·论著·

120 例先天性肌性斜颈术后的长期随访

黄程军1 唐盛平2 付桂兵2 孙 客2 徐江龙2 游 超2

【摘要】目的 通过长期随访手术治疗先天性肌性斜颈的疗效,探讨最佳手术时机及影响疗效的 因素。 方法 手术治疗 120 例先天性肌性斜颈患儿,手术时年龄为 3~142 个月,平均随访 4.9 年(2~12.5 年),按年龄、术前是否曾行理疗及术式进行分组,根据改良 Cheng and Tang 疗效评分标准,使用头颈部旋转角、侧屈角、瘢痕、颅面部畸形、肌束情况、头斜及主观评价等指标评估其疗效。 结果 总评分为优 79 例(65.8%),良 37 例(30.9%),中 1 例(0.8%),差 3 例(2.5%),优良率为 96.7%。按生长发育特点分为 \mathbf{I} 组(\mathbf{s} 1 岁)、 \mathbf{II} 组(\mathbf{s} 1 岁)、 \mathbf{II} 组(\mathbf{s} 2 岁)、 \mathbf{II} 组(\mathbf{s} 3 岁),之后对各指标优率进行 \mathbf{s} 2 检验,在瘢痕评分方面无统计学差异(\mathbf{p} >0.05);但在总评分、旋转角、侧屈角、头斜及肌束挛缩方面, \mathbf{I} 组和 \mathbf{II} 组分别与 \mathbf{II} 组比较, \mathbf{p} <0.05,提示 3 岁以内优率更高;在颅面部畸形方面, \mathbf{II} 组和 \mathbf{III} 组分别与 \mathbf{II} 组比较, \mathbf{p} <0.05,提示 1 岁以内优率更高;在医生的主观评价方面,3 组之间相互比较, \mathbf{p} <0.05,提示年龄越小,优率越高。 结论 先天性肌性斜颈 3 岁以内手术能够获得较好的手术疗效,1 岁以内手术疗效最佳。对于1 岁以内接受正规理疗 6 个月无明显效果者应及早手术治疗。

【关键词】 斜颈/先天性;外科手术;治疗结果;随访研究

Long-term Follow-up of Surgical Treatment for Congenital Muscular Torticollis, 120 Cases Report.

HUANG Chen-jun, TANG Sheng-ping, FU Gui-bing, et al. 1, Zunyi Medical College Zhuhai Campus, Zhuhai, China. 2, Department of Orthopaedics, Shenzhen Children's Hospital, Shenzhen, China 518026. Corresponding author: TANG Sheng-ping, E-mail:tangshengping56@ 126. com The project was funded by Shenzhen Science Innovation Committee (JCYJ20130401114111461)

[Abstract] Objetive To compare the surgical treatment for congenital muscular torticollis (CMT) for more than two years to follow-up and the curative effect in different groups, so as to find out the influence factors on the optimal timing of surgery for the disease. Methods One hundren and twenty patients with congenital muscular torticollis, age ranged from 3 to 142 months (average 25.1), underwent surgical releases of the contractive bands and were followed-up for more than two years (ranged from 2 to 12.5 years with average 4.9 years) in Shenzhen Children's Hospital. All of the patients were grouped by age, preoperative physical therapy and surgical procedures. According to the characteristics of child growth and development, patients were divided to three age groups, i. e. Group I with 1 year or less, Group II 1 to 3 years old and Group III more than 3 years. According to whether patient treated by physical therapy before operation, the patient were divided to physical therapy group and non-physical therapy group. According to surgical procedure, the patients were divided to unipolar resection group and bipolar resection group. . The overall clinical outcome were assessed by using the Cheng and Tang's score table, in which rotational deficits, lateral bending deficits, craniofacial asymmetry, scar, band, subjective assessment, and head tilt were included. The differences between each two groups were evaluated with chi-square and analysis of variance. The value of P < 0.05 was considered statistically significant. **Results** According to overall scores for overall outcome, there were 79 cases with excellent (65.8%), 37 with good(30.9%), 1 with fair(0.8%) and 3 with good(20.5%). The excellent and good results were as high as 96.7%. No significant difference of scar scoring were found in the age groups (P > 0.05). However, statistical significant difference of head tilt, rotational deficits, lateral bending deficits, band and overall clini-

doi:10.3969/j.issn.1671-6353.2013.06.007

作者单位:1,遵义医学院珠海校区(广东省珠海市,518026);2,深圳市儿童医院外一科(广东省深圳市,518026),通迅作者:唐盛平, E-mail:tangshengping56@126.com,本研究由深圳市科学创新委员会资助,项目编号 JCYJ20130401114111461

[Key words] Torticollis/CN; Surgical Procedures, Operative; Treatment Outcome; Follow-Up Studies

先天性肌性斜颈(Congential muscular torticollis, CMT)是由于胸锁乳突肌纤维化和挛缩,导致头面部和脊柱畸形的小儿骨科常见疾病。发病率约 0.3%~2%^[1-3]。Ling^[4]等认为最佳手术年龄是 1~4岁,大多数学者主张 1岁以前手术。Shim^[5]认为年龄不是决定手术的重要因素。本研究依据患儿年龄、病史等进行分组,通过长期随访分析,探讨不同年龄手术的疗效及影响疗效的相关因素,评价各年龄组的手术疗效,探讨该病的最佳治疗时机。

材料与方法

一、临床资料

本研究选择先天性肌性斜颈患儿 120 例,男 79 例,女 41 例,左侧 51 例,右侧 69 例。有包块病史者 100 例(83.3%),无包块病史 20 例。术前体查可扪及瘤样包块者 40 例(33.3%),未扪及包块者 80 例。胎位正常 82 例,胎位不正 38 例。手术年龄 3 ~142 个月,平均 25.1 个月,按生长发育特点分为 \mathbb{I} 组(≤ 1 岁)、 \mathbb{I} 组(1 ~3 岁)、 \mathbb{I} 组(1 >3 岁)。

二、治疗方法

手术前曾在我院由物理治疗师行牵拉理疗 52 例,未作特殊处理 68 例。手术方式包括胸锁乳突肌下端松解术,即行胸锁乳突肌胸骨头及锁骨头切断及部分切除术;双极松解术,即行胸锁乳突肌胸骨头、锁骨头和乳突头切断及部分切除术。3 岁以内患儿(51 例)术后予牵伸理疗,3 岁以后患儿(14 例)予支架治疗,6 例术后予牵引治疗。

三、手术纳入标准

① 病史、体征符合斜颈诊断标准;②颈部被动活动受限度(passive range of motion, PROM),即被动将颈部向患侧旋转与向健侧旋转对比活动受限角度的差值大于15°;③如果由物理治疗师治疗持续2~6个月,仍然存在头部倾斜、PROM>15°,肌肉紧

缩或有硬结表现^[6]; ④超声检查,发现不同程度的胸锁乳突肌病变,并排除其他原因引起的斜颈。凡同时具备①②④或①③④者,行手术治疗。

四、疗效评定标准

根据改良 Cheng and Tang 评分标准,将结果评价分为优、良、中、差四个等级,见表 1,每项指标满分为 3 $\mathcal{G}^{[1,7,8]}$ 。

表 1 改良 Cheng and Tang 疗效评分表 **Table 1** Scoring of overall results (modified from Cheng and

各项指标	优 (3 分/项)	良 (2 分/项)	中 (1分/项)	差 (0分/项)	
颈部旋转度(°)) ≤5	6 ~ 10	10 ~ 15	>15	
侧屈角(°)	≤ 5	6 ~ 10	10 ~ 15	> 15	
颅面部畸形	无	轻	中	重	
挛缩肌束	无	轻度挛缩	锁骨头挛缩	胸骨头挛缩	
头斜情况	无	轻	中	重	
瘢痕	无	轻	中	重	
主观评价	非常满意	满意	一般	差	
总分(分)	17 ~ 21	12 ~ 16	7 ~ 11	<7	

注: a,颈部旋转角(passive range of motion, PROM),检查时要求患儿平卧,肩与检查台平齐,由检查者护住患儿的头,被动旋转颈部,以下颌和肩峰为标准,两侧比较。b,侧屈角,检查时要求患儿平卧,肩与检查台平齐,由检查者护住患儿的头,被动侧屈头颈部,以头部正中线为标准,两侧比较。

五、统计学处理

对采用 SPSS 11.5 软件进行统计学处理,不同组别之间优率的比较采用 x^2 检验,以 P < 0.05 为差异有统计学意义,以 P < 0.01 为差异有显著统计学意义。

结果

本组男女性别比 79: 41, 右侧: 左侧为 1. 35: 1, 胎位不正占 31. 7%。120 例患儿中, 疗效优 79 例, 良 37 例,中 1 例,差 3 例,优率为 65. 8%,良好率为

30.9%,优良率高达96.7%,且均无其他并发症。3例(2.5%)恢复较差的患儿需行再次手术。

按年龄分组,总评分优率的比较显示,三组之间 存在显著统计学差异(P=0.000),进一步行卡方分 割法结果见表 2,即 I 组和 II 组的优率明显好于 III 组,推断 3 岁以内患儿疗效优于 3 岁以后。三组间各项指标比较显示除瘢痕评分外,均存在统计学差异(P<0.05),进一步卡方分割法结果见表 2。

表2 治疗结果(例)

 Table 2
 Treatment results (Example)

各项指标 一	I组(1	I 组(1 岁以内)		Ⅱ组(1~3岁)		Ⅲ组(3 岁以上)		n Æ
	优	非优	优	非优	优	非优	$-\chi^2$ 值	P 值
颈部旋转度等级	49 ^b	5	41 b	3	15	7	9.324	0.009
侧屈角等级	52 ^b	2	43 b	1	17	5	8.258	0.011
颅面部畸形	17^{ab}	37	5	39	0	22	12.601	0.002
挛缩肌束	25 b	29	16^{b}	28	0	22	15.044	0.001
头斜情况	37 ^b	17	29^{b}	15	8	14	7.366	0.025
疤痕	17	37	7	37	3	19	4.585	0.101
主观评价	38^{ab}	16	21^{b}	23	2	20	23.754	0.000
总分	41 ^b	13	31 b	13	6	16	17.173	0.000

注:卡方分割法结果显示,与Ⅱ组比,a,P<0.05;与Ⅲ组比,b,P<0.05。

按患儿是否接受牵拉理疗分为理疗组和非理疗组,其优率比较,理疗组优于非理疗组(P=0.02)。按不同术式分为胸锁乳突肌下端松解术组和双极松解术组,其优率比较,下端松解术组优于双极松解术

组(*P*=0.001)。按胎位分为胎位正组和胎位不正组,其优率的比较无明显差异(*P*=0.977)。按术后是否采取相应处理,分为处理组和非处理组,其优率比较无明显差异(*P*=0.377)。见表 3。

表 3 影响术后疗效的因素(例)

Table 3 The factors related to postoperative outcome (Example)

疗效 —	理师	理疗史		术式		胎位		术后处理	
	是	否	下端	双极	正	不正	是	否	
优	41	40	77	4	50	29	49	30	
非优	11	28	28	11	32	9	22	19	
χ^2 值	0.000		6.908		0.782		5.086		
P 值	0.977		0.	02	0.377		0.001		

讨论

先天性肌性斜颈病因不明,不同学者根据临床、超声、解剖或病理研究,提出多种学说,这些学说对指导临床治疗有一定意义。超微结构发现患儿病变组织中有分化较早的间充质细胞、肌母细胞和肌成纤维细胞,提出该病是宫内胸锁乳突肌发育异常的学说^[9-10]。随年龄增长,该病有自愈的可能,病变组织纤维化,引起胸锁乳突肌挛缩、头面畸形和斜颈是病情加重的表现。临床要根据病变程度、年龄及医疗条件,选用恰当的治疗方法,通常早期选用保守治疗,但何时手术,不同学者有不同看法。

该病治疗的关键是,保守治疗选用什么方法,如何评价保守治疗,手术时机如何把握,才能获得更好

的疗效。部分学者认为,出生后数周即可手术治疗,大多学者主张 1 岁以后手术,Seyhan^[11]等认为 6 岁以后手术治疗同样可获得满意疗效,Shim 和 Sudesh认为 8 岁和 10 岁以后均可获满意疗效^[12-13]。甚至有学者认为手术治疗成人 CMT 亦可获满意疗效^[14]。目前文献中未见到多中心联合研究。由于各个学者疗效评价的标准不同,得出满意疗效的结果可能不具有可比性,这可能是手术时机争议较大的原因。

在各个研究者的评价标准中,常常将有轻微头部偏斜和颈部活动受限归为优组,文献显示术后优良率达90%~100%^[5,15-17]。Shim^[5]对47例CMT患儿实施手术,分为1~4岁组和5~16岁组,随访5年以上,结果显示(优良率达100%)两组疗效无统计学差异,其评价标准是把头斜小于5°归为优,

得出了年龄不是决定手术的重要因素。随着人们对美的追求,头斜是家长最主要和严重的主诉,家长要求 CMT 术后有更加完美结果,对优率的比较显得至关重要。因此,本研究针对不同分组均采用优率及非优率来研究,其优率为65.8%,良率为30.9%,可见优率远达不到90%以上,这促使我们对疗效进行更加细致分析。

本研究根据年龄分组对比,通过对 120 例术后患儿的长期随访分析,在颅面部畸形、主观评分方面,1 岁以内患儿的结果优于1 岁以后患儿,可推断1 岁以内手术的患儿其颅面畸形更加容易恢复,这与1 岁内小儿颅面部及骨骼四肢的发育较快有关,较早解除病变的 SCM,有利于头颈活动与发育。

在总评分、旋转角、侧屈角、头斜及挛缩肌束评 分方面,3 岁以内手术的结果优于3 岁以后手术患 儿;在医生对患儿的主观评分方面,1岁以内手术患 儿优于1岁以后两组手术患儿,且1~3岁手术患儿 优于3岁以后手术患儿,可以推断在主观评分方面, 本组患儿越早手术,其主观评价越好。结合术后总 评分及各个指标的评分结果分析,CMT 患儿3岁以 内手术优于3岁以后手术,部分指标结果显示1岁 以内手术更佳。但对1岁内患儿是否手术,还要从 多方面考虑。首先、病理发现1岁内的病变组织中, 细胞分化成熟能力较明显,是保守治疗的时机[18]; 其次,1岁内的患儿是否得到正规的物理治疗;第三 是头面畸形是否加重或好转不明显;第四是超声下 病变组织的性质特点。应综合分析这些因素,决定 是否1岁内手术。通常情况下,没有得到正规物理 治疗1岁内的患儿,不要急于手术。1岁后颈部发 育完善,手术操作更加容易,且如果1岁内手术后, 未行理疗,术后粘连的可能性更大。本组有1例半 岁时手术,术后7年随访复发的个案。

除手术疗效的年龄因素外,本研究对手术前期治疗、术式、胎位和术后处理等相关因素作了分析。按患儿是否接受牵拉理疗分为理疗组和非理疗组,结果显示,理疗组患儿优率高于非理疗组,由此推断,早期发现并予以积极的物理治疗,虽然不能治愈,但可以起到较好的辅助作用,可能与早期干预促进颈部活动,防止颅面部畸形加重有关。

Lee^[15]通过胸锁乳突肌下端松解术治疗平均年龄约2岁的CMT患儿20例,结果除14岁和20岁的两例外均获得较满意疗效,认为小年龄患儿宜采取此术式。Wirth^[19]通过对55例术后患儿进行长达15年的随访,建议经保守治疗无效的3~5岁患

儿应行双极松解术。本研究结果显示下端松解术组优于双极松解术组,这可能与受术龄影响较大有关,在同龄组中,双极松解术患儿比例较少,从统计学的角度不能比较同年龄不同术式的疗效,这有待今后进一步研究。该病的病因中宫内围产期筋膜间室综合征后遗症学说是基于CMT患儿中胎位不正、难产等发生率较高而提出,但是正常分娩的CMT患儿仍为多数。本组胎位情况和术后疗效无明显统计学意义,说明本组患儿中术后疗效和胎位情况无明显的内在联系。

总之,本研究对 CMT 术后疗效长期随访,分析 患儿术龄、术前措施、术式及术后措施等,1 岁内疗 效最好,3 岁内也能达到好的疗效。1~3 岁是好的 手术时机。对于1 岁以内接受正规理疗6个月无明 显效果者应及早接受手术治疗。

参考文献

- 1 Cheng JC, Wong MW, Tang SP, et al. Clinical determinants of the outcome of manual stretching in the treatment of congenital muscular torticollis in infants. A prospective study of eight hundred and twenty – one cases [J]. J Bone Joint Surg Am, 2001, 83 – A(5):679–687.
- 2 Do TT. Congenital muscular torticollis: current concepts and review of treatment[J]. Curr Opin Pediatr, 2006, 18(1):26-29
- 3 Schertz M, Zuk L, Green D. Long-Term Neurodevelopmental Follow-Up of Children With Congenital Muscular Torticollis [J]. J Child Neurol, 2012.
- 4 Ling CM. The influence of age on the results of open sternomastoid tenotomy in muscular torticollis[J]. Clin Orthop Relat Res., 1976 (116):142-148.
- 5 Shim JS, Jang HP. Operative treatment of congenital torticollis[J]. J Bone Joint Surg Br, 2008, 90(7):934-939.
- 6 赵章帅,唐盛平,王帅印,等. 2 124 例婴儿斜颈首诊的临床流行病学分析[J]. 临床小儿外科杂志,2013,12(1):
- 7 Cheng JC, Tang SP, Chen TM. Sternocleidomastoid pseudotumor and congenital muscular torticollis in infants: a prospective study of 510 cases [J]. J Pediatr, 1999, 134 (6): 712-716.
- 8 Cheng JC, Tang SP, Chen TM, et al. The clinical presentation and outcome of treatment of congenital muscular torticollis in infants' a study of 1 086 cases [J]. J Pediatr Surg, 2000,35(7):1091-1096.
- 9 王帅印,唐盛平. 先天性肌性斜颈病因与病理变化的研究 进展[J]. 临床小儿外科杂志,2011, (下转第 470 页)