

# 全膝关节置换术治疗 Paget 骨病合并膝关节炎 1 例

胡乃严<sup>1</sup>, 李玉军<sup>2</sup>, 陈林林<sup>1</sup>, 孙宝玲<sup>1</sup>, 杨宇<sup>1</sup>

(1. 鞍钢集团公司总医院骨科, 辽宁 鞍山 114008; 2. 北京积水潭医院, 北京 100035)

关键词 Paget 骨病; 骨关节炎; 全膝关节置换术

中图分类号: R684.3

DOI: 10.12200/j.issn.1003-0034.20220227

开放科学(资源服务)标识码(OSID):



## Total knee arthroplasty for Paget's bone disease complicated with osteoarthritis: a case report

HU Nai-yan<sup>1</sup>, LI Yu-jun<sup>2</sup>, CHEN Lin-lin<sup>1</sup>, SUN Bao-ling<sup>1</sup>, YANG Yu<sup>1</sup> (1. Department of Orthopaedics, Ansteel Hospital, Anshan 114008, Liaoning, China; 2. Beijing Jishuitan hospital, Beijing 100035, China)

KEYWORDS Paget's bone disease; Osteoarthritis; Total knee arthroplasty

患者,男,52岁,于2022年2月16日在北京积水潭医院矫形骨科就诊,因“右膝关节疼痛活动受限4年”为主诉入院。患者4年前无诱因出现右膝关节疼痛,活动受限,逐年加重。专科查体:右侧股骨远端关节肥大,右膝关节内翻畸形,关节肿胀,膝关节周围皮温不高,内侧间隙压痛阳性,右膝关节屈曲范围受限至30°,双足背动脉搏动良好。既往史:否认心脑血管疾病等慢性病史,否认出血倾向,否认外伤及手术史。右膝X线片显示典型畸形性骨炎的影像学表现,包括骨干中部到股骨髁的骨皮质膨胀破坏,呈“丝瓜瓤”样改变,骨干增粗,股骨弯曲变形,并伴有内侧骨关节炎改变(图1a-1d)。实验室检查提示除血碱性磷酸酶升高(401 IU·L<sup>-1</sup>)外,生化及全血细胞计数未见明显异常。入院诊断:Paget骨病继发右膝骨性关节炎。完善相关检查,患者术前1h静滴氨甲环酸1g,在腰麻下行右侧全膝关节置换术,术中见骨硬化并皮质脆弱,新旧骨由于黏合线杂乱排列而呈“镶嵌状”改变(图1e-1f)。术者考虑患者膝周韧带及软组织张力差,骨质疏松严重,术中即改用旋转铰链膝关节(rotating hinge knee, RHK)假体置换,术后留置负压引流管并对伤口进行加压包扎。患者术后常规预防感染、消肿、抗凝、止痛等对症处理,48h后拔出引流管行膝关节功能练习,同时,继续给予双磷酸盐类药物原发病。患者术后3d复查X线提示假体位置良好(图1g-1h)。术后第6天在专科医师指导下拄拐行走,2周拆线出院。术后4个月患者

复诊时,右膝切口愈合良好,股骨及胫骨假体各组件位置可(图1i-1k)。

## 讨论

1876年伦敦医生詹姆斯·佩吉特爵士发表了关于慢性骨骼疾病的著名专著,他将其称为畸形性骨炎,并以他的名字命名为Paget骨病,在世界的一些地区,它是仅次于骨质疏松症的第二大常见的骨骼疾病<sup>[1]</sup>。Paget骨病以老年人多见,男性略多于女性,它的发病率随着年龄的增长而增加,这种疾病主要发生在欧洲人后裔,具有明显的地理分布,在英国发病率最高,在日本最低,目前其发病机制尚不明确,大多考虑与病毒、环境、遗传等因素有关<sup>[2]</sup>。

Paget骨病的疾病特征是由于破骨细胞和成骨细胞的数量及活性增加,最终导致骨内部结构的异常<sup>[3]</sup>。X线影像学检查及血碱性磷酸酶测定值增高对辅助诊断Paget骨病具有重要的临床价值,且阳性率较高。X线片通常表现为骨质溶解和硬化同时存在,骨密度降低,骨皮质扩张、增厚和变形,病灶内皮质骨、小梁边缘粗糙、绒毛状,可见斑片状磨砂玻璃样高密度灶,骨骼大多呈“丝瓜瓤”样改变<sup>[4]</sup>。骨痛是Paget骨病的最常见症状,呈持续性,在夜间和负重时往往加重,疼痛多由骨皮质微骨折引起的,并且是自限性。Paget骨病合并肢体畸形常引起生物力学改变而导致继发性步态不协调和关节压力异常增高。当关节附近的骨骼发生病变时,通常引起关节退行性变,临床上表现为骨关节炎症状。Paget骨病继发性骨关节炎的患病率为91%,主要集中在脊柱(37%)、髋关节(30%)和膝关节(11%)<sup>[5]</sup>。与原发性骨关节炎不同,Paget骨病继发关节炎的X线影像学常表现为

通讯作者:李玉军 E-mail:lyj67890@163.com

Corresponding author: LI Yu-jun E-mail:lyj67890@163.com

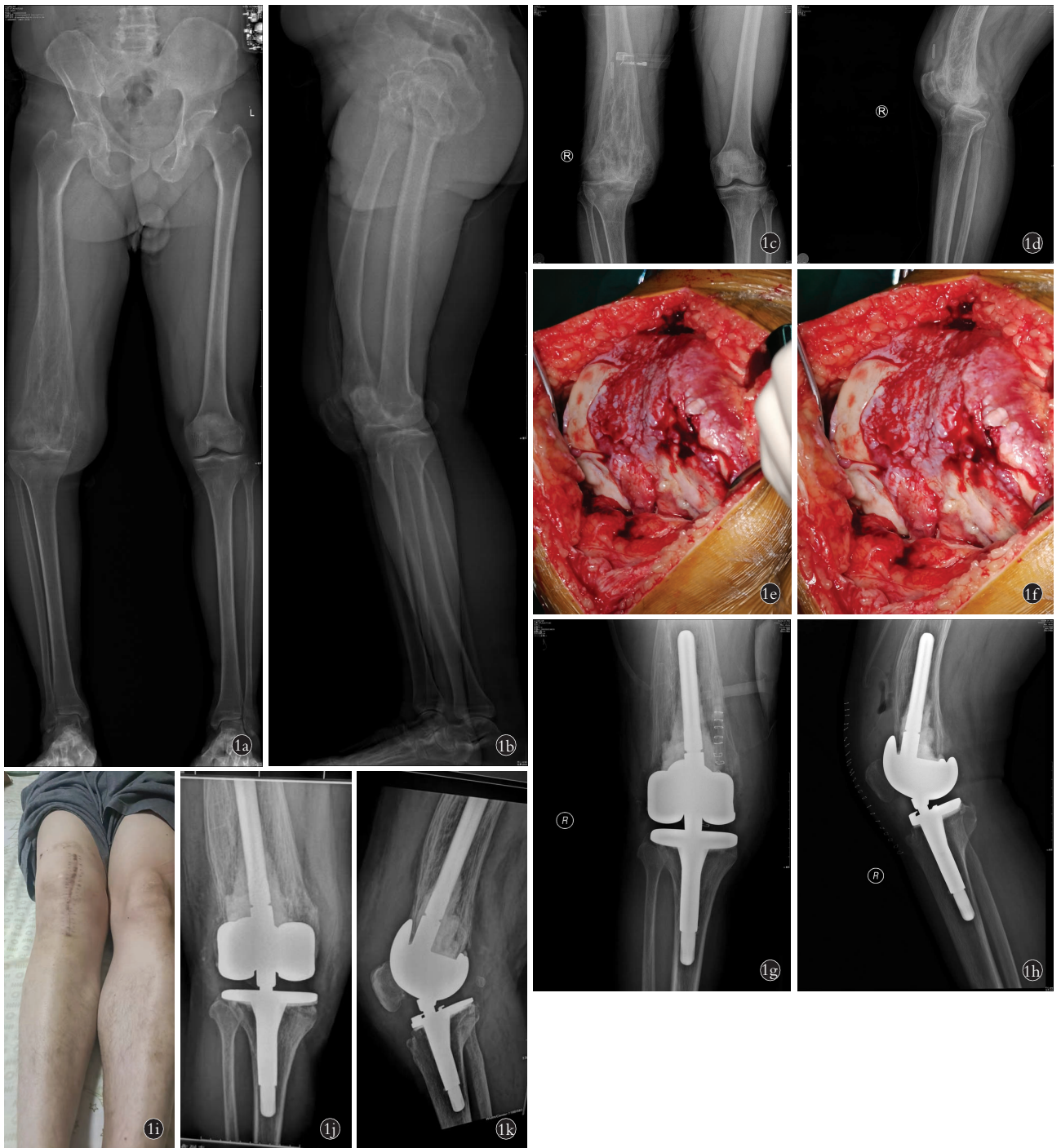


图 1 患者,男,52 岁,2022 年 2 月 16 日收治诊断为 Paget 骨病合并膝关节炎 1a,1b,1c,1d. 术前非负重位双下肢全长正侧位 X 线及右膝正侧位 X 线片示骨干中部到股骨髁的骨皮质膨胀破坏,呈“丝瓜瓤”样改变,骨干增粗,股骨弯曲变形,并伴有内侧骨关节炎 1e,1f. 右膝关节术中图片示骨皮质硬化,骨质疏松,新旧骨由于黏合线杂乱排列而呈“镶嵌状”改变 1g,1h. 术后 3 d 右膝正侧位 X 线片示股骨及胫骨假体各组件位置良好 1i. 术后 4 个月右膝体表像示右膝切口愈合良好,瘢痕形成 1j,1k. 术后 4 个月右膝正侧位 X 线片示股骨及胫骨假体各组件位置良好

**Fig.1** A 52-year-old male patient with Paget's bone disease complicated with osteoarthritis 1a,1b,1c,1d. Preoperative AP and lateral X-rays of the full length of both lower limbs AP and lateral X-rays of the right knee in non-weight-bearing position showed that the bone cortex from the middle of the diaphysis to the condyle of the femur was dilated and damaged, showing a "loofah" -like change. The diaphysis was thickened, the femur was bent and deformed, and accompanied by medial osteoarthritis 1e,1f. Intraoperative findings of the right knee showed cortical sclerosis of bone, osteoporosis, old and new bone due to disordered arrangement of adhesive lines and "Mosaic" changes 1g,1h. Three days after the operation, AP and lateral X-rays examination showed that the femoral and tibial components were in good position 1i. At 4 months after operation the body image of the right knee showed that the incision of the right knee was well healed and scar formed 1j,1k. At 4 months after operation AP and lateral X-rays of the right knee showed that the femoral and tibial components were in good position

受累关节软骨退变,关节间隙均匀变窄,关节呈肥大性改变。发病机制可能是软骨下骨血管增生、骨组织增殖活跃,导致软骨内骨化加速及紊乱,软骨内硬化区丢失,导致剩余软骨变薄及形态不规则<sup>[6]</sup>。同时,继发性的骨骼弓状畸形进一步发生了关节内应力分布异常,加速了退行性关节疾病的发展进程。本例患者膝关节疼痛为首发症状,膝关节正侧位 X 线片符合 Paget 骨病继发骨关节炎的特征性影像学表现,同时还伴有血碱性磷酸酶升高,诊断较为明确。

双磷酸盐是目前治疗 Paget 骨病的首选药物,因为其具有特殊的药理特性,即在活跃的骨骼病变处有选择性摄取,特异性抑制骨吸收,可以有效改善病人骨骼疼痛症状,恢复正常的骨组织结构<sup>[7]</sup>。然而,大部分患者因合并 Paget 骨病而对治疗无反应,常常需使用非甾体类抗炎药来缓解症状。当患者关节活动范围受到严重影响或疼痛不缓解时,可能需行手术治疗来提高生活质量。长期以来,人工关节置换术治疗 Paget 骨病被认为是一个挑战,因为溶骨期的骨吸收和成骨期的骨沉积之间的失衡,导致骨骼畸形、骨结构脆弱和关节生物力学改变,这些都可能是导致手术失败的主要问题<sup>[8]</sup>。目前部分文献报道已经证明了 Paget 骨病的人工全髋关节置换术 (total hip arthroplasty, THA) 是安全的,患者术后的功能预后与其他患者大体相似<sup>[9]</sup>。但关于人工全膝关节置换术 (total knee arthroplasty, TKA) 治疗 Paget 骨病的相关研究较少。本文通过对本例患者分析,主要技术难点包括:(1)术中膝关节周围软组织粘连挛缩,髌骨增厚,增加了暴露切口的难度。(2)股骨髓腔封闭,髌间被增生硬化带覆盖,股骨髓腔内定位困难,开髓时容易造成股骨侧骨折。(3)股骨远端关节肥大,前弓畸形,股骨和胫骨假体之间不匹配。(4)髌骨成形及安放股骨侧假体时,由于骨质硬化,皮质脆弱,有髌腱撕脱及股骨内外髌骨折等风险。(5)Paget 骨病患者骨血管异常增生,与骨水泥间不能产生干燥接触面,可能导致假体固定不良,造成术后假体松动。(6)其他因素,包括手术时间延长、术中出血量多等。因此,根据该患者的病例特点,术者考虑选用铰链或髌限制型 (condylar constrained knee, CCK) 假体,但在松解膝周软组织时,发现内外侧副韧带张力差,股骨及胫骨皮质严重疏松,CCK 不能保证膝关节足够

稳定性,即术中选择了美国 ZIMMER 公司生产的 NEXGEN 旋转铰链型膝关节假体。相较于传统铰链膝,可旋转铰链膝关节在保证自身良好稳定性和屈伸功能的基础上,有内外旋运动达 25°(合计 50°),同时 3 个缓冲界面可有效地分散应力,可有效降低假体松动率。但 RHK 较常规 TKA 截骨范围大,假体植入髓腔部分较多,应特别警惕术后感染的发生。针对本例患者,由高年资医师完成,术中严格遵循无菌操作,术中及术后常规使用抗生素,术后留置引流管,防止切口内积血。此外,术后继续给予双磷酸盐类药物,进一步减少了过度的骨重塑和防止假体松动,患者术后功能康复良好。目前针对治疗这一特殊群体患者的外科医生需要意识到特殊的挑战和进行必要的干预措施,这对获得最佳结果至关重要。本例患者随访时间较短,远期疗效还有待进一步观察。

#### 参考文献

- [1] GENNARI L, RENDINA D, PICCHIONI T, et al. Paget's disease of bone: an update on epidemiology, pathogenesis and pharmacotherapy[J]. Expert Opin Orphan Drugs, 2018, 6: 485-496.
- [2] 刘福成, 李其云. 畸形性骨炎伴多中心性骨巨细胞瘤 1 例[J]. 中国骨伤, 1995, 8(5): 8.  
LIU F C, LI Q Y. A case of osteitis deformans with multicentric giant cell tumor of bone[J]. China J Orthop Traumatol, 1995; 8(5): 8. Chinese.
- [3] TUCK SP, WALKER J. Adult Paget's disease of bone[J]. Clin Med, 2020, 20(6): 568-571.
- [4] MIAO X Y, WANG X L, LYU Z H, et al. Paget's disease of bone: report of 11 cases[J]. World J Clin Cases, 2021, 9(14): 3478-3486.
- [5] BORZ-BABA C, SACHAN Y, SAPERS B, et al. A case of rheumatoid arthritis and Paget disease of bone[J]. Am J Case Rep, 2019, 20: 764-769.
- [6] HOU C C, LO C W, CHANG J M, et al. Monostotic Paget's disease: a case report[J]. Chinese J Radiology, 2002, 27(3): 117-121.
- [7] REID I R. Management of Paget's disease of bone[J]. Osteoporos Int, 2020, 31(5): 827-837.
- [8] POPAT R, TSITSKARIS K, MILLINGTON S, et al. Total knee arthroplasty in patients with Paget's disease of bone: a systematic review[J]. World J Orthop, 2018, 9(10): 229-234.
- [9] MARTINO A D, COPPOLA M A R, BORDINI B, et al. Clinical and radiological outcomes of total hip arthroplasty in patients affected by Paget's disease: a combined registry and single-institution retrospective observational study[J]. J Orthop Traumatol, 2021, 22(1): 13.

(收稿日期: 2022-07-20 本文编辑: 王玉蔓)