

## · 专题 · 儿童骨科多中心临床研究 ·

## 发育性髋关节脱位闭合复位后残余髋臼发育不良骨盆截骨时机与指征的多中心前瞻性非随机对照试验研究方案



全文二维码

李敬春<sup>1</sup> 刘雁寒<sup>1</sup> 黎艺强<sup>1</sup> 朱光辉<sup>2</sup> 郭跃明<sup>3</sup> 李明<sup>4</sup> 康晓鹏<sup>5</sup>唐盛平<sup>6</sup> 沈先涛<sup>7</sup> 邵景范<sup>8</sup> 陈顺有<sup>9</sup> 蒋飞<sup>10</sup> 李进<sup>11</sup> 徐宏文<sup>1</sup>中国儿童骨科多中心研究协作组<sup>12</sup><sup>1</sup> 广州市妇女儿童医疗中心骨科, 广州 510623; <sup>2</sup> 湖南省儿童医院骨科, 长沙 410007;<sup>3</sup> 佛山市中医院小儿骨科, 佛山 528000; <sup>4</sup> 重庆医科大学附属儿童医院骨科中心, 重庆40014; <sup>5</sup> 昆明市儿童医院骨科, 昆明 650034; <sup>6</sup> 深圳市儿童医院骨科, 深圳 518038; <sup>7</sup> 华中科技大学同济医学院附属武汉儿童医院骨科, 武汉 430015; <sup>8</sup> 华中科技大学同济医学院附属同济医院小儿外科, 武汉 430030; <sup>9</sup> 福州市第二总医院小儿骨科, 福州 350007;<sup>10</sup> 大连市妇女儿童医疗中心(集团)骨科, 大连 116012; <sup>11</sup> 华中科技大学同济医学院附属

协和医院骨科, 武汉 430030

通信作者: 徐宏文, Email: xuhongwen@gwcmc.org

**【摘要】** 全身麻醉下闭合复位加髋人位石膏固定是治疗 24 月龄以下发育性髋关节脱位 (developmental dislocation of the hip, DDH) 的通用方法, 但闭合复位后仍有约 1/3 的患儿存在残余髋臼发育不良。尽管骨盆截骨术正越来越多地应用于残余髋臼发育不良的治疗, 但其手术时机和手术指征仍不明确。本研究拟通过一项多中心前瞻性非随机对照试验探讨 DDH 闭合复位后残余髋臼发育不良的手术干预时机和指征。研究设计拟纳入 283 例 DDH 闭合复位后残余髋臼发育不良患儿, 包括观察组 183 例, 手术组 (采用骨盆截骨术) 100 例。手术组根据患儿年龄采用 Salter、Pemberton、骨盆三联或髋臼周围截骨术。所有患儿随访 10 年, 拟在 DDH 闭合复位后 8 个时间点 (闭合复位术后 1、2、3、4、5 ~ 6、7 ~ 8、9 ~ 10 年以及 10 年以上) 拍摄髋关节正位 X 线片, 测量髋臼指数 (acetabular index, AI)、中心边缘角 (center-edge angle of Wiberg, CEA) 和 Reimer 指数 (Reimer's index, RI), 根据末次随访时正位 X 线片上髋关节 Severin 分级分为满意组 (Severin 分级为 I、II 级) 和不满意组 (Severin 分级为 III、IV 级), 利用 Logistic 回归和 Cox 回归分析残余髋臼发育不良的风险因素, 比较两组患儿 AI、CEA、RI 及 Severin 分级情况。这一多中心前瞻性研究可以为 DDH 闭合复位后残余髋臼发育不良的手术干预时机和指征提供循证医学证据。

**【关键词】** 发育性髋关节发育不良; 髋脱位, 先天性; 闭合复位; 残余髋臼发育不良; 截骨术, 骨盆; 临床方案; 多中心研究

**基金项目:** 广州医科大学广州市妇女儿童医疗中心医学系统生物学实验室临床研究基金 (GWC-MC2020-6-005)

DOI: 10.3760/cma.j.cn101785-202405072-005

**A multicenter prospective non-randomized controlled protocol on timing and indications of pelvic osteotomy for residual acetabular dysplasia after closed reduction of developmental dislocation of the hip**

Li Jingchun<sup>1</sup>, Liu Yanhan<sup>1</sup>, Li Yiqiang<sup>1</sup>, Zhu Guanghui<sup>2</sup>, Guo Yueming<sup>3</sup>, Li Ming<sup>4</sup>, Kang Xiaopeng<sup>5</sup>, Tang Shengping<sup>6</sup>, Shen Xiantao<sup>7</sup>, Shao Jingfan<sup>8</sup>, Chen Shunyou<sup>9</sup>, Jiang Fei<sup>10</sup>, Li Jin<sup>11</sup>, Xu Hongwen<sup>1</sup>, Chinese Multi-Center Pediatric Orthopedic Study Group (CMPOS)

<sup>1</sup> Department of Pediatric Orthopedics, Municipal Women & Children's Medical Center, Guangzhou 510623, China; <sup>2</sup> Department of Pediatric Orthopedics, Hunan Children's Hospital, Changsha 410007, China; <sup>3</sup> Department of Pediatric Orthopedics, Municipal Hospital of Traditional Chinese Medicine, Foshan 528000, China; <sup>4</sup> Orthopedic

Center, Affiliated Children's Hospital, Chongqing Medical University, Chongqing 400014, China; <sup>5</sup> Department of Pediatric Orthopedics, Kunming Municipal Children's Hospital, Kunming 650228, China; <sup>6</sup> Department of Orthopedics, Shenzhen Municipal Children's Hospital, Shenzhen 518038, China; <sup>7</sup> Department of Pediatric Orthopedics, Affiliated Wuhan Children's Hospital, Tongji Medical College, Huazhong University of Science & Technology, Wuhan 430015, China; <sup>8</sup> Department of Pediatric Surgery, Affiliated Tongji Hospital, Tongji Medical College, Huazhong University of Science & Technology, Wuhan 430030, China; <sup>9</sup> Department of Pediatric Orthopedics, Fuzhou Second General Hospital, Fuzhou 350007, China; <sup>10</sup> Department of Pediatric Orthopedics, Dalian Municipal Women & Children's Hospital, Dalian 116012, China; <sup>11</sup> Department of Pediatrics, Affiliated Union Hospital, Tongji Medical College, Huazhong University of Science & Technology, Wuhan 430022, China  
Corresponding author: Xu Hongwen, Email: xuhongwen@gwcmc.org

**【Abstract】** Closed reduction under general anesthesia and plaster fixation in human position are commonly applied for treating developmental dislocation of the hip (DDH) under an age of 24 months. However, around one-third of patients still experience residual acetabular dysplasia after closed reduction. Although pelvic osteotomy is widely utilized for residual acetabular dysplasia, its accurate surgical timing and indications have remained elusive. This study was designed to explore timing and indications of surgical intervention for residual acetabular dysplasia after closed reduction of DDH through a multicenter, prospective and non-randomized controlled trial. There were 183 children in observation group and 100 in pelvic surgical intervention group. The surgical group underwent Salter and Pemberton, Triple pelvic or Periacetabular osteotomy based upon age. The follow-up period was at least 10 years. Anteroposterior radiographs of hip joint were taken at 8 timepoints of 1/2/3/4/5 – 6/7 – 8/9 – 10/ > 10 years post-reduction surgery for measuring the values of acetabular index (AI), center-edge angle of Wiberg (CEA) and Reimer's index (RI). According to the Severin grading of the last follow-up, they were assigned into two groups of satisfactory (grade I/II) and unsatisfactory (grade III/IV). Logistic and COX regressions were employed for examining the risk factors for residual acetabular dysplasia and comparing the clinical values of AI, CEA, RI and Severin grades between two groups. This study provided evidence-based medical evidence for timing and indications of surgical interventions for residual acetabular dysplasia after closed reduction of DDH.

**【Key words】** Developmental Dysplasia of the Hip; Hip Dislocation, Congenital; Closed Reduction; Residual Acetabular Dysplasia; Osteotomy, Pelvis; Clinical Protocols; Multicenter Studies as Topic

**Fund program:** Clinical Research Fund for Medical Systems Biology Laboratory of Guangzhou Women & Children's Medical Center, Guangzhou Medical University (GWCMC2020-6-005)

DOI:10.3760/cma.j.cn101785-202405072-005

发育性髋关节发育不良 (developmental dysplasia of the hip, DDH) 包括从新生儿期超声显示的髋关节发育不良到行走期儿童的晚期髋关节脱位等一系列髋关节异常, 治疗的目的是尽早获得髋关节稳定复位<sup>[1-3]</sup>。目前, 全身麻醉下闭合复位加髋人位石膏固定是 24 月龄以下患儿的常规治疗方法<sup>[1,4-5]</sup>。然而, 闭合复位后残余髋臼发育不良仍然是临床面临的主要问题。最近研究表明, 6 月龄以后行 DDH 闭合复位治疗者因术后残余髋臼发育不良而需二次手术的比例达 35%~58%<sup>[6-7]</sup>。众所周知, 持续性残余髋臼发育不良可能导致步态异常、患肢力量下降以及成年后骨关节炎的发生率增加<sup>[8-9]</sup>。由于残余髋臼发育不良通常无临床症状, 是否需要行二次手术, 通常取决于影像学检查结果<sup>[10-17]</sup>。既往研究中纳入了骨盆 X 线检查参数,

以探究 DDH 闭合复位后残余髋臼发育不良行骨盆截骨的最佳预测指标, 其中髋臼指数 (acetabular index, AI)、中心边缘角 (center-edge angle of Wiberg, CEA) 是最常用的参数<sup>[12,14-16]</sup>。此外, 部分研究还使用了中心-股骨头距离差 (center-head distance discrepancy, CHDD) 和 Reimer 指数 (Reimer's index, RI) 进行评估<sup>[13]</sup>。但究竟哪些参数可作为骨盆截骨的手术指征目前还存在争议, 其中一些骨盆放射学参数已被推荐作为是否行骨盆截骨手术的指征<sup>[10-17]</sup>。此外, 残余髋臼发育不良应何时进行手术干预也存在争议。尽管世界上大多数有经验的儿童骨科医师对于 DDH 闭合复位后残余髋臼发育不良均常规采取骨盆截骨术, 但迄今为止文献报告的病例数仍然较少, 且均为小样本回顾性研究 (表 1), 指导临床实践的证据仍然不足。

表 1 既往关于 DDH 闭合复位的文献

Table 1 Summary of pervious literature items on closed reduction of DDH

| 发表期刊                         | 发表时间(年) | 第一作者                       | 病例数 | 骨盆截骨指征                                      |
|------------------------------|---------|----------------------------|-----|---|
| <i>J Bone Joint Surg Br</i>  | 2005    | Albiñana 等 <sup>[10]</sup> | 72  | AI ≥35°, 闭合复位后 2 年                          |
| <i>Clin Orthop Relat Res</i> | 2000    | Gotoh 等 <sup>[12]</sup>    | 63  | 年龄 5 岁, CEA <8°, AI >26°                    |
| <i>J Pediatr Orthop</i>      | 2000    | Kim 等 <sup>[13]</sup>      | 32  | 年龄 4~5 岁, CHDD ≥6%, 且髋臼眉弓上翘                 |
| <i>Int Orthop</i>            | 2017    | Li 等 <sup>[14]</sup>       | 89  | 闭合复位后 1 年 AI >28° 或者闭合复位后 2~4 年 AI >25°     |
| <i>J Bone Joint Surg Am</i>  | 2016    | Shin 等 <sup>[15]</sup>     | 84  | 年龄 3 岁, AI ≥32°, CEA ≤14°                   |
| <i>J Orthop Sci</i>          | 2006    | Kitoh 等 <sup>[16]</sup>    | 45  | 年龄 4 岁的 AI 和 5 岁的 CEA 是早期预测指标, 但无具体数值       |
| <i>Orthop Surg</i>           | 2014    | Fu 等 <sup>[17]</sup>       | 48  | 年龄 3~4 岁, RI >38% 或 4~5 岁 RI >33%, 合并髋臼眉弓上翘 |

注 AI: 髋臼指数; CEA: 中心边缘角; CHDD: 中心-股骨头距离差; RI: Reimer 指数

因此我们患儿依托中国儿童骨科多中心研究协作组平台, 开展一项多中心前瞻性研究, 对 DDH 闭合复位后患儿进行为期 10 年的随访, 观察残余髋臼发育不良随着年龄增长的变化趋势, 分析残余髋臼发育不良的风险因素, 探讨 DDH 闭合复位后残余髋臼发育不良患儿行骨盆截骨术的时机和指征; 并比较 DDH 闭合复位后残余髋臼发育不良观察组和手术组的特点, 评价骨盆截骨手术对于残余髋臼发育不良的治疗效果及价值。

## 对象与方法

### 一、研究对象

该多中心前瞻性研究纳入 2004—2014 年中国儿童骨科多中心研究协作组内 11 个医疗中心收治的 DDH 闭合复位治疗成功后出现残余髋臼发育不良的患儿, 进行为期 10 年的随访。纳入标准: ①诊断为 DDH, 闭合复位时年龄 ≤24 个月; ②初始治疗采用闭合复位和石膏固定; ③闭合复位后出现残余髋臼发育不良; ④随访时间 ≥10 年; ⑤有完整的影像学随访资料。排除标准: ①初始闭合复位治疗失败, 或闭合复位成功后出现再脱位; ②闭合复位后出现髋关节半脱位 (Reimer 指数大于 33%<sup>[9, 17-18]</sup>), 并接受切开复位手术治疗; ③合并脑瘫、多关节挛

缩、脊髓栓系综合征等神经肌肉疾病。剔除标准: 骨盆截骨术后髋臼指数的纠正没有达到预期标准。

根据 Tönnis<sup>[19]</sup> 的研究结果, 我们将闭合复位术后残余髋臼发育不良定义为: AI 值大于正常值 1 个标准差为残余髋臼发育不良, AI 正常值参照表 2、表 3。

本研究参与单位包括广州市妇女儿童医疗中心、湖南省儿童医院、佛山市中医院、重庆医科大学附属儿童医院、昆明市儿童医院、深圳市儿童医院、华中科技大学同济医学院附属武汉儿童医院、华中科技大学同济医学院附属同济医院、福州市第二总医院、大连市妇女儿童医疗中心(集团)、华中科技大学同济医学院附属协和医院。

### 二、分组及样本量计算

本研究主要目的是分析末次随访时治疗效果的影响因素。结局指标为 Severin I、II 级治疗结局的发生率, 并定义为满意组; 结局为 Severin III、IV 级者归为不满意组。既往研究表明, DDH 闭合复位后发生残余髋臼发育不良未行截骨手术者末次随访时 Severin I、II 级的发生率为 68.3%<sup>[12]</sup>。根据临床研究回归模型样本量 10 倍 EPV (10 Events Per Variable Rule) 原则, 预计纳入回归模型的因素有 5 个 (年龄、性别、AI、CEA、RI), 由此计算获得非手术组 (观察组) 中末次随访不满意组病例数至少需要

表 2 Tönnis 不同年龄儿童髋臼发育不良程度的 AI 评估<sup>[20]</sup>Table 2 AI index of acetabular dysplasia at different ages from Tönnis<sup>[20]</sup>

| 分组    | 女                             |      |                               |      | 男                             |      |                               |      |
|-------|-------------------------------|------|-------------------------------|------|-------------------------------|------|-------------------------------|------|
|       | 髋臼轻度发育不良<br>(AI 大于 1 个标准差, °) |      | 髋臼重度发育不良<br>(AI 大于 2 个标准差, °) |      | 髋臼轻度发育不良<br>(AI 大于 1 个标准差, °) |      | 髋臼轻度发育不良<br>(AI 大于 2 个标准差, °) |      |
|       | 右侧                            | 左侧   | 右侧                            | 左侧   | 右侧                            | 左侧   | 右侧                            | 左侧   |
| 2~3 岁 | 21.8                          | 23.3 | 25.6                          | 27.1 | 21.0                          | 22.7 | 25.3                          | 26.9 |
| 3~5 岁 | 17.9                          | 21.2 | 21.3                          | 25.8 | 19.2                          | 19.8 | 23.5                          | 23.8 |
| 5~7 岁 | 19.3                          | 19.8 | 23.4                          | 23.8 | 16.8                          | 19.3 | 20.9                          | 23.2 |

注 AI: 髋臼指数

表 3 中国儿童不同年龄髋臼发育不良程度的 AI 评估<sup>[21]</sup>Table 3 AI index for degree of acetabular dysplasia in Chinese children of different ages<sup>[21]</sup>

| 分组   | 女                            |                              | 男                            |                              |
|------|------------------------------|------------------------------|------------------------------|------------------------------|
|      | 髋臼重度发育不良<br>(AI 大于 1 个标准差,°) | 髋臼轻度发育不良<br>(AI 大于 2 个标准差,°) | 髋臼重度发育不良<br>(AI 大于 1 个标准差,°) | 髋臼轻度发育不良<br>(AI 大于 2 个标准差,°) |
| 1 岁  | 29.39                        | 33.91                        | 28.13                        | 32.19                        |
| 2 岁  | 25.73                        | 29.49                        | 24.06                        | 28.1                         |
| 3 岁  | 23.06                        | 27.25                        | 21.81                        | 25.36                        |
| 4 岁  | 24.48                        | 29.31                        | 21.03                        | 25.37                        |
| 5 岁  | 20.81                        | 24.96                        | 18.44                        | 22.07                        |
| 6 岁  | 19.83                        | 23.55                        | 19.4                         | 23.25                        |
| 7 岁  | 18.17                        | 21.43                        | 18.37                        | 22                           |
| 8 岁  | 19.09                        | 23.31                        | 18.05                        | 21.4                         |
| 9 岁  | 17.21                        | 20.87                        | 17.81                        | 22.14                        |
| 10 岁 | 16.13                        | 19.29                        | 16.08                        | 19.43                        |

注 AI:髋臼指数

纳入 100 例患儿;根据满意率 68.3%,共纳入非手术组患儿 146 例,预计失访率 20%,将样本量扩大至 183 例。根据各参与单位既往手术干预的比例,手术组最终纳入约 100 例。

### 三、伦理审查及研究项目注册情况

本研究获得了广州市妇女儿童医疗中心伦理委员会审核批准(穗妇儿科伦批字 2021 第 129A01 号),由广州市妇女儿童医疗中心临床研究数据和安全管理委员会监督。其余 10 个参与单位均获得所属伦理委员会的批准。本研究已在临床研究网站注册,网址为: <http://www.clinicaltrials.gov> (NCT02163603)。

### 四、研究内容与研究路线

本研究收集了各参与单位自 2004—2014 年间所有接受全身麻醉下闭合复位的 DDH 患儿,按照入

选标准、排除标准、剔除标准随访患儿至少 10 年。收集所有患儿人口学资料,如性别、侧别、闭合复位年龄等。在闭合复位前拍摄髋关节正位 X 线片,测量 AI,并根据 Tönnis<sup>[19]</sup> 分级方法对股骨头脱位程度进行分级。术后第 1 年每 3 个月复查 1 次,此后每 6 个月至 1 年复查 1 次。每次复查时拍摄骨盆正位 X 线片。本研究前期检索了相关英文和中文文献,并参考了之前的研究成果,经筛选得到潜在可能预测 DDH 闭合复位后残余髋臼发育不良行截骨手术指标的候选列表,并在 DDH 闭合复位后各时间点和末次随访时测量 AI、CEA 和 RI。根据最终随访时的 Severin 分级,分为满意组和不满意组。对 DDH 闭合复位后残余髋臼发育不良行骨盆截骨术者进行同样的随访和临床评估(图 1)。

在 DDH 闭合复位后 8 个时间点(闭合复位术

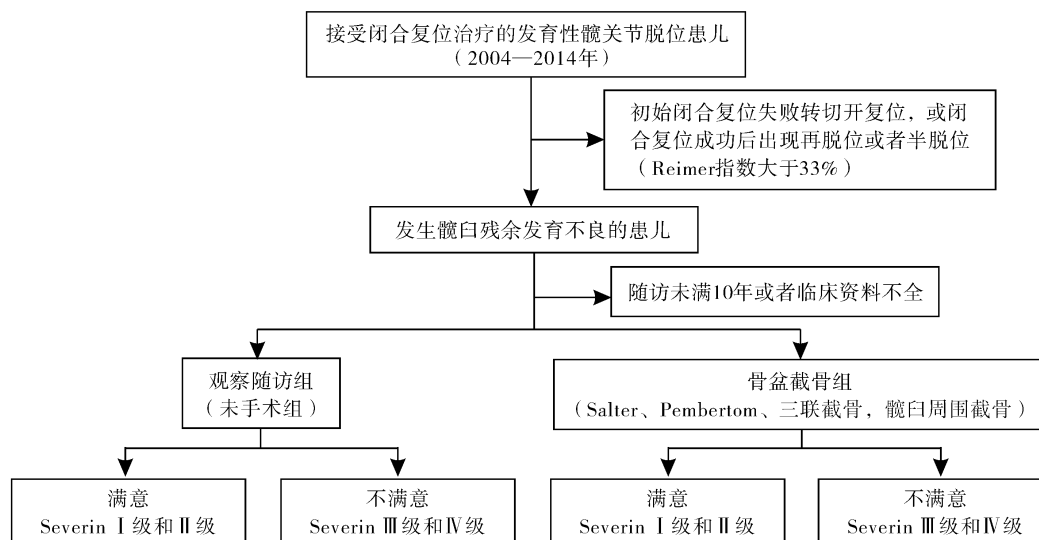


图 1 研究对象入组及随访评价流程图

Fig. 1 Process diagram of enrollments and follow-up evaluations



后 1、2、3、4、5 ~ 6、7 ~ 8、9 ~ 10 年以及 10 年以上) 测量 AI、CEA、RI。实施骨盆截骨手术者时间点为: 截骨术前, 截骨后即刻, 截骨术后 1、2、3、5、5 ~ 6、7 ~ 8、9 ~ 10 以及 10 年以上。如果在此时间节点内有 2 次以上随访结果, 则取此时间段内多次随访结果的平均值代表此时间段的 AI、CEA 值。

通过对非手术组队列的随访, 观察患儿残余髋臼发育不良随着年龄增长的变化趋势, 分析残余髋臼发育不良的风险因素, 探究 DDH 闭合复位后发生残余髋臼发育不良行骨盆截骨术的时机和指征, 通过比较非手术组和手术组 DDH 闭合复位后残余髋臼发育不良的治疗效果, 评估骨盆截骨手术对于残余髋臼发育不良的治疗意义。

### 五、手术方法

所有患儿在全身麻醉下接受闭合复位石膏固定, 如果髋部内收肌紧张, 则术中行内收肌切断。复位成功后予石膏固定 3 个月, 拆除石膏后改全天外展支具固定 3 ~ 4 个月, 后改夜间佩戴支具, 直至髋关节完全稳定。

针对残余髋臼发育不良的手术方式包括四类:

①Salter 截骨; ②Pemberton 截骨; ③Tönnis、Steel、Bernese 骨盆三联截骨; ④髋臼周围截骨 (periacetabular osteotomy, PAO)。

手术指征: 闭合复位术后 2 年髋臼指数 (acetabular index, AI) 大于  $25^{\circ}$  [14]。但是否行骨盆截骨手术及何时行骨盆截骨手术, 受主治医师的治疗偏好及家长意愿的影响。

### 六、数据收集

从各参与医院数据库中识别并提取出 2004—2014 年所有 DDH 病例。对于纳入病例, 为其分配唯一的研究编号。要求各参与医院的工作人员收集原始记录, 并扫描上传至协调中心。

协调中心收集到放射学检查图像后, 先对每位测量者进行为期 1 周的培训, 其中包括研究介绍和 AI、CEA、RI 测量指导。测量 AI 和 CEA 时, 使用髋臼顶的外侧骨边缘而不是髋臼的外侧端, 从而防止髋臼外侧端测量 AI 和 CEA 可能导致的对残余髋臼发育不良的过度诊断和不必要治疗 [22]。见表 4。

髋关节脱位的严重程度根据 Tönnis 分级系统进行分级。最后一次随访时拍摄正位和蛙式侧位 X 线片, 用于评估是否存在股骨头缺血性坏死 (avascular necrosis of the femoral head, AVN)。根据 Bucholz-Ogden 分类系统描述的方法对股骨头缺血坏死进行分型。两名儿童骨科主治医师独立评判 AVN, 如果无法就 AVN 的类型达成一致, 则与其他三名高年资儿童骨科医师 (副主任医师及以上) 讨论并得出最终结果。

### 七、结果指标及相关定义

本研究在中国中心城市所属儿童骨科治疗中心进行 DDH 闭合复位后残余髋臼发育不良骨盆截骨术的随访和临床评估。对于此评估, 我们定义了一个复合终点: 满意组和不满意组。主要评价指标为 Severin 分级; 次要评价指标为 AI、Harris 髋关节功能 (Harris hip score, HHS) 评分 [23]。

Severin I 级和 II 级的治疗结果归类为满意, III 和 IV 级为不满意。

HHS 评分最高为 100 分, 其中疼痛 44 分, 功能 47 分, 活动度 5 分, 畸形 4 分。功能细分为日常生活活动 (14 分) 和步态 (33 分)。HHS 评分越高, 功能障碍越少。总分 70 分为差, 70 ~ 80 分为一般, 80 ~ 90 分为良好, 90 ~ 100 分为优 [23]。

使用 Bucholz-Ogden 分型对股骨头坏死进行分型, 因为 I 型 AVN 为暂时性的缺血改变, 可以完全恢复, 因此本研究定义 I 型 AVN 为正常 [14]。

表 4 DDH 术后残余髋臼发育不良行骨盆截骨术的时机及指征的前瞻性研究数据要素

Table 4 Prospective study data elements on intervention timing and indications for pelvic osteotomy in residual acetabular dysplasia after operations for DDH

| 项目               | 具体指标   |
|------------------|--|
| 人口学指标            | 性别, 出生日期, 闭合复位时年龄, 侧别, 骨盆截骨术年龄   |
| 骨盆截骨方式           | Salter, Pemberton, Tönnis、Steel、Bernese 三联截骨, 髋臼周围截骨   |
| 随访时间点            | 闭合复位前, 闭合复位 1 周内, 闭合复位术后 1、2、3、4、5 ~ 6、7 ~ 8、9 ~ 10 年及 10 年以上<br>再次骨盆截骨组: 截骨术前、截骨术后即刻, 截骨术后 1、2、3、5、5 ~ 6、7 ~ 8、9 ~ 10 年及 10 年以上 |
| 影像学资料 (骨盆 X 线平片) | 髋关节脱位 Tönnis 分级, AI, CEA, RI, 股骨头坏死的 Bucholz-Ogden 分级 (I、II、III、IV), Severin (I、II、III、IV)                                       |
| 临床评估指标           | HHS 评分, 髋关节活动度 (屈伸、外展)   |
| 主要终点指标           | 满意组 (Severin I、II 级), 不满意组 (Severin III、IV 级)  |

注 DDH: 发育性髋关节脱位; HHS: Harris 髋关节功能; AI: 髋臼指数; CEA: 中心边缘角; RI: Reimer 指数

## 八、质量控制

为了验证病例发现策略的合规性,牵头单位主要研究人员每 4 个月访问研究地点,重复病例搜集过程,确认不遗漏 DDH 住院患者,并协助获取随访样本病例。针对患者失访率高的特点,通过电话、微信、邮件、信件等多种方式联系监护人。

在获取病例的所有医疗记录后,参与医院将记录复制并传输到中央数据库。研究人员确保每份扫描病历的完整性和扫描质量;不完整或扫描不清的记录将重新扫描并重新传输。获取的医疗记录包括:入院记录、手术记录、放射检查图像、医嘱和出院小结。

所有数据都视为受保护的医疗信息,并安全存储在协调中心的加密电子硬盘中,定期执行数据清理。牵头单位的数据管理员定期查询数据以查找无效和不合逻辑的值以及重复记录的数值。通过搜索连续数据分布中的异常值来识别潜在的无效值。具有相同研究识别号、医院识别号、医疗记录识别号和出院日期的记录会触发重复记录的搜索。一旦发现潜在错误,数据管理员将跟踪和审查相关原始记录并解决。各个单位提交的病例均予去除个人隐私信息(对数据进行脱敏后提交数据中心)及去重复处理。

## 九、统计学方法

统计分析由中山大学公共卫生学院的一名统计学专家完成。

在病例随访的各个时间点内有 2 次以上随访结果,则取此时间段内多次随访结果的平均值代表此时间段的 AI、CEA 值。为了确定观察者之间的可靠性,由两名儿童骨科硕士研究生或者住院医师测量 AI、CEA 和 RI 值,并由骨科主治以上医师对其测量值进行检验,如果测量值之间存在较大差异(差值  $>4^\circ$ ),则复测,由副主任医师及以上医师进行最终结果的判断。使用组内、组间相关系数(intraclass correlation, ICC)对 AI 和 CEA 在各个时间点的随访结果进行可靠性检验。

对连续型数据进行正态性检验,服从正态分布的连续型数据以  $\bar{x} \pm s$  表示,采用两独立样本  $t$  检验进行组间比较;对于不服从正态分布的数据以  $M(Q_1, Q_3)$  表示,采用 Wilcoxon 秩和检验进行组间比较;对分类资料进行卡方检验和 Fisher 精确检验;分析观察组中满意和非满意组之间年龄、性别、侧别、Tonnis 分级、复位前 AI、不同年龄段 AI 值及髋臼发

育分度、二次手术前 AI、末次随访结局和 AVN 的差异。采用 Logistic 和 Cox 回归分析观察组疗效不佳的影响因素,对于重复测量的指标将使用混合效应模型进行影响因素分析。

统计软件包括 R 4.3.0 和 SAS 9.4。无特殊说明的情况下,显著性水准设定为  $P < 0.05$ 。

## 讨 论

目前对于 DDH 闭合复位术后残余髋臼发育不良的手术指征和时机还存在很大争议。一些作者认为,髋臼的生长和塑形发生在闭合复位后的 1~2 年,此后持续数年。然而,发育异常的髋臼恢复正常的确切年龄仍然存在争议<sup>[24-26]</sup>。Schwartz<sup>[27]</sup>认为,DDH 闭合复位术后 2 年,如果 AI  $> 25^\circ$ ,必须考虑行骨盆截骨术;Tönnis<sup>[20]</sup>认为,如果 AI 超过 2 个标准差,应行骨盆截骨,但其并未指出合适的手术年龄;Li 等<sup>[14]</sup>回顾性分析了 89 例(99 髋)采用闭合复位治疗的 DDH 患儿资料,通过 Logistic 回归和受试者工作特征曲线分析,得出闭合复位 2 年后 AI  $> 25^\circ$  者需要行骨盆截骨手术;Gotoh 等<sup>[12]</sup>的研究也得出类似结果;不过,Shin 等<sup>[15]</sup>研究后认为,3 岁以后 AI  $> 32^\circ$ 、CEA  $< 14^\circ$  是合适的骨盆截骨指征。此外,Terjesen<sup>[9]</sup>认为,闭合复位术后 8~10 年迁移指数超过 33%、CEA  $< 10^\circ$ ,必须考虑行骨盆重建手术。Tasnavites 等<sup>[28]</sup>认为,髋臼的重建手术不应在闭合复位后 3 年内进行。总体而言,闭合复位后残余髋臼发育不良髋臼矫正重建的干预时机依然存在较大争议。另外,既往研究中纳入的病例较少,无法得出有效的结论。本研究拟纳入相对较大的样本量(183 例),并且拟进行 10 年的随访,观察髋臼指数、CEA 等指标的变化,从而较准确地得出 DDH 闭合复位后残余髋臼发育不良的干预时机和干预指征。

Tönnis<sup>[20]</sup>经过数年的随访,发现髋臼指数低于 1 个标准差是正常的,而高于 2 个标准差则提示髋臼发育不良;髋臼指数在 1~2 个标准差之间的“特殊区域”的髋关节,日后有部分演变为病理性。鉴于此,本研究中闭合复位后残余髋臼发育不良的定义为:DDH 闭合复位后超过正常值 1 个标准差为残余髋臼发育不良,并纳入是否行骨盆截骨术的评估,这符合临床治疗常规,不会延误患儿治疗。

中国儿童骨科多中心研究协作组既往对于闭

合复位后残余髋臼发育不良行骨盆截骨手术的指征主要参考既往文献和前期回顾性研究结果,包括:①术后 1 年 AI 大于  $28^{\circ}$ ,或术后 2 年以上大于  $25^{\circ}$ ;②CEA 小于  $15^{\circ}$ <sup>[14]</sup>。但是否行骨盆截骨手术及何时行骨盆截骨手术,受到主治医师治疗偏好及家长、患儿意愿等因素影响。本研究的实施方案不会延误患儿治疗,更不会损害患者医疗需求的基本权益。其优势在于:病例数量足够,遵循统计学规律,设计完整,可以回答 DDH 闭合复位后残余髋臼发育不良骨盆截骨术干预的时机和指征问题,能够得到较既往研究更准确的结果,通过与骨盆截骨手术组治疗效果的比较可望确定骨盆截骨对于治疗髋臼发育不良的价值,并且还能明确 DDH 闭合复位残余髋臼发育不良骨盆截骨后髋臼的再次发育变化。

但是本研究方案也存在一些缺陷:由于随访时间较长,失访率可能较高,这将引起较大的选择偏倚。另外 DDH 闭合复位后,各个中心或同一中心不同主治医师可能选择不同的残余髋臼发育不良骨盆截骨方式,这种骨盆截骨方式的不完全统一,可能影响日后髋关节的塑形过程,给手术组的结果造成影响。

综上所述,中国儿童骨科多中心研究协作组的这项研究将包括 DDH 闭合复位后最短 10 年随访的最大样本量研究人群,符合前瞻性研究实施原则,设计完整。此研究将前瞻性评估 DDH 闭合复位后参与髋臼发育不良观察组和手术组的受试者的临床及放射学结果,并将确定 DDH 闭合复位后残余髋臼发育不良骨盆截骨手术的指征及手术时机。研究结果预计在 2024 年底得出并成文投稿。

**利益冲突** 所有作者声明不存在利益冲突

**作者贡献声明** 李敬春、刘雁寒、黎艺强负责文献检索;李敬春、刘雁寒、徐宏文负责论文设计;李敬春、朱光辉、郭跃明、李明、康晓鹏、唐盛平、沈先涛、邵景范、陈顺有、蒋飞、李进负责数据搜集;徐宏文、李敬春、邵景范、朱光辉负责研究结果分析与讨论;刘雁寒、李敬春负责论文撰写;徐宏文、李敬春负责对全文知识性内容的审读与修正

## 参 考 文 献

- [1] Cashman JP, Round J, Taylor G, et al. The natural history of developmental dysplasia of the hip after early supervised treatment in the Pavlik harness. A prospective, longitudinal follow-up[J]. J Bone Joint Surg Br, 2002, 84(3): 418-425. DOI: 10. 1302/0301-620x. 84b3. 12230.
- [2] Agostiniani R, Atti G, Bonforte S, et al. Recommendations for early diagnosis of Developmental Dysplasia of the Hip (DDH): working group intersociety consensus document[J]. Ital J Pediatr, 2020, 46(1): 150. DOI: 10. 1186/s13052-020-00908-2.
- [3] Doski J, Mosa L, Hassawi Q. An upgrade of the international hip dysplasia institute classification for developmental dysplasia of the hip[J]. Clin Orthop Surg, 2022, 14(1): 141-147. DOI: 10. 4055/cios21075.
- [4] Walton MJ, Isaacson Z, McMillan D, et al. The success of management with the Pavlik harness for developmental dysplasia of the hip using a United Kingdom screening programme and ultrasound-guided supervision[J]. J Bone Joint Surg Br, 2010, 92(7): 1013-1016. DOI: 10. 1302/0301-620X. 92B7. 23513.
- [5] Hines AC, Neal DC, Beckwith T, et al. A comparison of Pavlik harness treatment regimens for dislocated but reducible (Ortolani +) hips in infantile developmental dysplasia of the hip[J]. J Pediatr Orthop, 2019, 39(10): 505-509. DOI: 10. 1097/BPO. 0000000000001052.
- [6] Bolland BJ, Wahed A, Al-Hallao S, et al. Late reduction in congenital dislocation of the hip and the need for secondary surgery: radiologic predictors and confounding variables[J]. J Pediatr Orthop, 2010, 30(7): 676-682. DOI: 10. 1097/BPO. 0b013e3181efb8c7.
- [7] Luhmann SJ, Bassett GS, Gordon JE, et al. Reduction of a dislocation of the hip due to developmental dysplasia. Implications for the need for future surgery[J]. J Bone Joint Surg Am, 2003, 85(2): 239-243. DOI: 10. 2106/00004623-200302000-00009.
- [8] Cooperman DR, Wallenstein R, Stulberg SD. Acetabular dysplasia in the adult[J]. Clin Orthop Relat Res, 1983, 175: 79-85.
- [9] Terjesen T. Residual hip dysplasia as a risk factor for osteoarthritis in 45 years follow-up of late-detected hip dislocation[J]. J Child Orthop, 2011, 5(6): 425-431. DOI: 10. 1007/s11832-011-0370-2.
- [10] Albinana J, Dolan LA, Spratt KF, et al. Acetabular dysplasia after treatment for developmental dysplasia of the hip. Implications for secondary procedures[J]. J Bone Joint Surg Br, 2004, 86(6): 876-886. DOI: 10. 1302/0301-620x. 86b6. 14441.
- [11] Albiñana J, Morcuende JA, Weinstein SL. The teardrop in congenital dislocation of the hip diagnosed late. A quantitative study[J]. J Bone Joint Surg Am, 1996, 78(7): 1048-1055. DOI: 10. 2106/00004623-199607000-00009.
- [12] Gotoh E, Tsuji M, Matsuno T, et al. Acetabular development after reduction in developmental dislocation of the hip[J]. Clin Orthop Relat Res, 2000, 378: 174-182. DOI: 10. 1097/00003086-200009000-00027.
- [13] Kim HT, Kim JI, Yoo CI. Acetabular development after closed reduction of developmental dislocation of the hip[J]. J Pediatr Orthop, 2000, 20(6): 701-708. DOI: 10. 1097/00004694-200011000-00002.
- [14] Li YQ, Guo YM, Li M, et al. Acetabular index is the best predictor of late residual acetabular dysplasia after closed reduction in developmental dysplasia of the hip[J]. Int Orthop, 2018, 42(3): 631-640. DOI: 10. 1007/s00264-017-3726-5.
- [15] Shin CH, Yoo WJ, Park MS, et al. Acetabular remodeling and role of osteotomy after closed reduction of developmental dysplasia of the hip[J]. J Bone Joint Surg Am, 2016, 98(11): 952-957. DOI: 10. 2106/JBJS. 15. 00992.
- [16] Kitoh H, Kitakoji T, Katoh M, et al. Prediction of acetabular development after closed reduction by overhead traction in developmental dysplasia of the hip[J]. J Orthop Sci, 2006, 11(5): 473-477. DOI: 10. 1007/s00776-006-1049-2.
- [17] Fu Z, Yang JP, Zeng P, et al. Surgical implications for residual subluxation after closed reduction for developmental dislocation of the hip: a long-term follow-up[J]. Orthop Surg, 2014, 6(3): 210

- 216. DOI:10.1111/os.12113.
- [18] Reimers J. The stability of the hip in children. A radiological study of the results of muscle surgery in cerebral palsy[J]. Acta Orthop Scand Suppl, 1980, 184; 1-100. DOI: 10.3109/ort.1980.51.suppl-184.01.
- [19] Tönnis D. Congenital dysplasia and dislocation of the hip in children and adults [M]. Berlin: Springer-Verlag, 1987. DOI: 10.1007/978-3-642-71038-4.
- [20] Tönnis D. Normal values of the hip joint for the evaluation of X-rays in children and adults[J]. Clin Orthop Relat Res, 1976, 119:39-47.
- [21] 石永言, 刘天婧, 赵群, 等. 中国人髋关节髋臼指数和 Sharp 角正常值的测量[J]. 中华骨科杂志, 2010, 30(8): 748-753. DOI:10.3760/cma.j.issn.0253-2352.2010.08.004.
- Shi YY, Liu TJ, Zhao Q, et al. The measurements of normal acetabular index and Sharp acetabular angle in Chinese hips[J]. Chin J Orthop, 2010, 30(8): 748-753. DOI: 10.3760/cma.j.issn.0253-2352.2010.08.004.
- [22] Shin CH, Yang E, Lim C, et al. Which acetabular landmarks are the most useful for measuring the acetabular index and center-edge angle in developmental dysplasia of the hip? A comparison of two methods[J]. Clin Orthop Relat Res, 2020, 478(9): 2120-2131. DOI:10.1097/CORR.0000000000001289.
- [23] Harris WH. Traumatic arthritis of the hip after dislocation and acetabular fractures: treatment by mold arthroplasty. An end-result study using a new method of result evaluation[J]. J Bone Joint Surg Am, 1969, 51(4): 737-755.
- [24] Kasser JR, Bowen JR, MacEwen GD. Varus derotation osteotomy in the treatment of persistent dysplasia in congenital dislocation of the hip[J]. J Bone Joint Surg Am, 1985, 67(2): 195-202.
- [25] Salter RB. Innominate osteotomy in the treatment of congenital dislocation and subluxation of the hip[J]. J Bone Joint Surg Br, 1961, 43-B(3): 518-539. DOI: 10.1302/0301-620X.43B3.518.
- [26] Schoenecker PL, Anderson DJ, Capelli AM. The acetabular response to proximal femoral varus rotational osteotomy. Results after failure of post-reduction abduction splinting in patients who had congenital dislocation of the hip[J]. J Bone Joint Surg Am, 1995, 77(7): 990-997. DOI: 10.2106/00004623-199507000-00003.
- [27] Schwartz DR. Acetabular development after reduction of congenital dislocation of the hip: a follow-up study of fifty hips[J]. J Bone Joint Surg Am, 1965, 47: 705-714.
- [28] Tasnavites A, Murray DW, Benson MK. Improvement in acetabular index after reduction of hips with developmental dysplasia[J]. J Bone Joint Surg Br, 1993, 75(5): 755-759. DOI: 10.1302/0301-620X.75B5.8376433.

(收稿日期: 2024-05-28)

**本文引用格式:** 李敬春, 刘雁寒, 黎艺强, 等. 发育性髋关节脱位闭合复位后残余髋臼发育不良骨盆截骨时机与指征的多中心前瞻性非随机对照试验研究方案[J]. 临床小儿外科杂志, 2024, 23(6): 527-534. DOI:10.3760/cma.j.cn101785-202405072-005.

**Citing this article as:** Li JC, Liu YH, Li YQ, et al. A multicenter prospective non-randomized controlled protocol on timing and indications of pelvic osteotomy for residual acetabular dysplasia after closed reduction of developmental dislocation of the hip [J]. J Clin Ped Sur, 2024, 23(6): 527-534. DOI: 10.3760/cma.j.cn101785-202405072-005.

· 编者 · 作者 · 读者 ·

## 本刊报道范围

①对临床诊疗策略、存在问题或研究方向、技术方法以及基础理论研究现状与目标的见解、建议和发展思路, 小儿外科疾病诊疗指南、专家共识、指南解读。

②小儿外科临床诊疗实践、手术运用及相关基础与实验研究结果报告。

③微创技术、腔镜内镜技术及机器人手术的临床应用, 各类新技术、新器械、新方法、新术式的介绍与探讨。

④疾病流行病学调查、随访评价、预后评估以及康复经验, 复杂疑难罕见病例、MDT 诊治案例的分享与析评。

⑤针对小儿外科理论与实践意义重大或分歧较多问题开展的学术争鸣与讨论, 针对学术文献中的概念、观点、方法或者存在问题的思考与评价。

⑥小儿外科相关专业的研究进展与研究成果。