

## ·病例报告·

## 脊髓电刺激治疗拇趾外伤后复杂区域疼痛综合征 II 型一例报告

刘芳<sup>1</sup> 路桂军<sup>1</sup> 王超<sup>1</sup> 魏芳远<sup>2</sup> 牛杰杰<sup>1</sup> 钟长峰<sup>1</sup>

复杂区域性疼痛综合征 (complex regional pain syndrome, CRPS) 常发生在骨折和外科手术后, 是骨科临床常见的并发症, 一旦发生, 处理较困难。该病是以肢体疼痛为主要症状, 继发于组织损伤之后, 关节、骨骼、皮肤和肌肉等组织均可涉及, 且与血管运动因素有关的综合征。

国际疼痛研究学会 (International Association for the Study Pain, IASP) 于 2005 年发布的 Budapest 诊断标准<sup>[1]</sup>中陈述, CRPS 的临床表现主要有以下几个方面: ①持续性疼痛的程度与刺激的强度不成比例, 且疼痛范围不属于单神经支配区; ②出现痛觉过敏、痛觉超敏和触诱发痛等感觉异常; ③有血管舒缩异常的表现, 比如双侧肢体皮肤颜色和温度不一致, 在 CRPS 急性期可出现皮肤发红、皮温升高的表现, 而在慢性期可出现皮肤青紫、皮温降低; ④排汗异常或肢体肿胀<sup>[2]</sup>; ⑤可有毛发稀疏、指甲脆弱、皮肤变薄等营养不良的表现; ⑥出现肌肉无力、运动幅度减低和肌张力障碍等运动障碍。CRPS 发病率在不同研究中有较大差异, 一项荷兰的研究显示其发病率为每年 26.2/10 万人。多发生于上肢, 下肢的发病率低, 来源于足部外伤的病例鲜有报道。2020 年 7 月, 我们收治了一例拇趾外伤后发生 CRPS 的病人, 经脊髓电刺激治疗恢复良好, 现报告如下。

## 临床资料

## 一、病史

男, 20 岁, 2 年前左拇趾被钢钉刺伤, 因左拇趾屈肌腱损伤、神经损伤半年内先后 2 次行拇趾神经松解术、拇趾肌腱粘连松解术。第 2 次术后 2 个月出现左拇趾至足底内侧缘疼痛, 呈刺痛、灼痛、电击样疼痛, 伴左下肢刺痛烧灼感。左足及左下肢活动受限。口服加巴喷丁、普瑞巴林等药物无效。2020 年 7 月来我院门诊就诊, 完善血管超声和腰椎核磁, 排除血栓形成和腰椎间盘突出症。

## 二、查体

病人入院后的疼痛视觉模拟量表 (visual analogue scale, VAS) 评分为 8 分; 左拇趾内侧缘可见长约 8 cm 手术瘢痕、左拇趾跖屈受限, 左踝背屈跖屈受限。左下肢皮温较右下肢低 2℃。左拇趾皮肤感觉减退伴痛觉过敏, 双下肢深感觉检查未见明显异常。左足皮肤毛细血管扩张 (图 1 a)。左侧提睾

反射减弱、跖反射减弱。双下肢膝反射及跟腱反射未见明显异常。左下肢肌力 4 级, 肌张力正常。右下肢肌力 5 级, 肌张力正常。左下肢发汗试验 (-)。美国足踝外科医师协会 (American Orthopedic Foot and Ankle Society, AOFAS) 拇趾临床评分: 左 39 分。AOFAS 踝与后足评分: 左 52 分。

## 三、检查

腰椎骨密度 T 值为 -0.7 SD。左足侧位 X 线片示跟骨距骨骨密度较对侧减低 (图 1 b、c)。肌电图: 胫后神经、腓总神经、腓肠神经传导未见异常。左下肢皮肤交感反应异常。左下肢拇趾重度感觉减退。

## 四、诊断

结合病史及辅助检查结果, 病人符合 IASP 对于 CRPS 的诊断标准, 入院诊断为: ① II 型 CRPS; ② 左拇趾肌腱损伤; ③ 左拇趾神经损伤。

## 五、治疗

入院后完善术前检查, 行脊髓电刺激治疗。X 线下定位 L<sub>1/2</sub> 节段, 局部麻醉, L<sub>1/2</sub> 节段进行硬膜外穿刺, 穿刺针到达硬膜外腔后将刺激电极经穿刺针置入硬膜外腔左侧, 头端到达 T<sub>10</sub> 椎体上缘, 分别测试电极上 8 个刺激位点, 病人描述异感范围, 当电刺激范围覆盖病人左侧下肢及左足拇趾疼痛部位时, 记录位点及刺激电极参数。同样, 于 L<sub>1/2</sub> 节段穿刺, 将另一根刺激电极置入病人硬膜外腔偏中线位置, 头端于左侧电极平齐, 测试 8 个刺激位点并记录。电极穿刺点皮肤切开至浅筋膜, 两根电极分别妥善固定, 电极尾端经皮下隧道从左侧臀部穿出。术后观察电刺激临床疗效一周, 病人疼痛缓解明显, 一周后行永久电极植入术 (图 1 d)。

## 六、结果

治疗后 1 周、1 个月、3 个月, 左下肢 VAS 评分较治疗前明显降低, 双下肢皮温一致, 发汗试验 (+), 治疗后踝关节和拇趾跖趾关节活动度明显改善, AOFAS 评分明显提高 (图 1 e, 表 1)。

## 讨 论

CRPS 是一组以慢性区域性自发性疼痛为主要表现的综合征, 其特点是进行性加重且疼痛程度与诱发因素的发生时间不符, 与诱发因素的严重程度不成比例, 疼痛区域也与神经支配的皮节区不符。CRPS 有两种临床类型: 第一型 (CRPS I) 为反射性交感性肌萎缩 (reflex sympathetic dystrophy, RSD); 第二型 (CRPS II) 为灼性神经痛<sup>[4-5]</sup>, 常有明确的神经损伤。神经传导速度检查或肌电图可以明确诊断神经损伤和神经定位, 是鉴别两者的有效检查。本例病人的症状

DOI: 10.3969/j.issn.1674-8573.2021.05.018

作者单位: 1. 清华大学附属北京清华长庚医院疼痛科, 清华大学临床医学院, 北京 102208; 2. 首都医科大学附属北京同仁医院足踝外科, 北京 100730

通信作者: 路桂军, E-mail: luguijun301@163.com



图1 病人,男,20岁 a:术前左足与右足对比,有明显的毛细血管扩张;b,c:左足(b)与右足(c)侧位X线片比较,可见左侧跟骨距骨骨密度较对侧减低;d:术毕胸部正位X线片示双根电极,上端位于T<sub>10</sub>椎体下缘,下端位于T<sub>11</sub>椎体;e:术后1周,双足皮肤颜色一致,无明显毛细血管扩张

表1 治疗前后的检查结果比较

项目	治疗前	治疗后		
		1周	1个月	3个月
VAS评分(分)	8	2	1	0
发汗试验	(-)	(+)	(+)	(+)
皮温(°C)				
左下肢	33.3	35.1	34.9	35.5
右下肢	35.4	35.5	35.1	35.1
被动活动度(°)				
踝关节背屈	20	25	30	30
踝关节跖屈	15	20	25	30
跗趾跗趾关节背屈	10	20	30	30
跗趾跗趾关节跖屈	10	15	20	20
AOFAS评分(分)				
跗趾	39	62	67	85
踝与后足	52	88	100	100

特点:自发痛、烧灼感,痛觉过敏,疼痛区域较损伤区域(跗趾)明显扩大;左下肢毛细血管扩张、温度降低;左下肢排汗异常;左下肢运动功能下降、肌力减低;左足骨密度减低。病人有明确的趾神经损伤病史,且肌电图显示跗趾重度感觉减退,符合CRPS II型诊断。

CRPS的发病机制尚不十分明确,目前认为有多种机制参与。这些机制包括神经源性炎症参与的中枢及外周敏化,

氧化应激反应和自身抗体形成,中枢神经形态功能改变,遗传和精神心理因素等<sup>[6-8]</sup>。无论CRPS I 还是CRPS II,神经源性炎症反应都是CRPS最先触发的机制,且贯穿CRPS的整个发病过程。机体在伤害性刺激发生后可引起大量神经肽释放,神经肽参与痛觉传递引起CRPS的特征性感觉异常和痛觉过敏<sup>[9]</sup>。神经肽还可以增加血管通透性,扩张毛细血管,因而出现流汗、皮肤发红、皮温改变等。在中枢神经系统,神经肽可与相应受体结合,引起脊髓胶质细胞的激活和疼痛敏化。

CRPS的治疗方案很多,目前临床报道了经颅磁刺激、经皮电刺激等物理治疗方法,包括心理疏导在内的心理治疗方法,非甾体类抗炎药和激素、双膦酸盐、免疫球蛋白、氯胺酮、加巴喷丁、降钙素等药物治疗方法,交感神经阻滞治疗以及外科交感神经切除术、脊髓背根入髓区毁损等手术方法。尚无一种准确有效的治疗方法。近年来,有报道免疫调节治疗、肉毒毒素局部注射治疗、高压氧治疗、本体感觉训练和镜像治疗、血浆置换等研究方案,还在进一步研究验证中<sup>[10]</sup>。

脊髓电刺激近年来广泛用于治疗各种慢性疼痛,特别是难治性慢性疼痛<sup>[11]</sup>。作为一种基于电流刺激的微创方法,其原理是1965年Wall提出的“闸门”理论,脊髓电刺激通过刺激脊髓背角大的有髓神经纤维,从而抑制伤害性刺激通过小的无髓神经纤维向上传入,进而达到控制疼痛的目的。新发现的研究机制还包括:脊髓电刺激通过干扰疼痛传导通路,激活阿片受体,激活疼痛下行抑制传导通路,调节γ-氨基丁

酸能系统,从而控制感觉神经元投射的活性和反应。脊髓电刺激具有微创、可逆、可调、不造成永久性神经功能缺失或损伤的特点,临床应用前景广阔。但因其费用高,且电量消耗需要定期更换刺激发生器,限制其在临床广泛应用。

该病例是足趾及下肢的 CRPS,未见既往文献报道。我们首次采用双根电极脊髓电刺激的治疗手段,双根电极有 16 个触点,能够覆盖更大范围脊髓节段,因而电流可覆盖足够范围的感觉异常区域,同时带来更多方式的程控选择。双根电极避免了病人活动带来的电极移位导致的镇痛范围覆盖不全,后期电势差受病人体位影响较小。该病人放置电极一周后疼痛即有明显缓解,血管扩张情况明显改善,皮温升高,可正常排汗。说明脊髓电刺激可以明显改善交感、副交感神经功能,不仅能够缓解疼痛,而且能够增加肢体血供。1~3 个月后病人的肢体功能和生活质量也得到明显改善。

CRPS 是一类难治性疼痛,本研究属于个案报道,首次尝试了双根电极脊髓电刺激的治疗方案,取得了较好的临床效果。但本研究干预时间较短,未来应开展大样本、长观察期的随机对照临床试验进一步探讨脊髓电刺激治疗 CRPS 的生理机制,为 CRPS 治疗提供更多理论依据。

#### 参 考 文 献

- [1] Harden RN, Bruehl S, Perez RS, et al. Validation of proposed diagnostic criteria (the "Budapest Criteria") for Complex Regional Pain Syndrome[J]. Pain, 2010, 150(2): 268-274.
- [2] Dirckx M, Stronks DL, van Bodegraven-Hof EA, et al. Inflammation in cold complex regional pain syndrome[J]. Acta Anaesthesiol Scand, 2015, 59(6): 733-739.
- [3] Barnhoorn KJ, van de Meent H, van Dongen RT, et al. Pain exposure physical therapy (PEPT) compared to conventional treatment in complex regional pain syndrome type 1: a randomised controlled trial[J]. BMJ Open, 2015, 5(12): e008283.
- [4] Bean DJ, Johnson MH, Kydd RR. The outcome of complex regional pain syndrome type 1: a systematic review[J]. J Pain, 2014, 15(7): 677-690.
- [5] Dutton K, Littlejohn G. Terminology, criteria, and definitions in complex regional pain syndrome: challenges and solutions[J]. J Pain Res, 2015, 8: 871-877.
- [6] Li WW, Sabsovich I, Guo TZ, et al. The role of enhanced cutaneous IL-1beta signaling in a rat tibia fracture model of complex regional pain syndrome[J]. Pain, 2009, 144(3): 303-313.
- [7] Santamato A, Ranieri M, Panza F, et al. Role of biphosphonates and lymphatic drainage type Leduc in the complex regional pain syndrome(shoulder - hand syndrome) [J]. Pain Med, 2009, 10(1): 179-185.
- [8] Herlyn P, Müller-Hilke B, Wendt M, et al. Frequencies of polymorphisms in cytokines, neurotransmitters and adrenergic receptors in patients with complex regional pain syndrome type I after distal radial fracture[J]. Clin J Pain, 2010, 26(3): 175-181.
- [9] Shi X, Wang L, Li X, et al. Neuropeptides contribute to peripheral nociceptive sensitization by regulating interleukin-1 $\beta$  production in keratinocytes[J]. Anesth Analg, 2011, 113(1): 175-183.
- [10] Lefaucheur JP, André -Obadia N, Antal A, et al. Evidence-based guidelines on the therapeutic use of repetitive transcranial magnetic stimulation (rTMS) [J]. Clin Neurophysiol, 2014, 125(11): 2150-2206.
- [11] 焦鹏飞, 郭海明, 樊肖冲, 等. 脊髓电刺激在慢性疼痛中的临床应用及研究进展[J]. 河南医学研究, 2020, 29(19): 3646-3648.  
(收稿日期: 2021-02-13)  
(本文编辑:陈姗姗)

#### 引用格式

刘芳, 路桂军, 王超, 等. 脊髓电刺激治疗踝趾外伤后复杂区域疼痛综合征 II 型一例报告[J]. 骨科, 2021, 12(5): 479-481. DOI: 10.3969/j.issn.1674-8573.2021.05.018.