

临床论著

术前 Halo 重力牵引对 I 型神经纤维瘤病伴严重脊柱侧后凸畸形截骨等级的影响

许彦劼¹, 刘臻^{1,2}, 胡宗杉¹, 汤子洋², 凌宸², 李韦彪¹, 朱泽章^{1,2}, 邱勇^{1,2}

(1 南京大学医学院附属鼓楼医院脊柱外科; 2 南京医科大学鼓楼临床医学院脊柱外科 210008 南京市)

【摘要】目的:探讨术前 Halo 重力牵引(Halo-gravity traction, HGT)对 I 型神经纤维瘤病(neurofibromatosis type I, NF1)伴严重脊柱侧后凸患者截骨等级的影响。**方法:**回顾性分析 2011 年 1 月~2018 年 12 月在我院治疗的 19 例 NF1 合并严重脊柱侧后凸畸形患者的临床及影像学资料,其中男 11 例,女 8 例,年龄 15.8±7.1 岁(6~41 岁)。根据术前是否行 HGT 分为两组:A 组术前先行 HGT 治疗,再行后路矫形手术(13 例);B 组术前未行 HGT 治疗,直接行后路截骨矫形手术(6 例)。记录并比较两组患者术中截骨方案、手术情况及并发症发生情况。在牵引前(术前)、牵引后及术后的 X 线片上分别测量冠状面侧凸 Cobb 角、冠状面侧凸角度比值(coronal deformity angular ratio, c-DAR)、最大后凸 Cobb 角(global kyphosis, GK)及矢状面后凸角度比值(sagittal deformity angular ratio, s-DAR)并进行比较。**结果:**两组患者一般资料、肺功能相关指标及牵引前(术前)各影像学参数差异无统计学意义($P>0.05$)。A 组患者最大牵引重量为 13.0±2.1kg(9~16kg),牵引时间 9.9±3.8 周(6.5~19 周);牵引前冠状面主弯 Cobb 角和最大后凸 Cobb 角分别为 109.9°±23.2°和 84.2°±16.2°,牵引治疗后分别为 81.4°±21.0°和 68.0°±15.2°,牵引后侧、后凸矫正率分别为(26.3±9.1)%和(18.9±11.7)%;冠状面侧凸角度比值与矢状面后凸角度比值分别由牵引前的 17.5±4.1 和 13.0±3.6 减小至 12.8±3.5 和 10.9±2.7,差异均有统计学意义($P<0.05$);A 组 8 例患者最终未行三柱截骨(8/13, 61.5%),仅行 Ponte 截骨,B 组 6 例患者均行三柱截骨;术后主弯 Cobb 角为 60.8°±19.8°,矢状面后凸 Cobb 角矫正至 46.2°±16.1°,术后侧、后凸畸形矫正率分别为(45.2±10.9)%和(45.5±15.7)%。B 组患者术前冠状面 Cobb 角、最大后凸 Cobb 角分别为 101.7°±14.5°和 75.5°±9.9°,术后分别改善至 60.8°±19.8°和 39.0°±5.0°,术后侧、后凸畸形矫正率分别为(49.9±10.8)%和(47.9±7.2)%。两组患者畸形矫正率比较无统计学差异($P>0.05$)。与 B 组相比,A 组患者手术时间明显缩短、术中出血量明显减少,差异有统计学意义($P<0.05$)。A 组有 1 例患者在牵引 3 周时出现右侧臂丛神经麻痹,减轻牵引重量后逐渐恢复。两组中各有 1 例患者在术中截骨过程中出现神经电生理监护异常,术后均无明显神经损害表现。**结论:**对于 NF1 伴严重脊柱侧后凸患者,术前 HGT 是一种安全可靠的术前干预策略,不仅能够一定程度上改善患者术前侧后凸畸形,还能够降低术中截骨等级,缩短手术时间、减少术中出血量。

【关键词】 I 型神经纤维瘤病;脊柱侧后凸畸形;Halo 重力牵引;截骨

doi: 10.3969/j.issn.1004-406X.2022.02.03

中图分类号:R682.3 文献标识码:A 文章编号:1004-406X(2022)-02-0114-08

The influence of preoperative Halo-gravity traction on the selection of osteotomy grades in the treatment of severe kyphoscoliosis secondary to neurofibromatosis type I /XU Yanjie, LIU Zhen, HU Zongshan, et al//Chinese Journal of Spine and Spinal Cord, 2022, 32(2): 114-121

【Abstract】 Objectives: To evaluate the effects of preoperative Halo-gravity (HGT) traction on the osteotomy grades selection plan in the treatment of severe kyphoscoliosis secondary to neurofibromatosis type I (NF1). **Methods:** From January 2011 to December 2018, a consecutive cohort of 19 NF1 patients with severe kyphoscoliosis who underwent surgery in our institute were retrospectively reviewed, including 11 males and 8 females with an average age of 15.8±7.1(6-41) years old. According to the treatment methods, patients were divided into 2 groups: 13 patients in group A were treated with preoperative HGT followed by posterior

基金项目:国家自然科学基金(82072518);十三五南京市卫生人才培养工程(QRX17126)

第一作者简介:男(1997-),硕士研究生在读,研究方向:脊柱外科

电话:(025)83106666 E-mail:xuyanjie97@163.com

通讯作者:刘臻 E-mail:drliuzhen@163.com

surgery; 6 patients in group B underwent one-stage posterior surgery with spinal osteotomies. The osteotomy grades, operation data and perioperative complications were recorded. Radiographic parameters including the Cobb angle of coronal curve, coronal deformity angular ratio (c-DAR), global kyphosis (GK) and sagittal deformity angular ratio (s-DAR) were measured and compared before traction, after traction and immediately after surgery. **Results:** No significant difference was observed between the two groups in terms of the demographic data, pulmonary function and the preoperative radiographic parameters. For patients in group A, the average maximum traction weight of HGT was 13.0 ± 2.1 kg (9–16 kg) and the traction duration was 9.9 ± 3.8 (6.5–19) weeks. Before traction, the coronal Cobb angle and sagittal Cobb angle was $109.9^\circ \pm 23.2^\circ$ and $84.2^\circ \pm 16.2^\circ$ respectively, and they decreased to $81.4^\circ \pm 21.0^\circ$ and $68.0^\circ \pm 15.2^\circ$ after traction. The coronal and sagittal correction rates of deformity were $(26.3 \pm 9.1)\%$ and $(18.9 \pm 11.7)\%$ respectively. The c-DAR and s-DAR was significantly decreased from 17.5 ± 4.1 and 13.0 ± 3.6 to 12.8 ± 3.5 and 10.9 ± 2.7 , respectively. 8 patients (8/13, 61.5%) in group A needed not undergo three-column osteotomies after traction treatment, only Ponte osteotomies were performed, while all the 6 patients in group B underwent three-column osteotomies. After surgery, the coronal Cobb angle further improved to $60.8^\circ \pm 19.8^\circ$ and GK decreased to $46.2^\circ \pm 16.1^\circ$, with a correction rates of $(45.2 \pm 10.9)\%$ and $(45.5 \pm 15.7)\%$ respectively. For patients in group B, the coronal Cobb angle and sagittal Cobb angle was $101.7^\circ \pm 14.5^\circ$ and $75.5^\circ \pm 9.9^\circ$ respectively, and they decreased to $60.8^\circ \pm 19.8^\circ$ and $39.0^\circ \pm 5.0^\circ$ after surgery. The coronal and sagittal correction rates of deformity were $(49.9 \pm 10.8)\%$ and $(47.9 \pm 7.2)\%$ respectively. There was no significant difference with respect to the deformity correction rates between both groups ($P > 0.05$). The operation time was significantly shorter and the intraoperative blood loss was significantly less in group A than in group B ($P < 0.05$). 1 patient in group A had transient brachial plexus palsy which resolved completely after reducing the traction weight. Each group had 1 patient occurring abnormal intraoperative monitoring during the osteotomies period. No neurological defects were observed postoperatively. **Conclusions:** For NF1 patients with severe kyphoscoliosis, preoperative Halo-gravity traction is an effective and safe strategy, which can improve spinal deformity to some extent. In addition, it could increase the safety of surgery through reducing the osteotomy grades, shortening the operation time, and reducing blood loss.

[Key words] Neurofibromatosis; Scoliosis; Kyphosis; Halo-gravity traction; Osteotomy

[Author's address] Department of Spine Surgery, Nanjing Drum Tower Hospital, the Affiliated Hospital of Nanjing University Medical School, Nanjing, 210008, China

I 型神经纤维瘤病 (neurofibromatosis type 1, NF1) 又称外周型神经纤维瘤病, 为脊柱侧后凸畸形的主要病因之一。据文献报道, NF1 合并脊柱侧后凸畸形的发生率 10%~60%^[1,2]。此类脊柱畸形往往进展迅速, 且因患者的椎体结构存在严重变异, 手术治疗的难度和风险极大。对于脊柱侧后凸畸形严重的患者, 在行矫形手术时往往还需行复杂的三柱截骨 (three-column osteotomy, 3-CO) 手术。3-CO 手术虽然可达到良好的畸形矫正^[3-5], 但是创伤性较大, 对手术操作要求较高, 其围术期并发症也越来越受到临床医生的重视^[6,7]。如何在达到满意的畸形矫正的同时, 尽可能降低神经功能损害的发生风险, 成为脊柱外科医生关注的重点。近年来, Halo 重力牵引 (Halo-gravity traction, HGT) 因其可以在术前有效改善患者的侧后凸畸形, 提高患者对于手术的耐受性, 在临床中得到了

广泛的应用^[8-11]。在临床工作中, 我们发现对于部分 NF1 合并脊柱侧后凸畸形的患者, 经 HGT 治疗后往往不需行复杂的 3-CO 手术也可达到较为满意的矫形效果。本研究旨在探讨术前 HGT 对 NF1 伴脊柱侧后凸患者的临床疗效, 分析 HGT 治疗对于截骨等级的影响。

1 资料与方法

1.1 一般资料

回顾性分析 2011 年 1 月~2018 年 12 月在我院诊治的 NF1 伴重度脊柱侧后凸畸形患者的临床资料。纳入标准: (1) 根据美国国立卫生研究院的标准确诊为 NF1 患者^[12]; (2) 重度脊柱侧后凸畸形 (冠状面主弯 Cobb 角 $\geq 90^\circ$ 和/或矢状面最大后凸 Cobb 角 $\geq 80^\circ$); (3) 入院后制定的治疗方案均需行 3-CO 手术; (4) 临床及影像学资料完整。排

除标准:(1)既往有脊柱手术史;(2)行 HGT 治疗后未行脊柱矫形手术。本研究获得本中心伦理委员会审查批准,所有患者在入组前均签署知情同意书。

根据上述纳入及排除标准,最终纳入 19 例患者,男 11 例,女 8 例,年龄 15.8 ± 7.1 岁(6~41 岁)。根据术前是否行 HGT 牵引,分为 A 组(术前先行 HGT 牵引、再行后路矫形手术,13 例)和 B 组(直接行后路截骨矫形手术治疗,6 例)。

1.2 治疗方法

1.2.1 HGT 在局部麻醉下安置带有 4~6 枚固定螺钉的 Halo 头环,待患者适应后采用轮椅悬吊法进行牵引。初始牵引重量为 2kg,根据患者的耐受能力逐步增加牵引重量,增加速度为 2kg/d,直至达到最大牵引重量,即患者体重的 30%~50%,并保持日间牵引 12h 以上。对于已存在神经功能损害或神经并发症发生风险较高的患者则适当减缓牵引重量增加速度,并每日评估患者的神经功能。若患者在牵引治疗期间出现明显的颈部或背部疼痛,则立即减轻牵引重量;若出现颅神经症状、臂丛神经麻痹、感觉异常或肌力减退等症状时,则立即停止牵引。牵引 2~4 周后,拍摄全脊柱正侧位 X 线片并复查肺功能。若发现患者侧后凸畸形改善进入平台期,或患者的肺功能得到明显改善时,则立即进行脊柱矫形手术。本组患者最大牵引重量为 13.0 ± 2.1 kg(9~16kg),牵引时间 9.9 ± 3.8 周(6.5~19 周)。

1.2.2 后路截骨矫形手术 全身麻醉后取俯卧位,逐层切开皮肤、皮下组织,骨膜下剥离软组织,充分暴露棘突、椎板及关节突,根据术前拟定融合节段置入椎弓根螺钉。对于未行牵引治疗或牵引治疗后侧后凸角度仍较大的患者,采用 3-CO 手术,包括经椎弓根截骨术(pedicle subtraction osteotomy,PSO)或全椎体切除术(vertebral column resection,VCR);对于牵引治疗效果较好的患者,仅采用顶椎区 Ponte 截骨。手术全程行体感诱发电位(somatosensory evoked potential,SEP)及运动诱发电位(motor evoked potential,MEP)监测。常规行术中唤醒试验。

1.3 测量方法与评估参数

记录患者手术时间、术中出血量、牵引期间及围术期的并发症发生情况。评估 HGT 与手术治疗后患者脊柱畸形的改善情况,测量的影像学指标

包括:冠状面侧凸 Cobb 角、冠状面侧凸角度比值(coronal deformity angular ratio,c-DAR)、最大后凸 Cobb 角(global kyphosis,GK)、矢状面后凸角度比值(sagittal deformity angular ratio,s-DAR),并计算患者侧、后凸畸形的矫正率。在牵引前与牵引后评估肺功能指标:用力肺活量(forced vital capacity,FVC)和第 1 秒钟用力呼气容积(forced expiratory volume in 1 second,FEV1)。记录患者牵引治疗后截骨方案的选择。

1.4 统计学分析

应用 SPSS 22.0(SPSS 公司,美国)统计软件包进行统计分析,计量资料服从正态性分布,以 $\bar{x} \pm s$ 表示。两组患者各参数组内比较采用配对样本 t 检验,组间比较采用独立样本 t 检验;计数资料的比较采用 χ^2 检验及 Fisher 精确检验;检验水准 α 值取双侧 0.05。

2 结果

2.1 一般资料

两组患者的一般资料见表 1。两组间性别、年龄差异无统计学意义($P > 0.05$)。13 例行 HGT 治疗的患者牵引时间为 9.9 ± 3.8 周,平均最大牵引重量为 13.0 ± 2.1 kg。与 B 组相比,A 组患者手术时间明显缩短($t = -2.392, P = 0.029$)、术中出血量明显减少($t = -2.118, P = 0.049$)。

2.2 影像学资料与肺功能对比

两组患者治疗前后的影像学参数见表 2。A 组患者冠状面侧凸 Cobb 角在 HGT 治疗后降低,

表 1 两组患者一般情况、手术情况比较

Table 1 Comparison of the general data and surgical data between the two groups

	A组 Group A	B组 Group B
性别(n) Gender		
男 Male	8	3
女 Female	5	3
年龄(岁) Age	14.8 ± 4.0	17.8 ± 11.8
手术时间(h) Operative time	5.0 ± 1.0	$6.3 \pm 1.5^{\text{①}}$
出血量(ml) Blood loss	1065.4 ± 481.9	$1583.3 \pm 526.9^{\text{①}}$

注:①与 A 组比较 $P < 0.05$

Note: ①Compared with group A, $P < 0.05$

与牵引前相比差异有统计学意义 ($t=8.738, P<0.001$), 侧凸矫正率为 $(26.3\pm 9.1)\%$ 。最大后凸 Cobb 角 HGT 治疗后也有显著改善 ($t=5.440, P<0.001$), 后凸矫正率为 $(18.9\pm 11.7)\%$ 。冠状面侧凸角度比值与矢状面后凸角度比值与牵引前相比, 差异均有统计学意义 ($P<0.05$)。A 组手术后, 侧、后凸 Cobb 角均改善, 与牵引后比较差异有统计学意义 ($P<0.05$), 术后矫正率分别为 $(45.2\pm 10.9)\%$ 和 $(45.5\pm 15.7)\%$ (图 1)。B 组患者术后侧、后凸畸形矫正率分别为 $(49.9\pm 10.8)\%$ 和 $(47.9\pm 7.2)\%$ (图 2)。两组患者术后畸形矫正率比较, 差异无统计学意义 ($P>0.05$)。

两组治疗前后的肺功能情况见表 3。FVC 与 FEV1 的差异无统计学意义 ($P>0.05$)。牵引治疗后 13 例患者 FVC、FEV1 均较治疗前改善 ($P<0.05$)。

2.3 截骨方案的对比

两组患者在治疗前存在冠状面主弯 Cobb

角 $\geq 90^\circ$ 和/或矢状面最大后凸 Cobb 角 $\geq 80^\circ$, 入院后评估治疗方案时均需行 3-CO 手术。A 组患者在牵引治疗后, 有 8 例患者未行 3-CO 手术, 仅行 Ponte 截骨术, 较术前手术方案差异有统计学意义 ($\chi^2=6.378, P=0.017$)。

2.4 并发症情况及处理

A 组 1 例患者在牵引 3 周时出现右侧臂丛神经麻痹, 立即减轻牵引重量后症状逐渐消失, 其余患者在牵引期间均未发生钉道感染、硬膜外血肿等牵引相关并发症。两组各有 1 例患者在术中截骨操作期间出现神经电生理监护异常, MEP 波幅明显下降, 立即行截骨区减压及激素治疗后恢复正常, 术中唤醒试验阴性, 术后均未见神经损害表现。所有患者术后均常规行 CT 检查, 未见置钉不良等内固定相关并发症。

3 讨论

脊柱畸形是 NF1 患者最常见的骨骼系统临床表现, 而 NF1 导致此类侧后凸畸形往往较为严重, 尤其是对于萎缩性 NF1 患者, 其萎缩区椎体解剖形态严重变异, 累及节段少但侧后凸畸形严重, 部分患者甚至同时伴有椎体的旋转半脱位、椎体楔形样或扇贝样改变, 椎弓根纤细甚至缺如, 手术置钉较为困难, 降低了预期的置入物密度, 导致术后矫形效果不佳^[13]。对于严重脊柱侧后凸畸形, 当畸形过于僵硬, 无法单独使用内固定或通过松解后方韧带与关节突关节来矫正时, 往往需行复杂的椎体截骨术。Schwab 等^[14]将 3 级及 3 级以上的截骨定义为 3-CO 手术, 包括经椎弓根楔形截骨术 (pedicle subtraction osteotomy, PSO) 及全脊柱截骨术 (vertebral column resection, VCR) 等。3-CO 手术在临床中应用广泛, 可获得满意的矫形效果^[15,16]。Fan 等^[15]对 60 例严重脊柱侧后凸畸形行 3-CO 手术治疗, 主弯侧凸 Cobb 角与后凸 Cobb 角分别由术前平均 129.1° 与 124.3° 矫正至 56.4° 与 54.3° , 矫形效果满意, 且术后随访期间未见明显矫正丢失。但是此类截骨手术侵入性较高, 截骨相关并发症包括医源性神经功能缺损、血管损伤等的发生率约为 $6.2\%\sim 21.7\%$ 不等^[8,16,17]。Lau 等^[7]比较了接受后柱截骨术 (posterior column osteotomy, PCO) 与接受 3-CO 手术患者的围术期并发症情况, 发现行 3-CO 手术的患者其手术并发症 ($18.4\% \text{ vs. } 10.9\%$) 及新发神经功能损害

表 2 患者治疗前后影像学参数比较

Table 2 Comparison of the radiographic parameters before and after treatment

	A组 (n=13) Group A	B组 (n=6) Group B
冠状面 Cobb 角 ($^\circ$) Cobb angle of the coronal plane		
牵引前 (术前) Before traction (surgery)	109.9 $\pm$ 23.2	101.7 $\pm$ 14.5
牵引后 After traction	81.4 $\pm$ 21.0 ^①	—
术后 After surgery	60.8 $\pm$ 19.8 ^②	50.5 $\pm$ 12.2 ^②
矢状面 Cobb 角 ($^\circ$) Cobb angle of the sagittal plane		
牵引前 (术前) Before traction (surgery)	84.2 $\pm$ 16.2	75.5 $\pm$ 9.9
牵引后 After traction	68.0 $\pm$ 15.2 ^①	—
术后 After surgery	46.2 $\pm$ 16.1 ^②	39.0 $\pm$ 5.0 ^②
冠状面侧凸角度比值 Coronal deformity angular ratio		
牵引前 (术前) Before traction (surgery)	17.5 $\pm$ 4.1	19.4 $\pm$ 3.3
牵引后 After traction	12.8 $\pm$ 3.5 ^①	—
矢状面后凸角度比值 Sagittal deformity angular ratio		
牵引前 (术前) Before traction (surgery)	13.0 $\pm$ 3.6	14.6 $\pm$ 5.3
牵引后 After traction	10.9 $\pm$ 2.7 ^①	—

注: ①与同组牵引前比较 $P<0.05$; ②与同组术前比较 $P<0.05$

Note: ①Compared with before traction, $P<0.05$; ②Compared with before surgery, $P<0.05$

(20.4 % vs. 13.0%) 的发生率均高于行 PCO 治疗的患者。另有一项 5 年随访研究显示,行 3-CO 手术的患者术中发生神经电生理监护异常的发生

率在儿童及成人患者中分别为 16.1% 和 8.7%, 2 例(6.5%) 儿童患者在术后出现新发神经功能损害^[16]。因此,截骨手术的高风险也限制了其在复杂



图 1 12 岁女性患者,神经纤维瘤病伴严重脊柱侧后凸畸形 **a、b** 牵引前全脊柱正侧位 X 线片示主弯侧凸 Cobb 角 135°,最大后凸 Cobb 角 70° **c、d** HGT 治疗 2 月后,侧凸和后凸 Cobb 角分别改善至 90°和 45°,侧、后凸矫正率分别为 33.3% 和 35.7% **e、f** 术中未行 3-CO 手术,术后侧后凸畸形进一步矫正至 65°和 33°,术后侧、后凸矫正率分别为 27.8%和 26.7% **图 2** 17 岁女性患者,神经纤维瘤病伴严重脊柱侧后凸畸形 **a、b** 术前全脊柱正侧位 X 线片示主弯侧凸 Cobb 角 122°,最大后凸 Cobb 角 69° **c、d** 术前未行 HGT 治疗;术中行 L2 PSO 截骨术,术后侧后凸畸形分别矫正至 54°和 27°,矫正率分别为 55.7%和 60.8%

Figure 1 A 12-year-old female, neurofibromatosis with severe kyphoscoliosis **a, b** Before traction, the radiographs showed the Cobb angle of the main curve was 135° and GK was 70° **c, d** After 2 months' of Halo-gravity traction, the coronal and sagittal Cobb angles were decreased to 90° and 45°, with correction rates of 33.3% and 35.7% respectively **e, f** Three-column osteotomy was not performed intraoperatively, the coronal and sagittal deformity was further decreased to 65° and 33° with correction rates of 27.8% and 26.7% respectively **Figure 2** A 17-year-old female, neurofibromatosis with severe kyphoscoliosis **a, b** The preoperative radiographs showed the Cobb angle of the main curve was 122° and GK was 69° **c, d** Halo-gravity traction was not performed. The PSO osteotomy was performed at L2 and the coronal and sagittal Cobb angles were decreased to 54° and 27°, with correction rates of 55.7% and 60.8% respectively

脊柱畸形中的应用^[7]。

中重度脊柱侧后凸畸形由于脊柱多个节段的侧方弯曲,可导致胸廓容积减小,肺顺应性改变,患者常表现为限制性通气功能障碍,增加围术期的并发症风险^[9]。

术前的 HGT 通过改善患者的脊柱畸形以恢复胸廓容积,改善呼吸肌的运动,可改善严重侧后凸畸形患者的肺功能^[8,9,18-21]。Koller 等^[21]通过比较重度脊柱侧凸患者牵引前后肺功能情况发现,患者 FVC%由(42±20)%提升至(49±20)%($P<0.05$),平均改善率为(7±8)%。Bao 等^[9]回顾性分析了 21 例成人脊柱畸形合并术前呼吸功能异常的患者发现,在平均 76.2d 的术前 HGT 治疗后,患者的肺功能指标均有不同程度的改善,FVC%平均提升 10.8%。在本研究中,接受 HGT 治疗的 13 例患者的肺功能也有显著的改善,FVC 由 0.81±0.12L 上升至 0.88±0.11L ($t=-8.117, P<0.001$),FEV1 由 0.74±0.12L 上升至 0.80±0.10L ($t=-7.364, P<0.001$),提高了患者对手术的耐受性,与既往研究结果类似^[8,9,18-21]。

另外,HGT 还可通过松解脊柱周围的软组织、增加脊柱的柔韧性,改善患者的脊柱畸形^[8,19]。Li 等^[8]对 19 例严重上胸段角状畸形的患者行 HGT 治疗,结果显示在牵引治疗后,患者的后凸畸形由牵引前的 95.3°减小至 64.1°,且 14 例(73.7%)患者的神经功能有不同程度的改善。刘盾等^[19]回顾性分析了 29 例 NF1 合并严重脊柱侧后凸畸形患者的资料发现,行 HGT 治疗后患者的

侧、后凸畸形分别获得了约 21.9%和 20.2%的矫正。本研究中,接受 HGT 治疗的 13 例患者的冠状面和矢状面畸形分别由术前的 109.9°±23.2°和 84.2°±16.2°矫正至 81.4°±21.0°($t=8.738, P<0.001$)和 68.0°±15.2°($t=5.440, P<0.001$),侧、后凸矫正率分别为(26.3±9.1)%和(18.9±11.7)%。此外本研究采用 DAR 来评估脊柱畸形的严重性。Wang 等^[22]的研究表明,DAR 可用于量化评估脊柱成角畸形的严重程度,并可用于预测术中神经功能损害的风险大小。Lewis 等^[23]回顾性分析了 35 例接受 3-CO 手术的治疗的脊柱畸形患者,结果显示当矢状面 DAR 达到 22 时,其 MEP 警报的发生率达到 75%。本研究结果显示,通过术前 HGT 牵引,A 组患者 c-DAR 与 s-DAR 分别由 17.5±4.1 和 13.0±3.6 减小至 12.8±3.5 ($t=7.963, P<0.001$)和 10.9±2.7 ($t=4.716, P=0.001$),差异均有统计学意义,可有效降低 c-DAR 与 s-DAR,将成角的侧、后凸畸形改善为弧状畸形,降低神经功能损害的发生风险,这也为降低截骨等级提供了可能。

目前,国内外对于行 3-CO 手术的适应证尚无定论。一般来说,一级及二级截骨矫正效果有限,适用于轻度到中度的脊柱畸形;而对于严重且僵硬的脊柱侧、后凸畸形,行 3-CO 手术以提供充分的矫正是必要的^[9]。本研究发现对于 NF1 合并严重脊柱畸形患者,通过术前 HGT 逐步改善患者的侧后凸畸形后,有效恢复了脊柱序列的连续性,可降低手术对于畸形矫正的需求,尤其是对后凸畸形的矫正,将角状后凸改善为圆弧状后凸,减少畸形部位对于脊髓的压迫,提高脊髓的耐受性,从而避免了复杂截骨手术的需要。本研究所纳入的 19 例患者为重度脊柱侧后凸畸形患者,术前冠状面主弯 Cobb 角≥90°和/或矢状面最大后凸 Cobb 角≥80°,因此在牵引前行手术方案评估时满足 3-CO 手术的适应证^[5,24],均需行 3 级或 3 级以上截骨手术,而 A 组患者在牵引治疗后,有 8 例患者牵引效果较好,侧、后凸畸形由角状改善为圆弧状或侧(后)凸畸形牵引改善率≥20%。最终未行复杂的 3-CO 手术,也获得了满意的畸形矫正。本研究中 8 例未行 3-CO 手术的患者均采用 Ponte 截骨术。多节段 Ponte 术可有效松解脊柱的后柱结构,改善脊柱的柔韧性,据文献报道,每一个节段的 Ponte 截骨可以提供大约 5°~10°的矫正度^[25,26],进而进一步提高重度脊柱畸形的矫正效

表 3 两组患者治疗前后肺功能比较
Table 3 Comparison of the pulmonary function between the two groups

	A组(n=13) Group A	B组(n=16) Group B
用力肺活量(L) Forced vital capacity		
牵引前(术前) Before traction (surgery)	0.81±0.12	0.83±0.06
牵引后 After traction	0.88±0.11 ^①	—
第 1s 用力呼气容积(L) Forced expiratory in 1s		
牵引前(术前) Before traction (surgery)	0.74±0.12	0.77±0.08
牵引后 After traction	0.80±0.10 ^①	—

注:①与同组牵引前比较 $P<0.05$

Note: ①Compared with before traction, $P<0.05$

果。Xia 等^[27]比较了不同截骨术式在治疗严重脊柱畸形的疗效的研究中指出,三个节段以上的 Ponte 截骨可获得与 VCR 相似的矫形效果。因此,术前 HGT 辅以多节段 Ponte 截骨松解,可作为 3-CO 手术可能的替代治疗方案。此外,A 组患者平均手术时间和术中出血量较 B 组患者明显降低。一方面,通过术前 HGT 可部分改善患者的侧后凸畸形,有利于术者对解剖标志的识别。另一方面,牵引可以有效松弛软组织,改善侧弯的僵硬程度,减少了不必要的截骨操作,进而减少了手术时间和术中出血量。因此,我们认为对于在牵引治疗后,侧、后凸畸形由角状改善为弧状或牵引改善率在 20% 以上的患者,可避免行 3-CO 手术以规避其高风险性。

A 组患者在牵引治疗期间未见钉道感染、硬膜外血肿等牵引相关并发症,仅 1 例患者在牵引 3 周时出现右侧臂丛神经麻痹,立即减轻牵引重量后症状逐渐消失。在牵引治疗后未行 3-CO 手术的患者无一例出现神经电生理监护报警事件。两组中各有 1 例行 3-CO 手术的患者在术中进行截骨操作期间出现 MEP 波幅下降。笔者认为,术前 HGT 将复杂的矫形过程有效分解,减少了对复杂截骨手术的依赖,降低了手术的风险;而 HGT 在提高脊髓耐受性的同时,让术者初步了解患者的脊髓耐受能力,避免因矫形过度而导致神经损害的发生,降低神经功能相关并发症的发生率。

综上所述,术前 HGT 对于治疗 NF1 伴严重脊柱侧后凸畸形是一种安全且行之有效的方法,可降低手术的截骨等级,缩短手术时间、减少术中出血量,进而提高手术的安全性。但本研究为回顾性研究,由于纳入标准的原因,病例数相对较少,可能存在一定的选择偏移;且缺乏远期随访结果,HGT 牵引后再行后路矫形手术的有效性及其术后并发症情况仍有待长期随访的验证。

4 参考文献

- Akbarnia BA, Gabriel KR, Beckman E, et al. Prevalence of scoliosis in neurofibromatosis[J]. Spine(Phila Pa 1976), 1992, 17(8 Suppl): S244-S248.
- 高荣轩, 张学军, 刘昊楠, 等. I 型神经纤维瘤病营养不良性脊柱侧凸合并肋骨头脱入椎管的术前危险因素及影响肋骨头被动复位的相关因素分析[J]. 中国脊柱脊髓杂志, 2020, 30(12): 1103-1110.
- Pratali RR, Martins SM, Santos F, et al. The use of three-column osteotomy in the treatment of rigid deformities of the adult spine[J]. Rev Bras Ortop, 2018, 53(2): 213-220.
- Theologis AA, Tabaraee E, Funao H, et al. Three-column osteotomies of the lower cervical and upper thoracic spine: comparison of early outcomes, radiographic parameters, and peri-operative complications in 48 patients [J]. Eur Spine J, 2015, 24(Suppl 1): S23-S30.
- Qiao J, Xiao L, Sun X, et al. Three column osteotomy for adult spine deformity: comparison of outcomes and complications between kyphosis and kyphoscoliosis[J]. Br J Neurosurg, 2018, 32(1): 32-36.
- Smith JS, Shaffrey CI, Lafage R, et al. Three-column osteotomy for correction of cervical and cervicothoracic deformities: alignment changes and early complications in a multicenter prospective series of 23 patients[J]. Eur Spine J, 2017, 26(8): 2128-2137.
- Lau D, Deviren V, Joshi RS, et al. Comparison of perioperative complications following posterior column osteotomy versus posterior-based 3-column osteotomy for correction of rigid cervicothoracic deformity: a single-surgeon series of 95 consecutive cases[J]. J Neurosurg Spine, 2020, 1-10. doi: 10.3171/2020.3.SPINE191330.
- Li Y, Shi B, Zhu Z, et al. Preoperative Halo-gravity traction for patients with severe focal Kyphosis in the upper thoracic spine: a safe and effective alternative for three-column osteotomy[J]. Spine(Phila Pa 1976), 2021, 46(5): 307-312.
- Bao H, Yan P, Bao M, et al. Halo-gravity traction combined with assisted ventilation: an effective pre-operative management for severe adult scoliosis complicated with respiratory dysfunction[J]. Eur Spine J, 2016, 25(8): 2416-2422.
- Yang C, Wang H, Zheng Z, et al. Halo-gravity traction in the treatment of severe spinal deformity: a systematic review and meta-analysis[J]. Eur Spine J, 2017, 26(7): 1810-1816.
- Shimizu T, Lenke LG, Cerpa M, et al. Preoperative Halo-gravity traction for treatment of severe adult kyphosis and scoliosis[J]. Spine Deform, 2020, 8(1): 85-95.
- DiSimone RE, Berman AT, Schwentker EP. The orthopedic manifestation of neurofibromatosis: a clinical experience and review of the literature [J]. Clin Orthop Relat Res, 1988, 230: 277-283.
- Hu Z, Liu Z, Qiu Y, et al. Morphological differences in the vertebrae of scoliosis secondary to neurofibromatosis type 1 with and without paraspinal neurofibromas[J]. Spine(Phila Pa 1976), 2016, 41(7): 598-602.
- Schwab F, Blondel B, Chay E, et al. The comprehensive anatomical spinal osteotomy classification [J]. Neurosurgery, 2014, 74(1): 112-120.
- Fan H, Li X, Huang Z, et al. Radiologic parameters can affect the preoperative decision making of three-column spinal osteotomies in the treatment of severe and stiff kyphoscolio

- sis[J]. *Spine(Phila Pa 1976)*, 2017, 42(23): E1371–E1379.
16. Riley MS, Lenke LG, Chapman TM Jr, et al. Clinical and radiographic outcomes after posterior vertebral column resection for severe spinal deformity with five-year follow-up[J]. *J Bone Joint Surg Am*, 2018, 100(5): 396–405.
17. O'Neill KR, Lenke LG, Bridwell KH, et al. Clinical and radiographic outcomes after 3-column osteotomies with 5-year follow-up[J]. *Spine(Phila Pa 1976)*, 2014, 39(5): 424–432.
18. 史本龙, 李洋, 刘臻, 等. Halo 重力牵引在伴神经损害的严重上胸段角状后凸畸形矫正术前的应用[J]. *中华骨科杂志*, 2021, 41(7): 412–419.
19. 刘盾, 李洋, 史本龙, 等. Halo 重力牵引在 I 型神经纤维瘤病伴严重脊柱侧后凸畸形患者中的应用研究[J]. *中华外科杂志*, 2019, 57(2): 119–123.
20. Shi B, Xu L, Li Y, et al. Pre-operative Halo-gravity traction in severe neurofibromatosis type 1 and congenital scoliosis with thoracic rotatory subluxation[J]. *Clin Neurol Neurosurg*, 2019, 187: 105548.
21. Koller H, Zenner J, Gajic V, et al. The impact of Halo-gravity traction on curve rigidity and pulmonary function in the treatment of severe and rigid scoliosis and kyphoscoliosis: a clinical study and narrative review of the literature [J]. *Eur Spine J*, 2012, 21(3): 514–529.
22. Wang XB, Lenke LG, Thuet E, et al. Deformity angular ratio describes the severity of spinal deformity and predicts the risk of neurologic deficit in posterior vertebral column resection surgery [J]. *Spine(Phila Pa 1976)*. 2016, 41(18): 1447–1455.
23. Lewis ND, Keshen SG, Lenke LG, et al. The deformity angular ratio: does it correlate with high-risk cases for potential spinal cord monitoring alerts in pediatric 3-Column thoracic spinal deformity corrective surgery[J]. *Spine(Phila Pa 1976)*, 2015, 40(15): E879–885.
24. Ji X, Chen H, Zhang Y, et al. Three-column osteotomy surgery versus standard surgical management for the correction of adult spinal deformity: a cohort study [J]. *J Orthop Surg Res*, 2015, 10: 23. doi: 10.1186/s13018-015-0154-3.
25. 谢丁丁, 朱泽章, 邱勇, 等. 重度僵硬型脊柱侧凸的一期后路 Ponte 截骨置钉二期后路矫正术[J]. *中华骨科杂志*, 2015, 35(6): 595–601.
26. Geck MJ, Macagno A, Ponte A, et al. The Ponte procedure: posterior only treatment of Scheuermann's kyphosis using segmental posterior shortening and pedicle screw instrumentation[J]. *J Spinal Disord Tech*, 2007, 20(8): 586–593.
27. Xia L, Li P, Wang D, et al. Spinal osteotomy techniques in management of severe pediatric spinal deformity and analysis of postoperative complications[J]. *Spine(Phila Pa 1976)*, 2015, 40(5): E286–E292.

(收稿日期:2021-09-16 修回日期:2021-12-07)

(英文编审 谭 啸)

(本文编辑 姜雅浩)