

DOI 10.56618/2071-2693_2023_15_1_95



ЭНДОСКОПИЧЕСКАЯ КОРРЕКЦИЯ ПРИ ТРИГОНОЦЕФАЛИИ: СОВРЕМЕННОЕ СОСТОЯНИЕ ПРОБЛЕМЫ И АНАЛИЗ СОБСТВЕННЫХ РЕЗУЛЬТАТОВ ЛЕЧЕНИЯ

Л. А. Сатанин¹, А. А. Евтеев², А. Л. Иванов³, А. В. Сахаров¹, Н. И. Головин¹,
Х. Ш. Шамхалов¹, В. А. Тере¹, В. Г. Солониченко⁴, В. В. Рогинский³

¹ ФГАУ «НМИЦ нейрохирургии им. ак. Н. Н. Бурденко» Минздрава России,
ул. 4-я Тверская-Ямская 16, Москва, Российская Федерация, 125047

² МГУ имени М. В. Ломоносова, НИИ и Музей антропологии,
ул. Моховая, д. 11, Москва, Российская Федерация, 125009

³ ФГБУ НМИЦ «ЦНИИС и ЧЛХ» Минздрава России,
ул. Тимура Фрунзе 16, Москва, Российская Федерация, 119021

⁴ ГБУЗ «Детская городская клиническая больница им. Н. Ф. Филатова ДЗМ»,
Москва, ул. Садовая-Кудринская, 15, 103001

РЕЗЮМЕ. Тригоноцефалия (ТЦ) является частой формой краниосиностозов (10 %). Хирургическое лечение пациентов с ТЦ традиционно проводится в объеме двусторонней фронто-орбитальной реконструкции. Эндоскопическая сатурэктомия (ЭСЭ) при ТЦ стала эффективной, безопасной альтернативой открытым реконструктивным операциям. Выбор между традиционной реконструктивной хирургией или эндоскопическим вмешательством должен проводиться с полным раскрытием особенностей вариантов лечения, поэтому требуется дополнительное изучение преимуществ и недостатков ЭСЭ.

ЦЕЛЬ данного ретроспективного исследования — проанализировать результаты с использованием ЭСЭ в сочетании с терапией краниальными ортезами (ТКО).

МАТЕРИАЛ И МЕТОДЫ. Проведен анализ результатов лечения 22 пациентов с ТЦ (13 (59 %) мальчиков и 9 (41 %) девочек), выполненного в возрасте $3,09 \pm 0,81$ мес. Изучена клиническая картина до и после лечения, цефалометрическое исследование для оценки морфологического результата, а также оценка эстетического результата с помощью визуальных аналоговых шкал (ВАШ) и опросников родителей пациентов.

РЕЗУЛЬТАТЫ: гемотрансфузия проведена в 7 (31,8 %) набл. Продолжительность операции составила $35,91 \pm 8,82$ мин. Объем кровопотери — $40 \pm 32,66$ мл. Длительность ТКО составила $8,43 \pm 3,74$ мес. Повторные оперативные вмешательства были выполнены в 3-х набл. Выявлено достоверное увеличение фронтального угла. Соотношение интерфронтального и интерпариетальных диаметров было меньше нормальных значений, как до, так и после лечения. Анализ деформации по данным ВАШ и 10-ти бальной шкале выявил достоверные отличия формы головы пациентов до и после лечения.

ЗАКЛЮЧЕНИЕ. Эндоскопическая сатурэктомия при ТЦ, выполненная в оптимальные сроки, в адекватном объеме и сопровождаемая оптимальной ТКО, позволяет достичь в большинстве наблюдений хороших и удовлетворительных функциональных и эстетических результатов. Морфологические результаты лечения достоверно отличаются от дооперационных, но также отличаются от параметров здоровых детей. Результаты лечения является отсроченными и могут быть достигнуты при правильном соблюдении протокола лечения родителями пациента и лечащими врачами. Значимыми преимуществами метода являются отсутствие протяженного послеоперационного рубца, относительно легкое течение послеоперационного периода, относительная низкая вероятность кровопотери и необходимой гемотрансфузии, возможность сокращения периода стационарного лечения пациента, низкая частота нежелательных последствий и осложнений.

КЛЮЧЕВЫЕ СЛОВА: краниосиностоз, тригоноцефалия, эндоскопия, краниальный ортез

Для цитирования: Сатанин Л. А., Евтеев А. А., Иванов А. Л., Сахаров А. В., Головин Н. И., Шамхалов Х. Ш., Тере В. А., Солониченко В. Г., Рогинский В. В. Эндоскопическая коррекция при тригоноцефалии: современное состояние проблемы и анализ собственных результатов лечения. Российский нейрохирургический журнал им. проф. А. Л. Поленова. . 2023;15(1):95–105. DOI 10.56618/2071-2693_2023_15_1_95

**ENDOSCOPIC CORRECTION FOR TRIGONOCEPHALY:
CURRENT STATE OF THE PROBLEM AND ANALYSIS OF OWN TREATMENT RESULTS**

L.A. Satanin¹, A.A. Evteev², A.L. Ivanov³, A.V. Sakharov¹, N.I. Golovin¹,
H. Sh. Shamkhalov¹, V.A. Tere¹, V.G. Solonichenko⁴, V.V. Roginsky³

¹ National Medical Research Center for Neurosurgery named after Academician N.N. Burdenko,
4th Tverskaya-Yamskaya st. 16, Moscow, Russian Federation, 125047

² Lomonosov Moscow State University, Research Institute and Museum of Anthropology,
Mokhovaya st., 11, Moscow, Russian Federation, 125009

³ Central Research Institute of Dental and Maxillofacial Surgery, Timur Frunze str. 16, Moscow, Russian Federation, 119021

⁴ State Budgetary Public Health Institution N.F. Filatov Children's City Hospital of Moscow Healthcare Ministry
15 Sadovaya-Kudrinskaya str., Moscow, 103001

SUMMARY. Trigenocephaly (TC) is a common form of craniosynostosis (10 %). Surgical treatment of patients with TC is traditionally performed by bilateral frontoorbital reconstruction. Minimally invasive endoscopic (ESE) correction in TC has become an effective, safe alternative to open reconstructive surgery. The choice between traditional reconstructive surgery and endoscopic should be carried out with full disclosure of the features of treatment options, therefore, additional study of the advantages and disadvantages of ESE is required.

PURPOSE of this retrospective study is to analyze the results using ESE in combination with cranial orthosis therapy (COT).

MATERIAL AND METHODS. The results of treatment of 22 patients with TC (13 (59 %) boys and 9 (41 %) girls) aged 3.09±0.81 months were analyzed. The study of the clinical status before and after treatment, cephalometric examination to assess the morphological result, as well as the evaluation of the aesthetic result using visual analog scales (VAS) and questionnaires of the parents of patients.

RESULTS. Hemotransfusion was performed in 7 (31.8 %) cases. The duration of surgery was 35.91±8.82 min. The volume of blood loss was 40±32.66 ml. The duration of COT was 8.43±3.74 months. Repeated surgical interventions were performed in 3 cases. A significant increase in the frontal angle was revealed. The ratio of the interfrontal and interparietal diameters was less than normal values, both before and after treatment. The analysis of deformity according to the VAS and 10-point scale revealed significant differences in the shape of the patients' heads before and after treatment.

CONCLUSION. Endoscopic suturectomy at TC, performed at the optimal time, in an adequate volume and accompanied by optimal COT, allows achieving good and satisfactory functional and aesthetic results in most cases. The immediate morphological results of treatment significantly differ from the preoperative ones, but also differ from the parameters of healthy children. The result of treatment is delayed and can be achieved with proper adherence to the treatment protocol by the patient's parents and attending physicians. The significant advantages of the method are the absence of an extended postoperative scar, the relatively mild course of the postoperative period, the relatively low probability of blood loss and necessary hemotransfusion, the possibility of shortening the period of inpatient treatment of the patient, the low frequency of undesirable consequences and complications.

KEY WORDS: craniosynostosis, trigonocephaly, endoscopy, cranial orthosis

For citation: Satanin L.A., Evteev A.A., Ivanov A.L., Sakharov A.V., Golovin N.I., Shamkhalov H. Sh., Tere V.A., Solonichenko V.G., Roginsky V.V. Endoscopic correction for trigonocephaly: current state of the problem and analysis of own treatment results. Rossiiskii neirokhirurgicheskii zhurnal imeni professora A.L. Polenova. 2023;15(1):95–105. DOI 10.56618/2071–2693_2023_15_1_95

Список сокращений:

ВАШ Визуальная аналоговая шкала

КС Краниосиностоз

ПЧЯ Передняя черепная ямка

ТКО Терапия краниальными ортезами

ТЦ Тригоноцефалия

ЭСЭ Эндоскопическая сатурэктомия

Введение. Частота встречаемости изолированных несиндромальных краниосиностозов (КС) у новорожденных составляет 0,6 на 1000, при этом от 4 % до 10 % из них составляет метопический синостоз [1, 2]. Пренатальный синостоз метопического шва приводит к развитию деформации черепа — тригоноцефалии (ТЦ), которая проявляется в виде костного гребня в проекции лобного шва, килевидной деформации лобной кости, уменьшенного битемпо-

рального расстояния и орбитального гипотелоризма [3]. Вследствие этого может развиваться задержка роста внутричерепного объема передних отделов черепа, что требует проведения раннего оперативного вмешательства для обеспечения нормального роста головного мозга; лечение проводится не только по косметическим причинам. Метопический синостоз может быть ассоциирован с аномалиями развития нервной системы при ряде наследственных и синдромальных заболеваний [4]. Описаны механизмы компенсаторного роста черепа при КС, однако этиология заболевания остается неизвестной [5]. Сообщалось о корреляции между табакокурением матери и повышенным риском КС [6]. Описано развитие ТЦ на фоне вальвроатного синдрома плода [7]. Хотя в большинстве случаев метопический синостоз является несиндромальным, синдромальные формы

составляют 10–20 % наблюдений, а когнитивные и поведенческие нарушения выявляются у 30 % пациентов с ТЦ [8, 9].

Хирургическое лечение пациентов с ТЦ традиционно проводится на втором полугодии жизни в объеме двусторонней фронто-орбитальной реконструкции [10]. Минимально инвазивная эндоскопическая коррекция метопического КС в последнее десятилетие стала потенциально эффективной, безопасной и эстетически приемлемой альтернативой открытым реконструктивным операциям [11, 12]. Соответственно появилась возможность выбора метода лечения при ТЦ с учетом индивидуальных особенностей для удовлетворения индивидуальных потребностей каждого пациента [13]. Выбор между традиционной реконструктивной хирургией или эндоскопическим вмешательством должен проводиться с полным раскрытием особенностей вариантов лечения. В нашем центре выбор метода лечения проводился родителями пациентов после подробного информирования о методах лечения, основанных на данных литературных источников и собственном опыте. Выбор подтверждался заполнением информированного согласия.

Цель данного ретроспективного исследования — проанализировать результаты с использованием эндоскопического метода лечения в сочетании с терапией краниальными ортезами (ТКО) с использованием современных методов анализа.

Материал и методы

Критериями включения в исследование были наличие диагноза «тригоноцефалия» у пациентов, которым проводилась эндоскопическая сутурэктомия (ЭСЭ) с последующей ТКО. Перечисленным критериям соответствовало 22 пациента с ТЦ (13 (59 %) мальчиков и 9 (41 %) девочек), проходивших лечение в период с 2013 по 2021 г в ФГАУ «НМИЦ нейрохирургии им. ак. Н. Н. Бурденко» МЗ. Из них в 21 набл. был поставлен диагноз несиндромальная тригоноцефалия. В одном набл. выявлен синдром Симпсона-Голаби-Бемель. Проведен тщательный анализ историй болезни с изучением эпидемиологических характеристик, данных неврологического, нейроофтальмологического статусов, рентгенологических исследований (КТ), результатов фотограмметрических исследований, протоколов операций и анестезиологических карт, а также данных амбулаторных исследований в процессе ТКО.

Перед хирургическим лечением в 22 набл. проводилось КТ исследование у пациентов в возрасте $1,88 \pm 1,08$ (0,23–3,93) мес, контрольное КТ, выполненное в 11 набл. (50 %) в возрасте $13,72 \pm 4,59$ (7,83–21,9) мес.

Для сравнительной оценки морфологического результата были сформированы две контрольные группы, которые по полу и возрасту статистически достоверно соответствовали исследуемым (табл. 1). Эти контрольные группы были уже ранее использованы в других исследованиях [14], и они представлены данными КТ исследований здоровых детей, которым проводились исследования в случаях легкой ЧМТ.

Анализ изменений мягких тканей на основании фотограмметрии и КТ исследований проводился по описанной ранее методике [15]. Горизонтальная плоскость определялась, как плоскость между точками над двумя козелками и точкой назион. Основные измерения проводились в плоскости, расположенной на одной трети высоты головы от горизонтальной плоскости. В этой плоскости вычислялся межтеменной диаметр (между точками D и E). На середине расстояния между наиболее передней точкой A в этой плоскости и середине расстояния DE при помощи плоскости, параллельной фронтальной плоскости, определялись точки C и B. Расстояние между ними соответствовало интерфронтальному диаметру. Вычислялось частное CB и DE — соотношение интерфронтального и интерпариетального диаметров, которое характеризовало выраженность деформации лобной кости. Угол между точками C, A, B — фронтальный угол, также определял степень деформации лобной области. Дополнительно по ряду точек проводилось вычисление параметров: назофронтальный угол, эндоканальное расстояние, экзоканальное расстояние, высота головы, длина передней черепной ямки (ПЧЯ) (рис. 1а). Назофронтальный угол измеряли как глабелла-назион-проназаль (Gla-N-Prn) в сагиттальной плоскости [15, 16] (рис. 1а).

Сравнение результатов измерений отдельных размеров головы со значениями нормы проводилось путем вычисления SDS, как частного разности значения параметра и среднего значения нормы со стандартным отклонением (SD) в контрольной группе нормы.

Таблица 1. Эпидемиологические характеристики изучаемых групп.

Table 1. Epidemiological characteristics of the studied groups.

	ТЦ до лечения		Контрольная группа 1		ТЦ после лечения		Контрольная группа 2	
	Мальч.	Дев.	Мальч.	Дев.	Мальч.	Дев.	Мальч.	Дев.
Количество	13	9	15	10	13	9	15	10
Возраст (мес)	$1,81 \pm 1,14$		$1,63 \pm 0,75$		$11,29 \pm 4,18$		$10,61 \pm 0,93$	

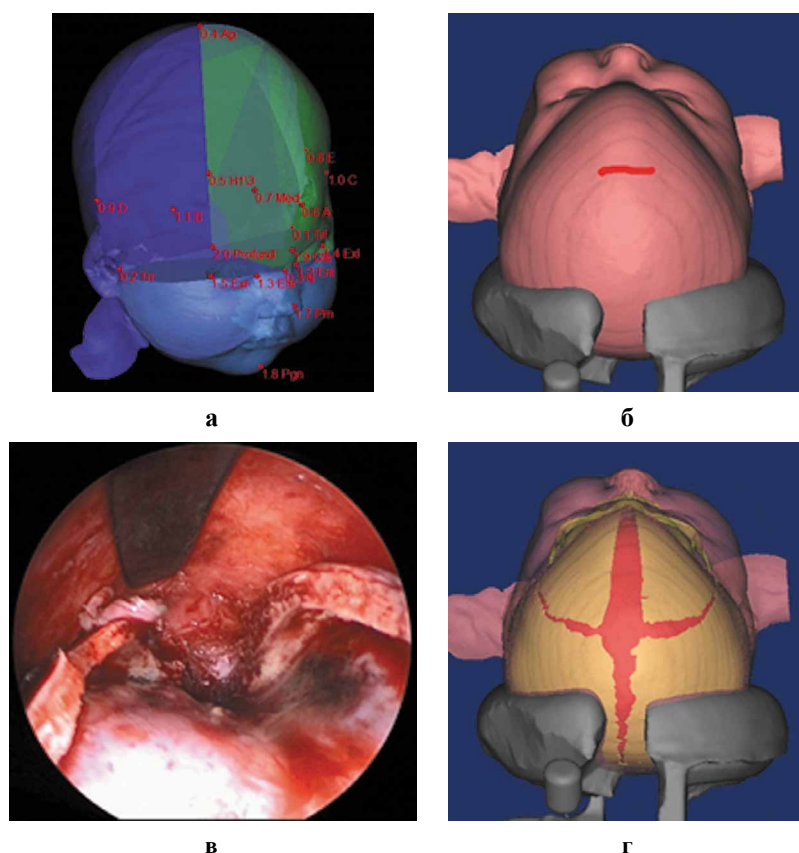


Рисунок 1. а — цефалометрические точки, использованные в работе; б, в, г — этапы хирургического лечения.
Figure 1. а — cephalometric points used in the study; б, в, г — stages of surgical treatment.

Оценка эстетического результата лечения проводилась с использованием визуальных аналоговых шкал (ВАШ) — метода который наиболее активно используется в современных исследованиях [17]. Для наиболее объективного исследования для анализа привлечено 8 независимых исследователей. Исследование проводилось слепым методом — предложено провести оценку внешности как пациентов до и после лечения (22 набл.), так и контрольной группы здоровых детей (20 набл.), которые были представлены экспертам в случайном порядке. При этом каждое наблюдение было представлено в виде стандартизированных 3D изображений мягких тканей, полученных по данным КТ исследования (пациенты и группа здоровых детей) и фотограмметрии (пациенты после лечения). Каждое наблюдение было представлено четырьмя изображениями: прямой проекцией, вид сверху, вид снизу, вид сбоку. Такой метод позволял объективно судить о форме головы, т.к. 3D изображения не отображали причёску и т.п. В дальнейшем полученные данные были оцифрованы и изучались средние значения ВАШ, как для групп пациентов до и после лечения, так и для контрольной группы.

Для оценки результатов лечения родителями пациентов проведен катamnестический опрос матерей, по анкетам, включавшим как набор вопросов, так и оценку по 10–ти бальной шкале ряда параметров (степень деформации головы до и после лечения, степень удовлетворенности лечением и т.п.). Для боль-

шей объективности исследования, опрос проводился ординатором, который не имел отношения к лечебному процессу изучаемой группы.

В дальнейшем полученные результаты были обработаны в программе Statistica 7.0 с использованием непараметрических методов анализа — Манна-Уитни и корреляционного анализа Пирсона. Дополнительно для комплексной оценки изменений формы головы и лица по итогам проведенного лечения, использовался анализ главных компонент (ГК), проводившийся на основе корреляционной матрицы по 12 признакам.

Результаты

Эндоскопическая сутурэктомия (ЭСЭ) была выполнена по ранее известной методике [18] у пациентов в возрасте $3,09 \pm 0,81$ (1,93–4,9) мес (рис. 1 б-г). В неврологическом статусе до лечения ни у одного из пациентов не отмечалось признаков внутричерепной гипертензии, не отмечалось очаговой неврологической симптоматики, не было выявлено задержки психо-моторного развития. Вес пациентов на момент лечения составил $6031,28 \pm 879,71$ (4925–7800) г. Гемотрансфузия была проведена в 7 (31,8 %) набл. Продолжительность операции составила $35,91 \pm 8,82$ (25–60) мин. Объем интраоперационной кровопотери — $40 \pm 32,66$ (15–150) мл.

В дальнейшем, в течение ТКО, было использовано от 1 до 4 краниальных ортезов, которые использовались от 3 до 23 час в сутки. Пациенты, которые ис-

пользовали краниальные ортезы менее 20 час в сутки и у которых длительность терапии шлемами была менее 6 мес отнесены в группу с некорректно проведенной шлемотерапией, которая составила 7 (31,8 %) наблюдений. Длительность ТКО составила $8,43 \pm 3,74$ (2,5–14) мес.

Повторные оперативные вмешательства были выполнены в 3-х наблюдениях (13,6 %): в 2-х набл. вследствие персистирования послеоперационного костного дефекта и остаточной деформации, и в одном вследствие неудовлетворенности родителями полученным результатом. При оценке катамнестических данных, в группе исследованных пациентов, как и до лечения, не отмечалось признаков внутричерепной гипертензии, не было признаков задержки психомоторного развития.

Результаты цефалометрии

В результате сравнения цефалометрических параметров до и после лечения, выявлено увеличение

фронтального угла, отражающего степень деформации лобной кости, который был достоверно меньше нормальных значений и недостоверно отличим после лечения (табл. 2). Выявлено достоверное различие SDS фронтального угла от нормы до и после лечения в виде уменьшения степени этого отличия, т.е. этот параметр стал ближе к нормальным значениям (рис. 2б). В то же время соотношение интерфронтального и интерпариетальных диаметров было меньше нормальных значений, как до, так и после лечения. Расстояние между внутренними углами глаз было сходно с нормой. В то время как после лечения расстояние между наружными углами глаз было достоверно меньше нормальных значений.

Высотный и интерпариетальный диаметры не имели отличий от нормы после лечения. В то же время длина передней черепной ямки, интерфронтальный диаметр и назофронтальный угол были достоверно ниже значений контрольной группы.

Таблица 2. Результаты цефалометрических измерений у пациентов с тригоноцефалией до и после лечения в сравнении с контрольными группами здоровых детей (по данным КТ и фотограмметрии).

Table 2. Results of cephalometric measurements in patients with trigonocephaly before and after treatment in comparison with control groups of healthy children (according to CT and photogrammetry).

	Группа тригоноцефалии до лечения (N-22)	Контрольная группа 1 (N-25)	p	Группа тригоноцефалии после лечения (N-22)	Контрольная группа 2 (N-25)	p
Фронтальный угол (гр)	100,37±2,47	104,91±3,44	<0,01	101,92±2,43	103,31±3,68	0,2
Соотношение интрефронтального и интрепариетального диаметров	0,80±0,04	0,89±0,03	<0,01	0,83±0,04	0,88±0,03	<0,01
Назофронтальный угол (гр)	138,14±6,19	137,34±7,67	0,9	141,57±5,29	136,02±6,76	<0,01
Эндокантальное расстояние (мм)	24,12±2,15	23,87±2,04	0,1	26,69±2,46	27,97±3,62	0,3
Экзокантальное расстояние (мм)	65,89210526 4,848454025	68,5988 5,24337385	0,1	75,51157895 4,147974423	81,83208333 4,588973532	<0,01
Высота головы (мм)	102,8631579 6,811310897	98,3116 7,81971956	0,1	121,8405263 5,563847064	119,3476 6,530136088	0,4
Интерпариетальный диаметр	104,8826316 8,494235851	103,4872 7,30120853	0,7	128,6415789 5,218178975	128,5512 9,638287503	0,9
Интерфронтальный диаметр (мм)	84,14526316 7,94305033	93,0216 7,226077013	<0,01	106,1310526 6,747993854	113,12 8,828629093	0,01
Длина ПЧЯ (мм)	70,99105263 6,111721793	72,5104 5,864198922	0,6	86,17736842 4,83711558	90,5488 5,396999413	0,03

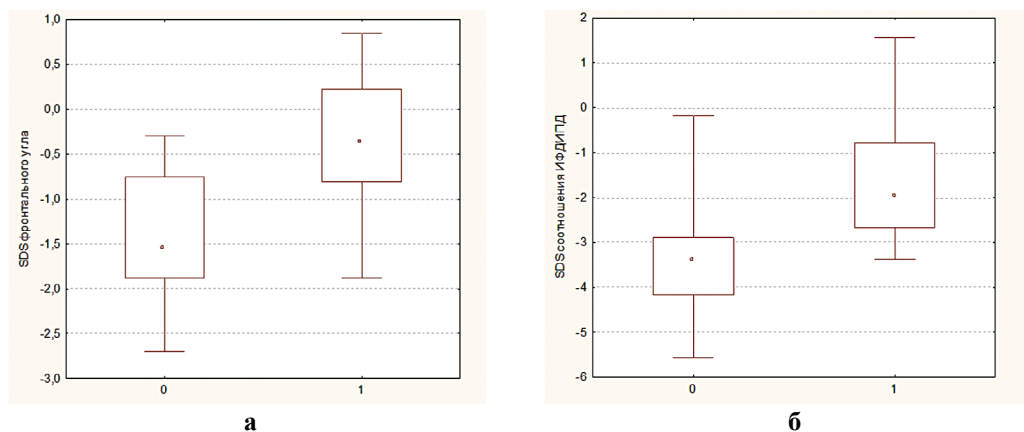


Рисунок 2. а — изменения SDS отличия от возрастной нормы фронтального угла у пациентов до и после лечения ($p < 0,01$), б — изменения SDS отличия от возрастной нормы соотношения интерфронтальный диаметр/интерпариетальный диаметров у пациентов до и после лечения ($p < 0,01$).

Figure 2. a — changes in SDS differences from the normal of the frontal angle in patients before and after treatment ($p < 0.01$), b — changes in SDS differences from the normal of the ratio of interfrontal diameter/interparietal diameters in patients before and after treatment ($p < 0.01$).

Выявлено достоверное различие SDS соотношения интерфронтальный диаметр/интерпариетальный диаметров от нормы до и после лечения в виде уменьшения степени этого отличия (рис. 2б). Однако сохранялись достоверно более низкие значения, чем в норме. Проведенный анализ главных компонент показал, что до операции между пациентами с ТЦ и здоровыми детьми существуют значительные и достоверные ($p < 0,001$) отличия по форме головы и лица, отражающиеся в дифференциации двух групп по значениям ГК2 (ось ординат; ось абсцисс отражает общие ростовые процессы). Следует отметить, что ГК2 описывает почти исключительно изменчивость фронтального угла, который до операции существенно меньше

у детей с ТЦ. После лечения достоверных отличий по ГК2 пациентов от контрольной группы не выявлено, и можно видеть, что две группы становятся практически неотличимы по набору рассматриваемых измерений (рис. 3а). Сопоставление тем же методом отдельно пациентов после операции с соответствующей группой нормы, показало, что между ними сохраняются морфологические отличия, которые, однако, прослеживаются только по ГК2 анализа, которая описывает чуть более 20 % общей изменчивости. Пациентам с ТЦ после операции по сравнению с нормой свойственно сочетание небольших межглазничных расстояний с увеличенным интерпариетальным диаметром и межшной шириной (рис. 3б).

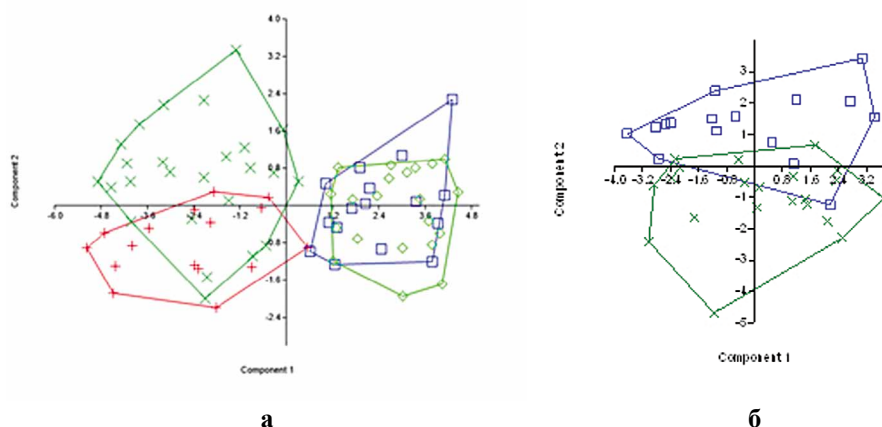


Рисунок 3. а — результаты анализа главных компонент, до и после операции: маркеры зеленого цвета — нормы до и после лечения, красные маркеры — пациенты до лечения, синие — после лечения. Первая компонента (ось X) отражает общие ростовые процессы, ось Y — отличия пациентов от контрольной группы (преимущественно по значениям фронтального угла); б — результаты анализа главных компонент после операции: маркеры зеленого цвета — нормы после лечения, синие маркеры — пациенты после лечения. Первая компонента (ось X) отражает общие размеры головы и лица, ось Y — отличия пациентов от контрольной группы.

Figure 3. a — results of the analysis of the principal components, before and after surgery: green markers — norms before and after treatment, red markers — patients before treatment, blue — after treatment. The first component (X-axis) reflects the general growth processes, the Y-axis — the differences between patients and the control group (mainly by the values of the frontal angle); b — the results of the analysis of the principal components after surgery: green markers — norms after treatment, blue markers — patients after treatment. The first component (X-axis) reflects the overall dimensions of the head and face, the Y-axis — the differences between patients and the control group.

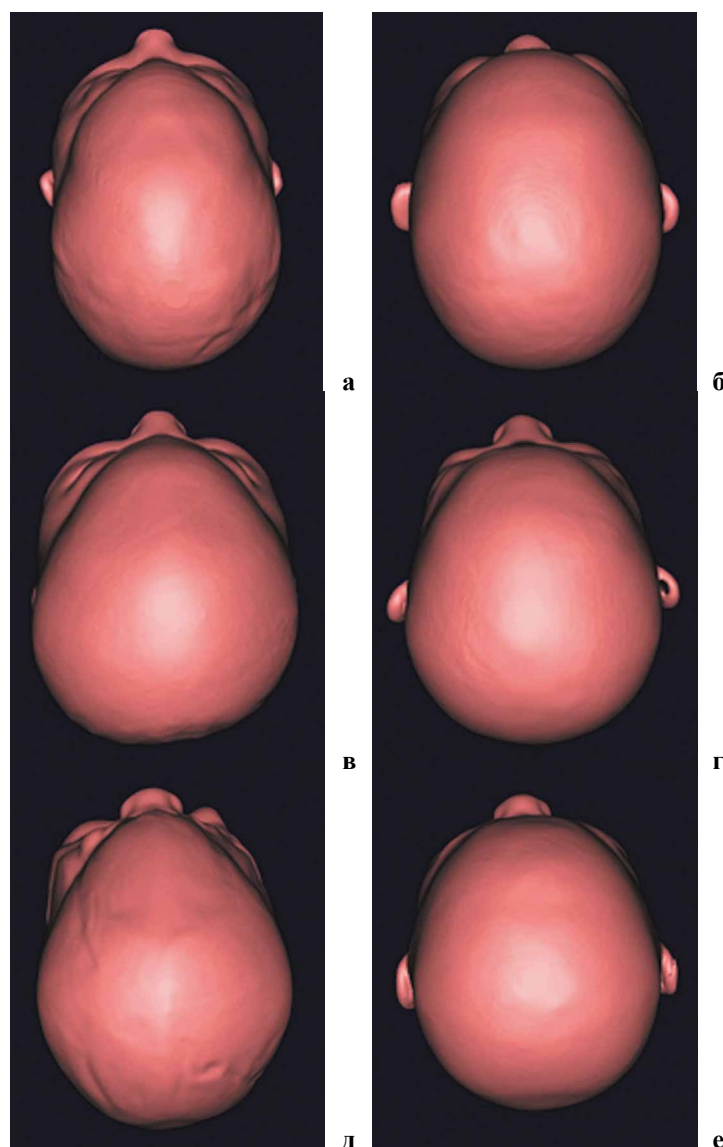


Рисунок 4. Изображения 3D головы пациентов с тригоноцефалией до (а, в, д) и соответственно после лечения (б, г, е).
Figure 4. 3D images of the heads of patients with trigonocephaly before (a, v, d) and, respectively, after treatment (b, d, e).

Результаты оценки эстетических результатов лечения

Анализ деформации по данным ВАШ и 10-ти бальной шкале (табл. 3) выявил достоверные отличия визуального впечатления от формы головы пациентов до и после лечения (рис. 5а). При этом значения по ВАШ у пациентов после хирургического лечения

оказались в два раза меньше, чем в контрольной группе здоровых детей (рис. 5 б, в). При этом положительная динамика в виде уменьшения деформации после лечения была выявлена независимыми экспертами в 100 % наблюдений. Также значительное улучшение было зафиксировано при оценке динамики деформации головы матерями пациентов (табл. 3).

Таблица 3. Результаты анализа эстетического результата по ВАШ независимыми экспертами и родителями пациентов по 10-ти бальной шкале.

Table 3. Results of the analysis of the aesthetic result according to VAS by independent experts and parents of patients on a 10-point scale.

	Группа тригоноцефалии до лечения (N=22)	Группа тригоноцефалии после лечения (N=22)	Контрольная группа нормы (N=25)
Оценка данным ВАШ независимыми экспертами	47,36±17,26	15,94±10,51*	30,73±15,03
Оценка по 10-ти бальной шкале родителями	85±17,76	21,82±2,34*	
* — $p < 0,01$			

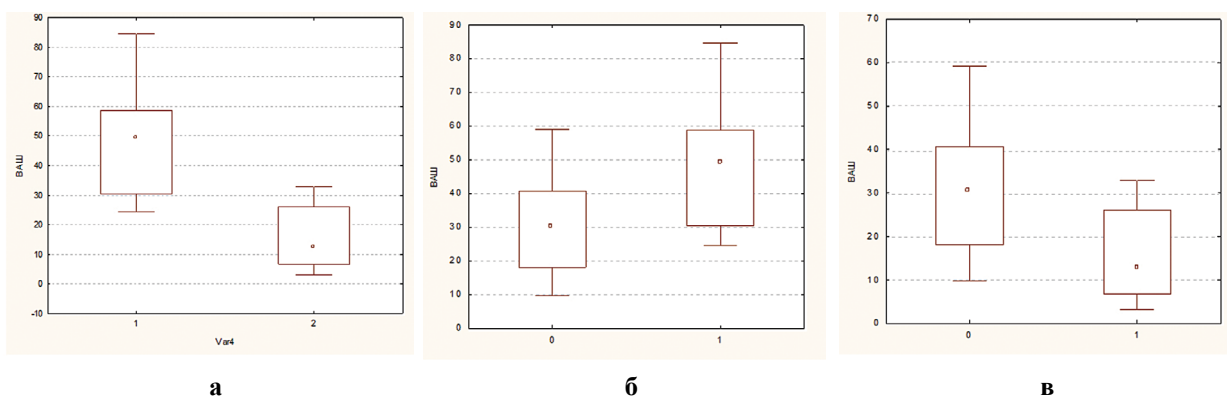


Рисунок 5. а — сравнение средних значений выраженности деформации по ВАШ у пациентов с ТЦ до и после лечения ($p<0,01$); б — сравнение средних значений степени деформации головы по ВАШ контрольной группы здоровых детей и пациентов с ТЦ до лечения ($p<0,01$); в — сравнение средних значений ВАШ нормы и ТЦ после лечения ($p<0,01$).

Figure 5. a — comparison of the average values of the severity of the deformation of VAS in patients with TC before and after treatment ($p<0.01$); b — comparison of the average values of the degree of deformation of the head in VAS control group of healthy children and patients with TC before treatment ($p<0.01$); c — comparison of the average values of VAS norm and TC after treatment ($p<0.01$).

По данным опроса родителей, после лечения за исключением лишь одного случая, эндоскопический метод лечения мог бы быть рекомендован родителям других пациентов (95 %) с данной патологией. Удовлетворенность проведенным лечением была оценена на $8,95\pm 2,59$ баллов по 10-ти бальной шкале (рис. 4).

Изучение прогностических факторов

Выявлено, что в группе пациентов с некорректным использованием краниальных ортезов в 7 (31,8 %) набл. было получено меньшее изменение фронтального угла ($p=0,05$) и выявлены меньшие изменения внешности по ВАШ ($p<0,01$). Не выявлено корреляционных зависимостей между цефалометрическими и другими изучаемыми параметрами, вероятнее всего, связанное с ограниченным количеством наблюдений.

Дискуссия

Метопический синостоз, приводящий к тригоноцефалии, представляет собой выраженный порок развития, который может привести к уменьшению внутричерепного объема и повышению внутричерепного давления [8, 19, 20]. Эстетические проблемы, однако, являются главным показанием к хирургическому лечению [7]. Благодаря достижениям в малоинвазивных хирургических методах и эндоскопических технологиях появилась возможность выбора метода хирургического лечения, с учетом того, что ЭСЭ имеет потенциальные преимущества перед традиционными реконструктивными вмешательствами. Опубликованный клинический опыт подтверждает мнение о том, что эндоскопический подход является важным методом лечения пациентов со скафоцефалией [21]; однако роль ЭСЭ в комбинации с ТКО в лечении пациентов с метопическим синостозом менее очевидна.

Потенциальные преимущества ЭСЭ при ТЦ заключаются в снижении послеоперационного болевого синдрома, уровня кровопотери, уменьшении

объемов гемотрансфузии, уменьшении расходов на лечение, сокращением времени операции и койко-дня [11, 12]. Кровопотеря может быть меньше за счет использования небольшого разреза, а эндоскоп позволяет осуществлять прямую визуализацию, достаточную для безопасного осуществления сутурэктомии. С другой стороны, типичными осложнениями традиционных реконструктивных операций при ТЦ являются: кровотечение, инфекции, необходимость повторных вмешательств [22]. Несмотря на это реконструктивные вмешательства позволяют исправить деформацию непосредственно во время вмешательства, в то время как после ЭСЭ требуется длительное проведение ТКО на срок до 1 года. Однако, этот потенциальный недостаток эндоскопических вмешательств не оказывает влияния на восприятие исхода лечения родителями пациентов [23].

Продолжительность хирургического лечения при ЭСЭ в наших наблюдениях составила в среднем 35 мин, что в 6 раз меньше, чем при реконструктивных операциях [18]. Объем кровопотери был сопоставим с другими сериями наблюдений, с другой стороны, частота гемотрансфузий в наших наблюдениях значительно чаще (31 % против 4,3 % [18]), что может быть объяснено высокой частотой железодефицитной анемии среди наших пациентов.

Хирургическое лечение пациентов с тригоноцефалией методом ЭКЭ оставалось дискуссионным вопросом в первую очередь из-за неоднозначной эффективности метода [24–26]. Однако, в литературе за последние годы отмечалось большое количество публикаций, свидетельствующих об активном росте популярности данной методики и ее эффективности, не уступающей традиционным реконструктивным вмешательствам [18, 27, 28]. В связи с этим данная работа была посвящена оценке результативности лечения пациентов с тригоноцефалией, оперированных с использованием ЭСЭ и ТКО в условиях одного стационара. Помимо стандартных методов обследо-

вания пациентов, включавших оценку неврологического статуса, нейроофтальмологической картины, были использованы методы цефалометрии, а также проведена оценка эстетического результата с использованием ВАШ.

В данном исследовании было достоверно показана морфологическая эффективность эндоскопического вмешательства, подтвержденная при цефалометрическом исследовании. Подтверждено уменьшение степени деформации лобной кости, глазниц. Ряд параметров после лечения был сопоставим с нормой, а некоторые по-прежнему отличались от нормальных значений. Таким образом, ЭСЭ с последующей ТКО позволяет достоверно приблизить морфологию черепа, хотя, как и после традиционных реконструктивных вмешательств, не позволяет достичь показателей нормы.

У пациентов после операции резко увеличивается фронтальный угол, который начинает даже превышать значение нормы, но сохраняется комбинация небольших межглазничных расстояний с увеличенным интерпариетальным диаметром и междушной шириной, увеличенным назофронтальным углом и уменьшенной глубиной ПЧЯ. Эти отличия, однако, никак не сказываются на субъективной оценке результатов операции, и, таким образом, можно предположить, что исправление характерной килевидной формы лобной кости у пациентов с ПЦ делает их внешность «нормальной» в глазах родителей и посторонних наблюдателей.

Изучение эстетических результатов, как при оценке независимыми экспертами, так и родителями пациентов, выявило достоверное впечатление от формы головы после лечения, по данным ВАШ, сопоставимое с нормой. Лишь в 3-х наблюдениях (13 %) потребовалось проведение повторных реконструктивных вмешательств, которые в 2-х набл. были связаны с персистенцией костного дефекта и остаточной деформацией. Необходимо отметить, что повторные операции были проведены в относительно ранние сроки, и не было возможности провести оценку результата лечения в отдаленном анамнезе.

При сравнении эффективности хирургического лечения пациентов с ПЦ с использованием ЭСЭ с традиционными реконструктивными вмешательствами необходимо отметить несколько моментов. Эндоскопические вмешательства можно признать малоэффективными при отсутствии последующей терапии краниальными ортезами. Так в нашем исследовании получены достоверно более низкие морфологические и эстетические результаты у пациентов с некорректно проведенной ТКО. Соответственно, эндоскопические вмешательства следует считать этапом комбинированного лечения в виде сочетания ЭСЭ и ТКО, при отсутствии последней или ее неадекватного проведения, только хирургическое лечение не приводит к желаемому эффекту. Наши наблюдения продемонстрировали, что аккуратное соблюдение принятого протокола лечения, позволяет

получить хороший и удовлетворительный косметический и функциональный результаты. С другой стороны, традиционные реконструктивные вмешательства позволяют получить одномоментный результат, быстро завершить лечение пациента. Однако данные вмешательства имеют существенные нежелательные последствия в виде протяженного послеоперационного рубца, который зачастую обуславливает косметические проблемы, возможного преждевременного синостозирования коронарного шва, а также персистенции битемпорального сужения вследствие гипоплазии височных мышц у пациентов с тригоноцефалией, которые к тому же нарастают с возрастом пациента [29]. Также следует учитывать высокий риск различных осложнений при традиционных реконструктивных вмешательствах, который достигает 35,9 % [30]. В литературе описывается нарушение развития лобной пазухи и вследствие этого развитием вторичной деформации у пациентов после фронто-орбитальной реконструкции [31, 32].

Результаты эндоскопического и реконструктивного метода, в целом, сравнимы между собой [33]. При этом выявлено, что улучшение формы черепа после ЭСЭ и ТКО наблюдается вплоть до 2-х летнего возраста пациента [34].

Заключение

Эндоскопическая сатурэктомия при тригоноцефалии, выполненная в оптимальные сроки, в адекватном объеме и сопровождаемая оптимальной терапией краниальными ортезами, позволяет достичь в большинстве наблюдений хороших и удовлетворительных функциональных и эстетических результатов. Ближайшие морфологические результаты лечения достоверно отличаются от дооперационных, но также отличаются от параметров здоровых детей. Результат лечения является отсроченным и может быть достигнут при правильном соблюдении протокола лечения родителями пациента и лечащими врачами. Значимыми преимуществами метода являются отсутствие протяженного послеоперационного рубца, относительно легкое течение послеоперационного периода, относительная низкая вероятность кровопотери и необходимость гемотрансфузии, возможность сокращения периода стационарного лечения пациента, более низкая частота нежелательных последствий и осложнений, чем при традиционных реконструктивных вмешательствах.

Конфликт интересов. Авторы заявляют об отсутствии конфликта интересов. **Conflict of interest.** The author declares no conflict of interest.

Финансирование. Исследование проведено без спонсорской поддержки. **Financing.** The study was performed without external funding.

Соблюдение прав пациентов и правил биоэтики: Все пациенты подписали информированное согласие на участие в исследовании. **Compliance with patient rights and principles of bioethics.** All patients gave written informed consent to participate in the study

ORCID авторов / ORCID of authors

Сатанин Леонид Александрович/
Satanin Leonid Alexandrovich
0000-0003-2051-1855

Евтеев Андрей Алексеевич/
Evtsev Andrey Alexeevich
0000-0002-6254-1203

Иванов Александр Леонидович/
Ivanov Alexander Leonidovich
0000-0002-0732-0942

Сахаров Александр Владимирович/
Sakharov Alexander Vladimirovich
0000-0001-5119-6814

Головин Николай Иванович/
Golovin Nikolay Ivanovich
0000-0002-8347-4695

Шамхалов Хабиб Шахтемирович/
Shamkhalov Khabib Shakhtemirovich
0000-0002-4841-7820

Тере Валентина Андреевна/Tere Valentina A
0000-0003-4247-8953

Солониченко Владимир Григорьевич/
Solonichenko Vladimir Grigorievich
0000-0001-6653-8768

Рогинский Виталий Владиславович/
Roginsky Vitaliy Vladislavovich
0000-0003-0549-855X

Литература/References

- Eppley BL, Sadove AM. Surgical correction of metopic suture synostosis. *Clin Plast Surg.* Oct 1994;21(4):555–62.
- Shuper A, Merlob P, Grunebaum M, Reisner SH. The incidence of isolated craniosynostosis in the newborn infant. *Am J Dis Child.* Jan 1985;139(1):85–6. doi:10.1001/archpedi.1985.02140030091038
- Dhellemmes P, Pellerin P, Lejeune JP, Lepoutre F. Surgical treatment of trigonocephaly. Experience with 30 cases. *Child's nervous system: ChNS: official journal of the International Society for Pediatric Neurosurgery.* 1986;2(5):228–32.
- van der Meulen J. Metopic synostosis. *Child's nervous system: ChNS: official journal of the International Society for Pediatric Neurosurgery.* Sep 2012;28(9):1359–67. doi:10.1007/s00381-012-1803-z
- Delashaw JB, Persing JA, Broaddus WC, Jane JA. Cranial vault growth in craniosynostosis. *J Neurosurg.* Feb 1989;70(2):159–65. doi:10.3171/jns.1989.70.2.0159
- Alderman BW, Bradley CM, Greene C, Fernbach SK, Baron AE. Increased risk of craniosynostosis with maternal cigarette smoking during pregnancy. *Teratology.* Jul 1994;50(1):13–8. doi:10.1002/tera.1420500103
- Lajeunie E, Barcik U, Thorne JA, El Ghouzzi V, Bourgeois M, Renier D. Craniosynostosis and fetal exposure to sodium valproate. *J Neurosurg.* Nov 2001;95(5):778–82. doi:10.3171/jns.2001.95.5.0778
- Collmann H, Sorensen N, Krauss J. Consensus: trigonocephaly. *Child's nervous system: ChNS: official journal of the International Society for Pediatric Neurosurgery.* Nov 1996;12(11):664–8. doi:10.1007/BF00366148
- Sidoti EJ, Jr., Marsh JL, Marty-Grames L, Noetzel MJ. Long-term studies of metopic synostosis: frequency of cognitive impairment and behavioral disturbances. *Plastic and reconstructive surgery.* Feb 1996;97(2):276–81. doi:10.1097/00006534-199602000-00002
- Ousterhout DK, Peterson-Falzone SJ. Long-term follow-up on a case of untreated trigonocephaly. *Cleft Palate J.* Jan 1990;27(1):72–5. doi:10.1597/1545-1569(1990)027<0072:lfoaco>2.3.co;2
- Jimenez DF, Barone CM, Cartwright CC, Baker L. Early management of craniosynostosis using endoscopic-assisted strip craniectomies and cranial orthotic molding therapy. *Pediatrics.* Jul 2002;110(1 Pt 1):97–104. doi:10.1542/peds.110.1.97
- Jimenez DF, Barone CM. Early treatment of anterior calvarial craniosynostosis using endoscopic-assisted minimally invasive techniques. *Child's nervous system: ChNS: official journal of the International Society for Pediatric Neurosurgery.* Dec 2007;23(12):1411–9. doi:10.1007/s00381-007-0467-6
- Cohen SR, Holmes RE, Ozgur BM, Meltzer HS, Levy ML. Frontoorbital and cranial osteotomies with resorbable fixation using an endoscopic approach. *Clin Plast Surg.* Jul 2004;31(3):429–42. vi. doi:10.1016/j.cps.2004.03.007
- Evtsev A, Anikin A, Satanin L. Midfacial growth patterns in males from newborn to 5 years old based on computed tomography. *American journal of human biology: the official journal of the Human Biology Council.* Jul 2018;30(4):e23132. doi:10.1002/ajhb.23132
- Kuehle R, Ewerbeck N, Ruckschloss T, et al. Photogrammetric evaluation of corrective surgery for trigonocephaly. *International journal of oral and maxillofacial surgery.* Jan 2022;51(1):70–77. doi:10.1016/j.ijom.2021.06.003
- Rodriguez-Florez N, Goktekin OK, Bruse JL, et al. Quantifying the effect of corrective surgery for trigonocephaly: A non-invasive, non-ionizing method using three-dimensional handheld scanning and statistical shape modelling. *Journal of cranio-maxillo-facial surgery: official publication of the European Association for Cranio-Maxillo-Facial Surgery.* Mar 2017;45(3):387–394. doi:10.1016/j.jcms.2017.01.002
- Salokorpi N, Savolainen T, Sinikumpu JJ, et al. Outcomes of 40 Nonsyndromic Sagittal Craniosynostosis Patients as Adults: A Case-Control Study With 26 Years of Postoperative Follow-up. *Operative neurosurgery.* Jan 1 2019;16(1):1–8. doi:10.1093/ons/opy047
- Jimenez DF, McGinity MJ, Barone CM. Endoscopy-assisted early correction of single-suture metopic craniosynostosis: a 19-year experience. *Journal of neurosurgery Pediatrics.* Sep 28 2018;23(1):61–74. doi:10.3171/2018.6.PEDS 1749
- Hudgins RJ, Cohen SR, Burstein FD, Boydston WR. Multiple suture synostosis and increased intracranial pressure following repair of single suture, nonsyndromal craniosynostosis. *The Cleft palate-craniofacial journal: official publication of the American Cleft Palate-Craniofacial Association.* Mar 1998;35(2):167–72. doi:10.1597/1545-1569_1998_035_0167_mssaii_2.3.co_2
- Thompson DN, Malcolm GP, Jones BM, Harkness WJ, Hayward RD. Intracranial pressure in single-suture craniosynostosis. *Pediatr Neurosurg.* 1995;22(5):235–40. doi:10.1159/000120907
- Jimenez DF, Barone CM, McGee ME, Cartwright CC, Baker CL. Endoscopy-assisted wide-vertex craniectomy, barrel stave

- osteotomies, and postoperative helmet molding therapy in the management of sagittal suture craniosynostosis. *J Neurosurg.* May 2004;100(5 Suppl Pediatrics):407–17. doi:10.3171/ped.2004.100.5.0407
22. Aryan HE, Meltzer HS, Gerras GG, Jandial R, Levy ML. Leptomeningeal cyst development after endoscopic craniosynostosis repair: case report. *Neurosurgery.* Jul 2004;55(1):235–7; discussion 237–8. doi:10.1227/01.neu.0000126951.74653.a6
23. Kim D, Pryor LS, Broder K, et al. Comparison of open versus minimally invasive craniosynostosis procedures from the perspective of the parent. *The Journal of craniofacial surgery.* Jan 2008;19(1):128–31. doi:10.1097/SCS.0b013e31816552fd
24. Рогинский В. В., Хачатрян В. А., Сатанин Л. А., Ким А. В., Иванов В. П., Самочерных К. А., Солонищенко В. Г., Глаголев Н. В., Земляникин В. В., Иванов А. Л., Кабаньян А. Б., Лetyagin Г. В., Пак О. И., Семенова Ж. Б., Тимершин А. Г., Шамхалов Х. Ш., Сахаров А. В., Иова А. С. Актуальные вопросы диагностики и хирургического лечения детей с краниосиностозами. *Нейрохирургия и неврология детского возраста.* 50(1): 56–74. [Roginsky V. V., Khachatryan V. A., Satanin L. A., Kim A. V., Ivanov V. P., Samochernykh K. A., Solonichenko V. G., Glagolev N. V., Zemlyanikin V. V., Ivanov A. L., Kabanyan A. B., Letyagin G. V., Pak O. I., Semenova Zh. B., Timershin A. G., Shamkhalov H. Sh., Sakharov A. V., Iova A. S. TOPICAL ISSUES OF DIAGNOSIS AND SURGICAL TREATMENT OF CHILDREN WITH CRANIOSYNOSTOSES. *Neurosurgery and Neurology of childhood.* 50: 56–74(In Russ.).]
25. Kung TA, Vercler CJ, Muraszko KM, Buchman SR. Endoscopic Strip Craniectomy for Craniosynostosis: Do We Really Understand the Indications, Outcomes, and Risks? *The Journal of craniofacial surgery.* Mar 2016;27(2):293–8. doi:10.1097/SCS.0000000000002364
26. Di Rocco C. Editorial. Is the helmet doing most of the job in the endoscopic correction of craniosynostosis? *Neurosurgical focus.* Apr 2021;50(4): E9. doi:10.3171/2021.1.FOCUS2125
27. Ersahin Y. Endoscope-assisted repair of metopic synostosis. *Child's nervous system: ChNS: official journal of the International Society for Pediatric Neurosurgery.* Dec 2013;29(12):2195–9. doi:10.1007/s00381-013-2286-2
28. Riordan CP, Zurakowski D, Meier PM, et al. Minimally Invasive Endoscopic Surgery for Infantile Craniosynostosis: A Longitudinal Cohort Study. *The Journal of pediatrics.* Jan 2020;216:142–149 e2. doi:10.1016/j.jpeds.2019.09.037
29. Wes AM, Paliga JT, Goldstein JA, Whitaker LA, Bartlett SP, Taylor JA. An evaluation of complications, revisions, and long-term aesthetic outcomes in nonsyndromic metopic craniosynostosis. *Plastic and reconstructive surgery.* Jun 2014;133(6):1453–1464. doi:10.1097/PRS.0000000000000223
30. Shastin D, Peacock S, Guruswamy V, et al. A proposal for a new classification of complications in craniosynostosis surgery. *Journal of neurosurgery Pediatrics.* Jun 2017;19(6):675–683. doi:10.3171/2017.1.PEDS16343
31. McCarthy JG, Glasberg SB, Cutting CB, et al. Twenty-year experience with early surgery for craniosynostosis: I. Isolated craniofacial synostosis — results and unsolved problems. *Plastic and reconstructive surgery.* Aug 1995;96(2):272–83. doi:10.1097/0006534-199508000-00004
32. Paik H, Byeon JH. Anterior two-thirds calvarial remodelling: operative technique for the correction of metopic synostosis in toddlers. *Journal of plastic, reconstructive & aesthetic surgery: JPRAS.* Jan 2010;63(1):36–41. doi:10.1016/j.bjps.2008.08.076
33. Schulz M, Liebe-Puschel L, Seelbach K, et al. Quantitative and qualitative comparison of morphometric outcomes after endoscopic and conventional correction of sagittal and metopic craniosynostosis versus control groups. *Neurosurgical focus.* Apr 2021;50(4): E2. doi:10.3171/2021.1.FOCUS20988
34. Pressler MP, Hallac RR, Geisler EL, Seaward JR, Kane AA. Comparison of Head Shape Outcomes in Metopic Synostosis Using Limited Strip Craniectomy and Open Vault Reconstruction Techniques. *The Cleft palate-craniofacial journal: official publication of the American Cleft Palate-Craniofacial Association.* Jun 2021;58(6):669–677. doi:10.1177/1055665620969294