

ОТЗЫВ

официального оппонента

доктора медицинских наук Борзунова Дмитрия Юрьевича на диссертацию Захарьян Екатерины Анатольевны «Комплексное лечение деформаций нижней конечности у детей с врожденным ложным суставом костей голени», представленную к официальной открытой защите на соискание ученой степени кандидата медицинских наук по специальности 14.01.15 – травматология и ортопедия

Актуальность работы

Диссертационное исследование Захарьян Екатерины Анатольевны посвящено одной из наиболее проблемных ортопедических патологий детского возраста – реабилитации больных врожденным ложным суставом костей голени. Распространенность недуга относительно низкая, по данным некоторых авторов от 140 000 до 190 000 новорожденных (K.S. Andersen, 1976; H.W. Kim, 2002), но, однако, неослабевающий интерес ортопедов к данной проблеме обусловлен тяжелым и не прогнозируемым течением заболевания, сложностями при оперативном пособии, частыми рецидивами процесса. Даже в рамках чрескостного остеосинтеза существует большое разнообразие оперативных технологий, но это не гарантирует положительного исхода, так рецидивы процесса в отдаленном безаппаратном периоде наблюдений достигают по нашим данным 65 % клинических наблюдений (Борзунов Д.Ю., Кутиков С.А., 2012, 2014; Borzunov, D.Y. et al, 2016). Адекватное костное сращение в зоне псевдоартроза сохраняет риск развития рецидива патологического перелома в отдаленном периоде. Отчасти это связано с сохранением деформаций сегмента, укорочений и наличием контрактур смежных суставов и патологических деформаций стоп (В.И. Шевцов с соавт, 1997). Усложняет проблему отсутствие до настоящего времени единого взгляда на этиопатогенез заболевания. Большинство авторов выделяют нейрофиброматоз I типа как основную причину заболевания, ассоциируя процессы при нейрофиброматозе с генными

мутациями (D. Paley, 1992; Johnston, С.Е. 2002; Crawford, 2006; Sakamoto, A. et al. 2007). Окончательно не определена роль надкостницы в этиопатогенезе врожденного ложного сустава, вместе с тем, ряд технологий (пластика по Masquelet) подразумевает радикальное решение проблемы с тотальным иссечением измененной надкостницы и формированием индуктивной мембраны. По нашему мнению, основная концепция восстановления целостности сегмента заключается в увеличении объема костной массы в проблемной зоне и зиждется на идеи операции MacFarland предложенной в 1951 году. В дальнейшем авторы использовали различные костно-пластические материалы, в основном алло и аутотрансплантаты, в том числе васкуляризированные, дублировали отломки или выполняли костную пластику местными тканями (В.И. Шевцов с соавт, 1984, 1997; Поздеев А.П., 1998; 2002; М. Vumbasirevic et al., 2005; D. Paley, 1992, 2012; Кутиков С.А., 2015). Для фиксации пораженного сегмента ортопеды применяют внешнюю фиксацию, погружные, в основном интрамедуллярные фиксаторы, или комбинируют техники остеосинтеза (В.И. Шевцов с соавт, 1984, 1997; Поздеев А.П., 1998; 2002; М. Vumbasirevic et al., 2005; D. Paley, 2012; Choi I.H., 2011; Кутиков С.А., 2015; Borzunov, D.Y. et al, 2016). Несмотря на неоспоримые успехи в реконструктивно-восстановительной хирургии при лечении пациентов с врожденными ложными суставами костей голени ортопеды травматологи не удовлетворены отдаленными результатами реабилитации. Сохранение проблем в ортопедическом статусе у пациентов после восстановления целостности сегмента и консолидации врожденного псевдоартроза побудило Захарьян Екатерину Анатольевну к выполнению научно-исследовательской работы.

Степень обоснованности научных положений, выводов и практических рекомендаций, сформулированных в диссертации

Глубокий анализ современных публикаций по теме диссертации позволил автору выработать систематизированный подход к данной

проблеме, основанный на применении современных методов исследования. Для оценки состояния ортопедического статуса Захарьян Е. А. использовала современные методы исследования: рентгенологический с программным планированием, электронейромиографию, реовазографию, компьютерную томографию и гистологическое исследование биопсийного материала. В работе использованы современные методы статистической обработки материала. Сформулированные задачи соответствуют цели и выводам исследования. Комплекс использованных методов диагностики адекватен поставленным задачам и позволил их решить. Работа основана на оценке результатов лечения 70 больных с деформациями нижней конечности после ликвидации несращения. Учитывая орфанный характер патологии - количество достаточное. В зависимости использования технологий для коррекции деформаций Захарьян Е. А. выделила две группы больных. В первой группе пациентов использовалась одноуровневая коррекция деформации и укорочения с помощью традиционной компоновки аппарата внешней фиксации. Во второй группе пациентов была выполнена двухуровневая коррекция длины и угловой деформации сегмента с использованием пассивной компьютерной навигации и страт аппарата Орто-СУВ. Достоверность научных положений, выводов и практических рекомендаций диссертационной работы подтверждена отслеженными на отдаленных этапах наблюдения результатами лечения больных. Задачи, сформулированные автором, решены. Выводы отвечают на каждую поставленную задачу, а практические рекомендации их дополняют.

По теме диссертации опубликовано 17 научных работ, в том числе, четыре в журналах, рекомендованных ВАК РФ. Соискатель имеет положительное решение на заявку выдачи патента РФ. Основные положения диссертационного исследования представлены на научных конференциях международного, всероссийского и регионального уровня.

Личное участие соискателя в получении результатов, изложенных в диссертации.

Личное участие автора осуществлялось на всех этапах работы.

Автором самостоятельно проведен аналитический обзор отечественной и зарубежной литературы по изучаемой проблеме, составлена научно-исследовательская программа, согласно которой проводилось обследование и лечение детей с консолидированным врожденным ложным суставом костей голени. Произведено клиническое обследование, наблюдение и лечение детей, в том числе Диссертант принимала активное участие в выполнении оперативных вмешательств в качестве ассистента или оперирующего хирурга. Захарьян У.А. осуществлен клинико-статистический анализ материала, разработан и внедрен способ коррекции деформаций длинных костей.

Доля участия автора в сборе материала – 95%, в математико-статистической обработке материала – 90%, в обобщении и анализе материала – 90%.

Достоверность полученных результатов

Работа основана на данных обследования и лечения 70 больных врожденным ложным суставом костей голени. Большой клинический материал позволил провести полноценный анализ групп больных выделенных в зависимости от использования технологий для коррекции деформаций и уравнивания длины сегмента. Соискатель придерживалась классификации А.П. Поздеева и разделила пациентов по этиологии формирования ложного сустава. Большинство больных было с нейрофиброматозом, 29% с миелодисплазией и 14% - с фиброзной дисплазией, что вполне согласуется с литературными данными (D. Paley, 1992; A. H. Crawford, 2006).

Проведенные клинические и современные лучевые исследования с адекватной статистической обработкой материала были достаточно

информативны и позволили полностью решить поставленные задачи и достигнуть цели работы.

Научная новизна

Автором определен патологический симптомокомплекс врожденного ложного сустава костей голени, включающий многокомпонентную деформацию сегмента: вальгусно-рекурвационную проксимального отдела, вальгусно-антекурвационную дистального, торсию, укорочение голени и разную длину стоп. Захарьян Е.А. обосновала целесообразность двухуровневой коррекции многокомпонентной деформаций голени с оптимальным восстановлением референтных углов. Обоснована целесообразность динамического наблюдения за ребенком после восстановления целостности конечности в связи с сохранением патологических изменений ортопедического статуса и необходимостью дальнейшей оперативной коррекции. В зависимости от особенностей ортопедического статуса пациентов Захарьян Е.А. модифицировала методику планирования коррекции деформации голени. Новизна исследования подтверждается получением положительного решения на выдачу патента РФ.

Практическая значимость

Предложенные автором и внедренные в клиническую практику методы диагностики и лечения врожденного ложного сустава костей голени могут быть с успехом использованы в работе профильных отделений специализированных травматолого – ортопедических центров. Полученные данные позволяют дифференцированно подходить к выбору оперативной коррекции деформаций и укорочений костей голени.

Результаты исследования, сформулированные в виде выводов и практических рекомендаций позволяют считать представленный материал достаточным для присвоения автору степени кандидата медицинских наук. Доказательность работе обеспечивают приведены данные, полученные при

применении различных диагностических методов. Безусловно, заслугой Автора является привлечение внимания к судьбе пациента после восстановления целостности костного остова голени. Пациент попрежнему остается больным и нуждается подчас в многоэтапной реабилитации и выполнении оперативных пособий. Автореферат диссертации дает достаточно полное представление о ее содержании и глубине проведенного исследования. Автор имеет достаточно большое количество публикаций и докладов по теме диссертационного исследования.

Оценка содержания работы

Диссертация традиционно построена, изложена на 154 страницах и состоит из введения, пяти глав заключения, выводов, практических рекомендаций и списка цитируемой литературы. Указатель литературы содержит 30 работ отечественных и 89 зарубежных авторов. Диссертация иллюстрирована 30 таблицами и 50 рисунками.

Во введении автором подтверждена актуальность работы, поставлена цель исследования (улучшить результаты лечения больных с консолидированным врожденным ложным суставом костей голени), для достижения которой сформулированы основные задачи, обоснована новизна исследования, представлены положения, выносимые на защиту.

Глава 1 традиционно написана и содержит обзор литературных источников по теме диссертационного исследования. В главе подробно описаны существующие теории этиологии и патогенеза заболевания, приведены наиболее популярные и востребованные классификации, варианты хирургических и консервативных методов лечения, данные о рецидивах врожденного ложного сустава костей голени. Глава написана хорошим литературным языком, легко воспринимается. Однако, в главе имеются досадные технические погрешности. Так, например Соискатель на 20 странице приводит данные о костной пластике по Андрианову-Поздееву, а

ссылка соответствует работе Л.Н. Соломина по определению референтных углов и т.д.

В **2 главе** «Материал и методы исследования» представлена клинико-статистическая характеристика 70 больных врожденным ложным суставом. Во внимание приняты пациенты в возрасте от 4 до 18 лет с устраненным ложным суставом имеющие деформации нижней конечности, которые проходили лечение с 2000 по 2016 год. В зависимости от использованных методик коррекции больных разделили на две группы. В главе подробно представлено распределение пациентов по этиологии заболевания, полу, возрасту. Дана информация об использованных методах исследования, которые включали клинический, рентгенологический, функциональные методы (электронейромиография, реовазография). Была использована компьютерная и магнитно-резонансная томографии, морфологический и статистический методы исследования.

В **3 главе** приведены результаты комплексного обследования пациентов врожденным ложным суставом. По этиологии пациенты были разделены на три группы: псевдоартрозы, возникшие в результате нейрофиброматоза, миелодисплазии и фиброзной дисплазии. В главе Захарьян Е. А. приводит наиболее типичные изменения ортопедического статуса у пациентов врожденным ложным суставом костей голени. Приведены данные по патологическим изменениям не только конечности, но и позвоночника. Наиболее распространенной патологией позвоночника у пациентов принятых во внимание Диссертантом была сколиотическая деформация и диспластическая spina bifida. У 15 пациентов из зон остеотомий был взят материал для гистологического исследования. По заключению морфологического исследования «костная ткань вне зоны псевдоартроза имела признаки здоровой зрелой костной ткани», что позволило в дальнейшем сформировать типичные distractionные регенераты с полноценной органотипической перестройкой. Это не совсем

согласуется с имеющимися у нас данными и может быть предметом для дискуссии или мотивацией для совместных исследований. Так, при использовании КТГ и МРТ у пациентов врожденным ложным суставом выявлены, в том числе и на отдаленных этапах наблюдения, значительные тотальные анатомические и структурные изменения костной ткани голени с атипичной архитектоникой (Г.В. Дьячкова, С.А. Кутиков с соавт. 2012, 2013, 2014). В диссертации на представленных микрофотографиях биопсийного материала четко видны порозные изменения компактной пластинки.

Глава 4 посвящена хирургическим аспектам и особенностям ведения пациентов с консолидированными врожденными суставами и имеющим ортопедические проблемы. Большинство пациентов оперировано в возрасте 9-15 лет. В главе подробно изложены применяемые технологии, как операционные, так и послеоперационной коррекции, включая пассивную компьютерную навигацию с помощью узла Орто-СУВ. Принципиальных замечаний по главе нет.

Наиболее объемной является **5 глава** диссертационной работы. Она посвящена результатам хирургического лечения пациентов врожденным ложным суставом костей голени после консолидации псевдоартроза. В главе подробно приводятся в сравнении результаты коррекции ортопедической патологии у пациентов при классическом варианте чрескостного остеосинтеза по Г.А. Илизарову и использования гексапода Орто-СУВ. Глава написана хорошим языком, наглядно иллюстрирован материал. Замечаний по главе нет.

Заключение представляет собой цельное отражение работы. Завершается работа выводами и практическими рекомендациями, логично вытекающими из основных научных положений, представленных в диссертации. Автореферат диссертации соответствует тексту диссертации и позволяет получить о ней полное впечатление.

Замечания и вопросы

Вопросы:

1. Все пациенты с консолидированным врожденным ложным суставом имели многоплоскостные деформации нижней конечности с отклонением значений референтных углов, как в проксимальном, так и в дистальных отделах большеберцовой кости, во фронтальной и сагиттальной плоскостях. Таким образом, деформации костей голени были пяти- и шести компонентными, а так же трехплоскостными. Возникает вопрос, насколько правомочной и целесообразной была коррекция оси голени только за счет остеотомии в проксимальном отделе (I группа пациентов)? Является ли достаточной двухуровневая коррекция оси берцовых костей для оптимального восстановления референтных углов конечности у пациентов II группы?
2. В диссертации фактически не обозначена проблема рецидивов врожденных ложных суставов. Захарьян Е. А. упоминает о факте рецидивов псевдоартрозов у немногочисленной группы больных во временном интервале от года до трех лет после коррекции деформаций и длины сегмента. Вместе с тем, по нашим данным в 65 % клинических наблюдений в отдаленных периодах наблюдений возникают рецидивы несращения (Борзунов Д.Ю., Кутиков С.А., 2012, 2014; Borzunov, D.Y. et al, 2016). Необходимо уточнить число рецидивов. По мнению Диссертанта незначительное количество рецидивов связано с искусной хирургией, совершенством применяемых технологий, особенностями выборки или другими причинами?
3. Вместе с тем, переломы дистракционных регенератов исследователь наблюдал у 6 пациентов, переломы большеберцовой кости с формированием псевдоартроза встретились у 9 больных. По нашим данным и доступным источникам информации подобные осложнения при коррекции длины и оси сегмента являются редкими. Имеется ли у Диссертанта объяснение данных коллизий?

