

ОРИГИНАЛЬНЫЕ ИССЛЕДОВАНИЯ

Научная статья

УДК 611.018.23+616-007.17

doi: 10.19163/1994-9480-2022-19-1-112-116

КЛИНИЧЕСКИЕ ФОРМЫ СОЕДИНИТЕЛЬНОТКАННОЙ ДИСПЛАЗИИ У ДЕТЕЙ

А.М. Куркин¹, Л.А. Гончарова², В.А. Крошкина³, А.А. Жидовинов², В.В. Шмелев⁴, Н.П. Проватар²

¹ Областная детская клиническая больница имени Н.Н. Силищевой, Астрахань, Россия

² Астраханский государственный медицинский университет, Астрахань, Россия

³ Клиника «Медси 2», Одинцово, Россия

⁴ Реабилитационно-образовательный центр № 76, Москва, Россия

Автор, ответственный за переписку: Людмила Анатольевна Гончарова, sanomed@rambler.ru

Аннотация. Изучались клинические признаки системной дисплазии соединительной ткани у детей с острой и рецидивирующей кривошеей. Проанализировано 225 клинических случаев. Выявлено преобладание гипермобильности суставов и астенического телосложения в группе детей с рецидивирующей кривошеей, что подтверждено методами статистического анализа. В данной группе наблюдались такие скелетные клинические формы, как плоско-вальгусная деформация стоп, кифоз, сколиоз.

Ключевые слова: дети, системная дисплазия соединительной ткани, острая и рецидивирующая кривошея

ORIGINAL RESEARCHES

Original article

PREVALENCE OF SOME CLINICAL FORMS OF CONNECTIVE TISSUE DYSPLASIA IN CHILDREN

A.M. Kurkin¹, L.A. Goncharova², V.A. Kroshkina³, A.A. Zhidovinov², V.V. Shmelev⁴, N.P. Provatar²

¹ Regional Children's Clinical Hospital named after N.N. Silishcheva, Astrakhan, Russia

² Astrakhan State Medical University, Astrakhan, Russia

³ Medsi Clinic 2, Odintsovo, Russia

⁴ Rehabilitation and Educational Center No. 76, Moscow, Russia

Corresponding author: Lyudmila A. Goncharova, sanomed@rambler.ru

Abstract. Clinical signs of systemic connective tissue dysplasia in children with acute and recurrent torticollis were studied. 225 clinical cases were analyzed. The predominance of joint hypermobility and asthenic physique in the group of children with recurrent torticollis was revealed and proved by the medical statistics methods. In this group, such skeletal clinical forms as flat-valgus deformity of the feet, kyphosis, scoliosis were observed.

Keywords: children, systemic connective tissue dysplasia, acute and recurrent torticollis

В современной медицинской отечественной и зарубежной литературе все чаще встречается описание различных форм и проявлений синдрома системной дисплазии соединительной ткани у детей (НДСТ). Клинические маркеры недифференцированной формы данного состояния разнообразны и многочисленны [1], а диагностика и идентификация затруднительны [2]. Чаще других симптомов указывают на патологию сердечной мышцы, гипермобильность суставов и позвоночника [3]. Имеются данные о бесплодии в супружеских парах при НДСТ [4]. Выявлена корреляция

между системной дисплазией соединительной ткани и повторяющимися подвывихами в шейном отделе позвоночника у детей [5]. Согласно имеющимся данным, число детей с данной патологией увеличивается из года в год, и часто это сопровождается подвывихами в крупных суставах и шейном отделе позвоночного столба. Поэтому дети с клиническими признаками системной дисплазии соединительной ткани, возможно, нуждаются в уточняющей лучевой и биомеханической диагностике для предотвращения рецидивирующих вывихов и подвывихов.

ЦЕЛЬ РАБОТЫ

Изучить клинические скелетные формы системной дисплазии соединительной ткани у детей.

МЕТОДИКА ИССЛЕДОВАНИЯ

В период с 2017 по 2020 гг. нами было обследовано 227 детей, обратившихся в травматологическое отделение Областной детской клинической больницы им Н.Н. Силищевой г. Астрахани с симптомами острой боли в шейном отделе позвоночника и вынужденным положением головы. Изучались анамнестические и клинические данные, производилась соматометрия, а также лучевые инструментальные исследования (рентгенография, компьютерная томография с 3-D реконструкцией). Отдельно отмечались и описывались клинические признаки имеющейся соединительно-тканной дисплазии у данной группы детей. Для проведения сравнительного анализа была определена основная группа, куда были отнесены дети с двумя и более обращениями по поводу острой кривошеи без прямой травмы в анамнезе ($n = 124$ – рецидивирующая форма) и группа сравнения ($n = 103$), где были дети с впервые возникшим состоянием острой кривошеи без прямой травмы в анамнезе.

В исследовании также использованы соматометрические данные 186 детей, из них 96 мальчиков и 90 девочек. Это категория детей, которые относились к возрастным группам от 6 до 13 лет и подлежали статистической обработке. Производился расчет средних и относительных статистических величин; проверка выборок на нормальность распределения количественных переменных с использованием критерия Колмогорова – Смирнова; определение достоверности различий средних и относительных величин в исследуемых группах проведена с помощью критерия Стьюдента (t); при проверке равенства дисперсий использован тест Ливиня.

РЕЗУЛЬТАТЫ ИССЛЕДОВАНИЯ И ИХ ОБСУЖДЕНИЕ

Оценка скелетных признаков НДСТ у детей в основной и контрольной группе показала, что по шкале Бейтона в основной группе детей с физиологическим вариантом нормы движений суставов было меньшинство – 22 ребенка, с умеренной гипермобильностью – 47 человек, а большинство (55) составляли дети с выраженной гипермобильностью суставов. В группе сравнения абсолютное большинство составляли дети с физиологическим вариантом нормы движений в суставах (табл. 1).

Таблица 1

Оценка гипермобильности детей по шкале Бейтона

Группа	Физиологический объем движений	Умеренная гипермобильность	Выраженная гипермобильность
Основная ($n = 124$)	22	47	55
Сравнения ($n = 103$)	43	25	35
Общее количество	65	72	90

Результаты обследования показали преобладание в основной группе детей с выраженной гипермобильностью, что создает предпосылки к повторным вывихам.

Анализ показал, что в основной группе дети намного чаще (21 %) были отнесены к категории часто болеющих детей (ЧБД), находились под наблюдением офтальмолога (17 %), невролога (21 %) и ортопеда (27 %). Родителями указывались такие сопутствующие заболевания, как затяжной бронхит (у 6 – с астмоидным компонентом), атопический дерматит,

миопия, вегетососудистая дистония, сколиоз, кифоз, плоско-вальгусные стопы. Клинический диагноз недифференцированная системная дисплазия соединительной ткани был выставлен педиатром в 62 % случаев детей основной и в 36 % случаев в группе сравнения.

Среди детей основной группы был достоверно больше удельный вес таких сопутствующих заболеваний, как деформации позвоночника, плоско-вальгусные стопы, атопический дерматит и миопия. Различия в сравниваемых группах по затяжному бронхиту было статистически не значимым (табл. 2).

Таблица 2

Достоверность различий (t) распределения сопутствующих заболеваний по группам исследования

Группа	Деформации позвоночника	Плоско-вальгусные стопы	Атопический дерматит	Миопия	Затяжной бронхит
Основная, %	57,1	68,7	75,2	74,6	75,3
Сравнения, %	42,9	31,3	24,8	25,4	24,7
Критерий Стьюдента (t)	4,5	9,3	5,5	8,9	0,5

Для изучения особенностей физического развития были проведены соматометрические исследования.

Средний рост по данным, полученным в стационаре при поступлении ребенка в основную группу, высчитывался у детей в возрасте от 6 до 13 лет, как наиболее значимой группе ($n = 102$), и составил ($145,9 \pm 0,3$) см, вес – ($34,00 \pm 0,42$) кг. В то время как в группе сравнения ($n = 84$) – ($140,2 \pm 0,4$) см и ($37,60 \pm 0,62$) кг, что достоверно свидетельствовало о пониженном уровне физического развития детей с рецидивами кривошеи ($t = 8,2$; $t = 2,5$).

Окружность грудной клетки, а также окружность запястья у детей в обеих группах измерялись сантиметровой лентой при поступлении. Их анализ свидетельствует о статистически значимом преобладании астеничного телосложения среди детей с рецидивами кривошеи (табл. 3).

Статистической обработке были подвергнуты соматометрические показатели 186 детей в возрасте от 6 до 13 лет, у части которых имелись рецидивы заболевания (основная группа – 102 человека), тогда как у остальных рецидивов не было (группа сравнения – 84 человека).

В качестве данных приняты рост, вес, окружность груди и окружность запястья. При сравнении средних значений для двух независимых выборок, составленных из показателей основной группы и группы сравнения, подтвержден вывод, полученный при визуальном осмотре и соматометрическом обследовании пациентов при приеме в стационар с диагнозом кривошеи: рецидивы присущи детям с высоким ростом, низким весом, меньшей окружностью груди и меньшей окружностью запястья.

Таблица 3

Средние значения соматометрических показателей у детей с острой и рецидивирующей кривошеей

Показатель	Основная группа				Группа сравнения			
	кол-во детей	мин.	макс.	среднее значение	кол-во детей	мин.	макс.	среднее значение
Рост, см	102	133,6	162,4	145,9	84	122,4	147,4	140,2
Вес, кг	102	28,0	41,0	34,0	84	24,6	42,9	37,6
Окружность груди, см	102	53,0	63,0	58,6	84	57,0	66,0	63,8
Окружность запястья, см	102	10,5	12,0	11,2	84	11,0	12,5	12,1
N валидных (по списку)	102	–	–	–	84	–	–	–

Таким образом, по совокупности клинических признаков, тестов и результатов соматометрии выявлено преобладание детей с признаками системной дисплазии соединительной ткани в группе пациентов с рецидивами кривошеи.

С целью подтверждения выявленной закономерности соматометрические данные, полученные при первичном обследовании детей в возрасте 6–13 лет при их поступлении в стационар, обработаны в специальных программах для статистической обработки данных IBMSPSSStatistics.Version 22.

Исходными статистическими гипотезами исследования стали:

Гипотеза H0: в соматометрических показателях детей, имеющих рецидивы, и детей, не имеющих рецидивы, достоверных различий не существует.

Гипотеза H1: в соматометрических показателях детей, имеющих рецидивы, и детей, не имеющих рецидивы, достоверные различия существуют.

Из собранных данных составлены две выборки, в качестве группировочного признака принято наличие/отсутствие рецидива: 0 – рецидива не было ($n = 84$), 1 – рецидив был ($n = 102$).

Проведена проверка обеих выборок на нормальность распределения следующих количественных переменных:

X1_3 – рост участников первой группы;

X1_4 – вес участников первой группы;

X1_5 – окружность груди участников первой группы;

X1_6 – окружность запястья участников первой группы;

X2_3 – рост участников второй группы;

X2_4 – вес участников второй группы;

X2_5 – окружность груди участников второй группы;

X2_6 – окружность запястья участников второй группы.

В качестве нулевой гипотезы принято нормальное распределение количественной переменной. Проверка нормальности распределения количественных переменных осуществлена с помощью критерия Колмогорова – Смирнова, так как в каждой из обеих групп число респондентов больше 50 (табл. 4).

Таблица 4

Результаты проверки выборок исследования на нормальность

Переменные	Значение z критерия	Уровень значимости (двусторонняя гипотеза)
X1_3	1,137	0,151
X1_4	1,207	0,109
X1_5	1,107	1,172
X1_6	1,605	0,012
X2_3	0,811	0,526
X2_4	0,943	0,336
X2_5	0,864	0,445
X2_6	1,014	0,255

Данные табл. 4 подтверждают гипотезу о нормальном распределении используемых в исследовании количественных признаков. Для проверки гипотез H_0 и H_1 при условии, что распределение количественных признаков не отличается от нормального, использован критерий Стьюдента для независимых выборок. В качестве критического уровня значимости принимаем $p = 0,05$. При проверке равенства дисперсий использован тест Ливиня.

Из табл. 5 следует, что при сравнении средних значений для двух независимых выборок подтвержден

вывод, полученный при визуальном осмотре и соматометрическом обследовании пациентов при приеме в стационар с диагнозом кривошеи: рецидивы присущи детям с высоким ростом, низким весом, меньшей окружностью груди и меньшей окружностью запястья. При этом вес и окружность груди являются наиболее значимыми факторами в прогнозе рецидива кривошеи у детей, тогда как рост ребенка оказывает менее выраженное влияние. Еще менее значимой переменной является объем запястья.

Таблица 5

Результаты расчета критерия Стьюдента для независимых выборок

Переменные	Средние значения		Критерий равенства дисперсий Ливиня		Критерий равенства средних значений в двух выборках Стьюдента	
	для первой группы	для второй группы	F	значимость	t	значимость
Рост	140,18	145,88	26,6	0,00***	-6,483	0,000***
Вес	37,56	33,96	6,652	0,011*	7,769	0,000***
Окружность бюста	63,78	56,79	9,928	0,002**	21,849	0,000**
Окружность запястья	12,08	11,17	0,291	0,590	15,810	0,000***

*Уровень значимости 0,05; **0,01; ***0,005.

Примечание. Показатели уровня значимости критерия Ливиня по весу пациентов, а также показатели уровня значимости критерия Стьюдента ниже стандартных уровней степени доверия к сделанным выводам, поэтому указаны нулевые значения.

ЗАКЛЮЧЕНИЕ

По результатам наших наблюдений можно заключить, что рецидивирующая кривошея у детей является часто встречающимся клиническим признаком скелетной формы соединительнотканной дисплазии у детей. Результаты обследования показали преобладание в основной группе детей астенического телосложения с выраженной гипермобильностью, что может являться объяснением готовности скелета к повторным вывихам. Среди детей основной группы был достоверно больше удельный вес таких

сопутствующих заболеваний, как деформации позвоночника, плоско-вальгусные стопы, атопический дерматит и миопия.

СПИСОК ИСТОЧНИКОВ

1. Аминова И.Р., Афанасьева Н.В. Диагноз «Системная дисплазия соединительной ткани» в повседневной практике врача // Материалы X юбилейного всероссийского съезда травматологов-ортопедов (г. Москва, 16-19 сентября 2014 г.) / под ред. С.П. Миронова. М.: Центральный институт травматологии и ортопедии им. Н. Н. Приорова, 2014. С. 487.

2. Сизикова А.Е. Методология диагностики дисплазии соединительной ткани // Материалы X юбилейного всероссийского съезда травматологов-ортопедов (г. Москва, 16–19 сентября 2014 г.) / под ред. С.П. Миронова. М.: Центральный институт травматологии и ортопедии им. Н. Н. Приорова, 2014. С. 479.

3. Тябут Т.Д., Каратыш О.М. Недифференцированная дисплазия соединительной ткани // Современная ревматология. 2009. № 2.

4. Шестакова О.В. Бесплодие в супружеских парах при НДСТ: дис. ... канд. мед. наук. М., 2018. 157 с.

5. Ситкалиева Ф.С. Клинико-лабораторные особенности патогенеза ротационного подвывиха атланта у детей: автореф. дис. ... канд. мед. наук. Самара, 2013. 24 с.

REFERENCES

1. Aminova I.R., Afanas'eva N.V. The diagnosis of "Systemic connective tissue dysplasia" in the daily practice of a doctor. *Materialy KH yubileynogo vserossiyskogo syezda travmatologov-ortopedov (Moskva, 16–19 sentyabrya 2014) = Materials of the X Anniversary All-Russian Congress of Orthopedic Traumatologists (Moscow, September 16–19, 2014)*. S.P. Mironov (Ed.). Moscow: N. N. Priorov Central Institute of Traumatology and Orthopedics, 2014:487. (In Russ.).

2. Sizikova A.E. Methodology for the diagnosis of connective tissue dysplasia. *Materialy KH yubileynogo vserossiyskogo syezda travmatologov-ortopedov (Moskva, 16–19 sentyabrya 2014) = Materials of the X Anniversary All-Russian Congress of Orthopedic Traumatologists (Moscow, September 16–19, 2014)*. S.P. Mironov (Ed.). Moscow: N. N. Priorov Central Institute of Traumatology and Orthopedics, 2014:479. (In Russ.).

3. Tyabut T.D., Karatysh O.M. Undifferentiated connective tissue dysplasia. *Sovremennaya revmatologiya = Modern rheumatology*. 2009;2. (In Russ.).

4. Shestakova O.V. Infertility in couples with UCTD: dissertation of a candidate of medical sciences. Moscow, 2018. 157 p. (In Russ.).

5. Sitkalieva F.S. Clinical and laboratory features of the pathogenesis of rotational subluxation of the atlas in children: abstract of the dissertation candidate of medical sciences. Samara, 2013. 24 p. (In Russ.).

Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов.

Информация об авторах

Андрей Михайлович Куркин – заведующий отделением травматологии и ортопедии, Областная детская клиническая больница имени Н.Н. Силищевой, Астрахань, Россия, kurkin_odkb@mail.ru

Людмила Анатольевна Гончарова – доктор медицинских наук, профессор кафедры детской хирургии, Астраханский государственный медицинский университет, Астрахань, Россия;

Валерия Александровна Крошкина – врач – травматолог-ортопед, Клиника «Медси 2», Одинцово, Россия, kroshkinav@gmail.com

Алексей Александрович Жидовинов – доктор медицинских наук, профессор, заведующий кафедрой детской хирургии, Астраханский государственный медицинский университет, Астрахань, Россия; zhidovinov.aleksey2014@yandex.ru

Валерий Викторович Шмелев – кандидат медицинских наук, врач ЛФК, Реабилитационно-образовательный центр № 76, Москва, Россия, valera-glava@yandex.ru

Наталья Петровна Проватар – аспирант кафедры неонатологии, Астраханский государственный медицинский университет, Астрахань, Россия; provatarnatalia@gmail.com

Статья поступила в редакцию 03.12.2021; одобрена после рецензирования 16.02.2022; принята к публикации 23.02.2022.

The authors declare no conflicts of interests.

Information about the authors

Andrey M. Kurkin – Head of the Department of Traumatology and Orthopedics, N.N. Silishcheva Regional Children's Clinical Hospital, Astrakhan, Russia, kurkin_odkb@mail.ru

Lyudmila A. Goncharova – Doctor of Medical Sciences, Professor of the Department of Pediatric Surgery, Astrakhan State Medical University, Astrakhan, Russia;

Valeria A. Kroshkina – Orthopedic Traumatologist, Medsi Clinic 2, Odintsovo, Russia, kroshkinav@gmail.com

Alexey A. Zhidovinov – Doctor of Medical Sciences, Professor, Head of the Department of Pediatric Surgery, Astrakhan State Medical University, Astrakhan, Russia, zhidovinov.aleksey2014@yandex.ru

Valery V. Shmelev – Candidate of Medical Sciences, doctor of physical therapy, Rehabilitation and Educational Center No. 76, Moscow, Russia, valera-glava@yandex.ru

Natalia P. Provatar – Postgraduate Student of the Department of Neonatology, Astrakhan State Medical University, Astrakhan, Russia; provatarnatalia@gmail.com

The article was submitted 03.12.2021; approved after reviewing 16.02.2022; accepted for publication 23.02.2022.