比关节镜手术略长，BAI 等^[16]报道 10 例踝关节镜手术的平均融合时间是 10.5 周。PAN-OTOPoulos 等^[15]报道 4 例踝关节镜手术的融合时间为 8~12 周，本病例术后 14 周方可见融合。另外，本方案也有以下缺点：(1)采用斯氏针固定具有一定的出血和针道感染风险，因此术后需用无菌敷料覆盖裸露的斯氏针，并定期行针道护理。(2)本方案在术者治疗的终末期创伤性关节炎患者中得到满意结果，在踝关节血友病性关节炎病例中应用较少，因此本方案的效果需进一步研究证实。

为成功治疗晚期踝关节血友病性关节炎，需谨慎选择治疗方案，术中仔细清除残留软骨和硬化的软骨下骨，准确对位胫距关节，避免内翻和内旋，确保稳定固定；术后需保证凝血因子含量，避免发生出血感染等并发症。由于踝关节融合术后有邻近关节退变的风险，术后需定期随访^[17]。与按需治疗相比，早期一级预防和二级预防可减少关节和其他部位的出血次数并防止血友病关节炎进展^[18]，方法包括每周补充凝血因子至成年，保证其含量≥1%^[19]，还可采用放射性滑膜切除术或关节镜下滑膜切除术等方式减少关节内出血以延缓关节破坏。

参考文献

- [1] LUCK J V Jr, SILVA M, RODRIGUEZ-MERCHAN E C, et al. Hemophilic arthropathy [J]. J Am Acad Orthop Surg, 2004, 12(4): 234-245.
- [2] HOSKINSON J, DUTHIE R B. Management of musculoskeletal problems in the hemophilias [J]. Orthop Clin North Am, 1978, 9(2): 455-480.
- [3] WALLNY T, HESS L, SEUSER A, et al. Pain status of patients with severe haemophilic arthropathy [J]. Haemophilia, 2001, 7(5): 453-458.
- [4] 和红霞, 闫振宇. 血友病性关节病的病理生理机制 [J]. 血栓与止血学, 2020, 26(2): 358-360.
- [5] HE H X, YAN Z Y. Pathophysiological mechanism of hemophilic arthropathy [J]. Chin J Thromb Hemostasis, 2020, 26(2): 358-360. Chinese.
- [6] BERNTORP E. The treatment of haemophilia, including prophylaxis, constant infusion and DDAVP [J]. Baillieres Clin Haematol, 1996, 9(2): 259-271.
- [7] RIBBANS W J, PHILLIPS A M. Hemophilic ankle arthropathy [J]. Clin Orthop Relat Res, 1996(328): 39-45.
- [8] MANN H A, BIRING G S, CHOUDHURY M Z, et al. Ankle arthropathy in the haemophilic patient: a description of a novel ankle arthrodesis technique [J]. Haemophilia, 2009, 15(2): 458-463.
- [9] BARG A, ELSNER A, HEFTI D, et al. Haemophilic arthropathy of the ankle treated by total ankle replacement: a case series [J]. Haemophilia, 2010, 16(4): 647-655.
- [10] RODRIGUEZ-MERCHAN E C. Orthopaedic problems about the

- ankle in hemophilia [J]. J Foot Ankle Surg, 2012, 51(6): 772–776.
- [10] RODRIGUEZ-MERCHAN E C. Total ankle replacement in hemophilia [J]. Cardiovasc Hematol Disord Drug Targets, 2020, 20(2): 88–92.
- [11] THOMAS R, DANIELS T R, PARKER K. Gait analysis and functional outcomes following ankle arthrodesis for isolated ankle arthritis [J]. J Bone Joint Surg Am, 2006, 88(3): 526–535.
- [12] DEHEER P A, CATOIRE S M, TAULMAN J, et al. Ankle arthrodesis: a literature review [J]. Clin Podiatr Med Surg, 2012, 29(4): 509–527.
- [13] TSUKAMOTO S, TANAKA Y, MATSUDA T, et al. Arthroscopic ankle arthrodesis for hemophilic arthropathy: two cases report [J]. Foot (Edinb), 2011, 21(2): 103–105.
- [14] BLUTH B E, FONG Y J, HOUMAN J J, et al. Ankle fusion in patients with haemophilia [J]. Haemophilia, 2013, 19(3): 432–437.
- [15] PANOTOPOULOS J, HANSLIK-SCHNABEL B, WANIVENHAUS A, et al. Outcome of surgical concepts in haemophilic arthropathy of the hindfoot [J]. Haemophilia, 2005, 11(5): 468–471.
- [16] BAI Z W, ZHANG E S, HE Y T, et al. Arthroscopic ankle arthrodesis in hemophilic arthropathy [J]. Foot Ankle Int, 2013, 34(8): 1147–1151.
- [17] TSAILAS P G, WIEDEL J D. Arthrodesis of the ankle and subtalar joints in patients with haemophilic arthropathy [J]. Haemophilia, 2010, 16(5): 822–831.
- [18] MANCO-JOHNSON M J, ABSHIRE T C, SHAPIRO A D, et al. Prophylaxis versus episodic treatment to prevent joint disease in boys with severe hemophilia [J]. N Engl J Med, 2007, 357(6): 535–544.
- [19] BERNTORP E, ASTERMARK J, BJÖRKMAN S, et al. Consensus perspectives on prophylactic therapy for haemophilia: summary statement [J]. Haemophilia, 2003, 9(Suppl 1): 1–4.

(收稿日期:2022-06-30 本文编辑:连智华)

医源性髂外动脉损伤致髋关节离断 1 例

厚兆军

(平凉市第二人民医院,甘肃 平凉 744000 E-mail:1207690766@qq.com)

关键词 股骨颈骨折; 髋关节; 治疗失误; 血管损伤

中图分类号:R683

DOI:10.12200/j.issn.1003-0034.2023.06.017

开放科学(资源服务)标识码(OSID):



A case of hip joint disconnection caused by iatrogenic external iliac artery injury

HOU Zhao-jun (The Second People's Hospital of Pingliang, Pingliang 744000, Gansu, China E-mail:1207690766@qq.com)

KEYWORDS Femoral neck fractures; Hip joint; Therapeutic errors; Vascular injuries

患者,男,25岁,因左髋部外伤后疼痛、活动受限3 h,经X线检查以“左股骨颈骨折”入院(图1a-1b)。入院后进行常规胸片、腹部B超、心电图及实验室检查,结果回报:胸腹部未见异常,心电图示正常窦性心律。血常规:血红蛋白 $11.5 \times 10^9/L$,红细胞 $3.65 \times 10^12/L$,白细胞 $8.3 \times 10^9/L$,血小板 $14.7 \times 10^9/L$ 。生化全项检查结果正常,血型A型RH阳性。完善术前准备工作,于入院后第3天在硬膜外麻醉下行左股骨颈骨折闭合复位空心拉力螺钉内固定术,于转子下2 cm处切开约2.5 cm大小的切口,显示转子下股骨外侧壁,闭合手法牵引复位。C形臂X线透视下见正位像骨折对位满意后,用3枚导针在导向器引导下自转子下切口向股骨颈不同方向钻入,透视见导针距股骨头软骨下0.5 cm(未透视侧位像)。用空心钻沿导针扩孔,拧入第1枚拉力空心螺钉,当空心钻沿第2枚导针扩孔透视查看深度,见钻头深入盆腔内约1.5 cm,透视下退至股骨头软骨下0.8 cm,拧

入长短合适的螺钉。此时患者血压呈进行性下降,并伴有烦躁、心率加快,血压不能维持。检查手术切口无活动性出血,行气管插管全麻,并联系输A型RH阳性去白细胞悬浮红细胞4 U,急查血常规示血红蛋白5 g/L,呈重度贫血。再次联系输血及快速补液,血压勉强维持在收缩压70~85 mmHg,舒张压45~55 mmHg(1 mmHg=0.133 kPa),此刻仍未意识到盆腔血管损伤风险,关闭切口,转ICU室进一步抢救性治疗。入ICU后患者仍呈昏迷状,血压继续下降,前后共输血9 000 ml,腹部彩超提示盆腔、后腹膜大量液性暗区,左下肢苍白、冰凉,足背动脉及股动脉不能触及,考虑手术损伤髂外血管。此时距损伤已8 h,紧急行手术探查,见髂外动脉于入股环近端约3 cm处不全破裂。清除盆腔血肿,肝素冲洗血管断端,行血管侧壁修复,热盐水纱布局部热敷20 min,观察左下肢血运情况,见膝关节平面以上皮肤毛细血管充盈良好,小腿及足部仍苍白、冰凉,足背动脉不能触