



РЕЗУЛЬТАТ КОМПЛЕКСНОГО ХИРУРГИЧЕСКОГО ЛЕЧЕНИЯ ПАЦИЕНТКИ С СИНДРОМОМ КАУДАЛЬНОЙ РЕГРЕССИИ

А.А. Семенов, Д.В. Рыжиков, М.В. Михайловский, А.С. Васюра
Новосибирский НИИ травматологии и ортопедии им. Я.Л. Цивьяна

Представлен завершённый случай комплексного хирургического лечения пациентки с синдромом каудальной регрессии и множественными сочетанными пороками развития, проходившей этапное лечение в клинике Новосибирского НИИТО в 2010–2012 гг. Для оценки состояния ребенка использованы клинический и рентгенологический методы. Продемонстрированы результаты лечения тяжелой редкой аномалии развития позвоночника, сочетающейся с множественными тяжелыми пороками развития внепозвоночных отделов опорно-двигательного аппарата, представлены возможности их восстановительной хирургии.

Ключевые слова: синдром каудальной регрессии, сакральная агенезия, врожденные аномалии, симультанные операции, врожденный вывих бедра.

Для цитирования: Семенов А.А., Рыжиков Д.В., Михайловский М.В., Васюра А.С. Результат комплексного хирургического лечения пациентки с синдромом каудальной регрессии // Хирургия позвоночника. 2014. № 4. С. 106–111.

RESULT OF COMPREHENSIVE SURGICAL TREATMENT OF A PATIENT WITH CAUDAL REGRESSION SYNDROME

A.L. Semyonov, D.V. Ryzhikov, M.V. Mikhailovsky, A.S. Vasyura

The paper presents the completed case of comprehensive staged surgical treatment of a patient with caudal regression syndrome combined with multiple malformations performed in Novosibirsk RITO in 2010–2012. Evaluation of the child's condition was performed using clinical and radiological methods. Results of the treatment for rare severe malformation of the spine combined with multiple developmental musculoskeletal defects are demonstrated, and the opportunities of reconstructive surgery in the treatment of multiple defects of musculoskeletal system are presented.

Key Words: caudal regression syndrome, sacral agenesis, congenital anomalies, simultaneous operations, congenital dislocation of the hip.

Hir. Pozvonoc. 2014; (3):106–111.

В последнее время в зарубежной и отечественной литературе регулярно встречаются статьи, посвященные этиологии, ранней диагностике, клиническим проявлениям и методам лечения больных с редкой врожденной патологией – синдромом каудальной регрессии [1, 2, 25, 26, 29].

Под синдромом понимают комплекс врожденных аномалий, который характеризуется пороком развития дистального отдела позвоночника и спинного мозга в сочетании с аномалиями костей таза, нижних конечностей, нервной, мочеполовой, сердечно-сосудистой систем, желудочно-кишечного тракта [4, 14, 21, 29, 31, 33]. По некоторым данным, заболевание встречается у 1 из 10 000–60 000 ново-

рожденных, при этом в 2,7 раза чаще у мальчиков [11, 18, 30, 32].

Наряду с хромосомными нарушениями (дефект идентифицируется в гене HLXB9 хромосомы 7q36, а также в генах Noxd13, CYP26A1), играют роль внешние факторы (тератогенные токсины, радиация, недостаток витаминов, нарушение синтеза ретиноевой кислоты, сосудистые нарушения, уровень гликемии) [4, 10, 13, 20, 24, 29]. Наличие у матери инсулинозависимого сахарного диабета повышает риск развития синдрома в 200–400 раз [5–7, 9, 16, 17, 27, 28]. Пренатальная диагностика клинически возможна на 20–22 неделе беременности по УЗИ [8]. Для окончательной постановки диагноза проводится МРТ-обследование [12, 19, 20].

Клинические проявления синдрома описаны в современной литературе. Общепринятой считается классификация Renshaw, по которой выделено четыре типа синдрома [22, 23]:

I – полная или частичная односторонняя сакральная агенезия;

II (наиболее распространенный) – неполная сакральная агенезия с частичным, но двусторонним дефектом крестца, стабильным сочленением между подвздошными костями и нормальным или гипопластичным S₁ позвонком;

III – варибельная поясничная и полная крестцовая агенезия, при которой подвздошные кости соединяются с боковыми поверхностями последнего позвонка;

IV – вариабельная поясничная и полная сакральная агенезия, когда каудальная пластинка самого нижнего позвонка располагается над сочленением подвздошных костей; этот тип представляет собой классическую форму синдрома каудальной регрессии или люмбосакральной агенезии [1].

В 1996 г. Sama et al. [8] предложили классификацию, состоящую из пяти типов анатомических изменений крестца, а через шесть лет Guelle et al. [15] опубликовали классификацию, основанную на трех клинко-рентгенологических типах порока, обуславливающих возможность адаптации пациента к вертикальному положению и ходьбе.

Редкая встречаемость, высокая вариабельность клинических проявлений, сложность в выборе метода хирургического лечения больных с синдромом каудальной регрессии явились основанием для настоящей публикации.

В клиниках детской ортопедии № 1, 2 Новосибирского НИИТО под наблюдением находятся четыре пациентки с синдромом каудальной регрессии в сочетании с патологией тазобедренных суставов (двусторонними вывихами и подвывихами) и стоп (плосковальгусной деформацией с вертикально стоящей таранной костью, эквиновароприведенной деформацией). Сроки послеоперационного наблюдения от 1 года до 4 лет. Двум больным проведено комплексное оперативное лечение: пояснично-тазовая фиксация инструментарием НИТЕК по собственной методике [3], реконструктивные вмешательства на нижних конечностях. Три пациентки находятся в процессе этапного хирургического лечения.

В настоящий момент полностью закончены все этапы хирургического лечения у одной пациентки, поэтому представляем описание данного клинического случая.

Девочка, ребенок от шестой беременности, вторых родов, роды в срок – 39 недель, вес 2700 г, рост 45 см, по шкале Апгар 7–8 баллов.

При рождении выявлены множественные пороки развития: правосторонняя вертеброгенная кривошея, агенезия крестца и копчика, двусторонний врожденный вывих бедра, стеноз ануса. Лечение врожденного вывиха бедра с 2 мес. проводилось консервативно, шиной Виленского. Оперирована по поводу порока сердца на первом году жизни: открытое овальное окно, дефект межжелудочковой перегородки. Находилась под наблюдением у хирурга, проводили бужирование ануса в связи с его стенозом. В феврале 2010 г. поступила на плановое обследование и лечение в Новосибирский НИИТО.

Для оценки состояния ребенка использованы клинический и рентгенологический методы. Обследование и приведенные материалы анонимны. Выполнен анализ результатов обследования и медицинских документов. Публикация не противоречит принципам биоэтического комитета (протокол заседания № 003/14 от 25.04.2014 г.).

Результаты исходного обследования (2010 г.)

Жалобы: деформация позвоночника, слабость в ногах, недержание мочи и кала.

Объективный статус: состояние удовлетворительное. Кожные покровы чистые, обычной окраски, влажности. В легких пуэрильное дыхание, проводится по всем полям, хрипов нет. ЧД – 24 в мин., ЧСС – 130 уд./мин. Тоны сердца четкие, ритмичные, систолический шум на верхушке. Умеренно выраженное отставание в физическом развитии: рост 81 см, вес 9 кг. Нервно-психическое отклонение в развитии речи. Грудная клетка цилиндрическая. В крестцово-копчиковой области деформация мягких тканей за счет отсутствия крестца и копчика (рис. 1в). Ребенок активен, встает самостоятельно, стоит неустойчиво, с опорой на окружающие предметы или за руку. Стоит на вытянутых ногах, переступает прямыми ногами, не сгибая в коленных суставах и наклонив туловище вперед. Быстро истощается и утомля-

ется. Ноги в позиции лежачего находятся в положении наружной ротации около 40°, активные движения в коленных суставах в минимальном объеме. Имеется умеренно выраженная гипотрофия мягких тканей нижних конечностей, снижение мышечного тонуса. Относительное укорочение левой нижней конечности на 1 см, анатомическая длина равна. Объем движений в тазобедренных суставах удовлетворительный, периферических чувствительных сосудистых расстройств нет. Стопы деформированы по типу стопы-качалки, пяточный бугор подтянут вверх, передние отделы в положении умеренной тыльной флексии и отведения около 20°, под кожу подошвенной области выступает головка таранной кости, умеренно выраженный натоптыш по подошвенно-медиальной поверхности стопы. Активных движений в пальцах стопы нет.

Неврологический статус: силовых парезов в руках нет, сила в проксимальных отделах ног 3–4 балла, в дистальных – 3, мышечный тонус снижен, сухожильных рефлексов нет, гипотрофия мягких тканей нижних конечностей, чувствительных расстройств нет. Нарушение функции тазовых органов по периферическому типу.

Имеющиеся навыки: самостоятельно садится, сидит, стоит у опоры, может переступать ногами на месте.

Результаты инструментальных методов обследования

Рентгенография поясничного отдела позвоночника: кифоз поясничного отдела по Cobb 10°.

КТ: аплазия крестца и копчика. МРТ: аплазия крестца и копчика, нижняя граница спинного мозга расположена на уровне межпозвоночного диска Th₁₁–Th₁₂, спинной мозг на данном уровне утолщен, фронтальный размер дурального мешка 8,6 мм.

Рентгенография тазобедренных суставов: двусторонний супраацетабулярный вывих бедра (рис. 1б).

УЗИ сердца: перимембранозный дефект межжелудочковой перегородки небольших размеров.

**Рис. 1**

Исходные данные пациентки с синдромом каудальной регрессии: **а** – деформация стоп; **б** – рентгенограмма поясничного отдела позвоночника, тазобедренных суставов, МРТ поясничного отдела (боковой срез); **в** – внешний вид деформации поясничного отдела позвоночника

УЗИ органов брюшной полости без патологии.

Диагноз: синдром каудальной регрессии; врожденная агенезия крестца и копчика типа А по Guelle; нижний периферический парапарез с нарушением функции тазовых органов; врожденный порок сердца – перимембранозный дефект межжелудочковой перегородки; двусторонний супраацетабулярный вывих бедра; плосковальгусная деформация обеих стоп тяжелой степени, стопа-качалка, вертикально стоящая таранная кость; сгибательно-отводящая контрактура обоих тазобедренных суставов; сгибательно-разгибательная контрактура обоих коленных суставов; правосторонняя вертеброгенная кривошея.

Выполнена операция: спондилосинтез, пояснично-тазовая фиксация адаптированным инструментарием

Новосибирского НИИТО (хирург М.В. Михайловский).

Из протокола операции: доступ линейный вдоль линии остистых отростков от L₂ до проекции крестца длиной 10 см. Осуществлен выход на задние отделы позвонков на указанном уровне, скелетированы с обеих сторон наружные поверхности подвздошных костей. Краниальный ламинарно-ламинарный захват сформирован на уровнях L₁, L₂ позвонков с обеих сторон. Каудальный захват сформирован путем остеосинтеза подвздошных костей педикулярными шурупами, проведенными во встречных направлениях [3]. Слева и справа установлены стержни, изогнутые в соответствии с деформацией позвоночника. Протяженность и вид фиксации обусловлены необходимостью максимально жесткой фиксации таза

и поясничного отдела позвоночника с сохранением подвижности вышележащих отделов. Уложены аутогрануляты в виде костной соломы из резецированных остистых отростков на протяжении доступа. Послеоперационный период без особенностей. Выписана домой в удовлетворительном состоянии под амбулаторное наблюдение, с ограничением вертикальной нагрузки на ноги. Проведение реконструктивно-пластических вмешательств на нижних конечностях решено отложить до формирования искусственного костного блока в ложе инструментария, самостоятельной вертикализации больной.

В ноябре 2011 г. поступила для проведения следующего этапа оперативного лечения.

Одновременно выполнены операции по стабилизации тазобедренных суставов: остеотомия таза по Солтеру, транспозиция вертлужной впадины с обеих сторон (хирурги Д.В. Рыжиков, А.Л. Семенов).

Из протокола операции: из переднего пахово-подвздошного доступа длиной до 5 см выполнены фигурная остеотомия подвздошной кости пилой Джильи, устранение нижней капсулотомии, накат и ротация на головку бедренной кости вертлужного компонента, остеосинтез спицами Киршнера, фиксация двойной кокситной гипсовой повязкой с усечением повязки через 1 мес. для освобождения нижних конечностей до уровня коленного сустава.

Послеоперационный период без особенностей. Срок иммобилизации 1,5 мес., после чего начато комплексное восстановительное лечение, иммобилизация шиной Виленского с разрешением вертикальной нагрузки на ноги.

После медицинской паузы, в феврале 2012 г., вновь поступила в клинику для дальнейшего хирургического лечения.

На данном этапе одномоментно выполнена костно-пластическая реконструкция обеих стоп (хирурги Д.В. Рыжиков, А.Л. Семенов): открытое вправление таранной кости, корриги-

рующая остеотомия пяточной кости, сухожильно-мышечная пластика. Удалены спицы Киршнера из подвздошных костей.

Из протокола операции: первым этапом проведена тенотомия икроножной мышцы с устранением эквинусного компонента. Далее поперечный латеральный доступ в проекции синуса пяточной кости, выделена пяточная кость с предварительным Z-образным удлинением короткой и длинной малоберцовых мышц, проведена косопоперечная остеотомия пяточной кости. Затем выполнен медиальный доступ, выделено и пересечено на держалке сухожилие задней большеберцовой мышцы, проведена капсулотомия таранно-ладьевидного сустава. Артротомия подтаранного сустава. Мобилизация таранной кости с ее выведением в правильное положение. Сформирована медиальная связка таранно-ладьевидного сустава, сухожилие задней большеберцовой мышцы подшито к месту прикрепления с укорочением. В область остеотомии пяточной кости установлен треугольный аллотрансплантат с устранением вальгусного компонента заднего отде-

ла стопы, удлинением ее латерального контура и формированием свода стопы. Синтез спицами Киршнера. Гипсовая повязка до верхней трети бедра.

Послеоперационный период без особенностей. Выписана на амбулаторное лечение. Имобилизация сроком на 8 недель, после чего удалены спицы Киршнера. Проведено восстановительное лечение, параллельно проводилось лечение остаточного вынужденного положения головы (кривошеи), нижние конечности фиксировались в положении отведения брейсами. Вертикальная нагрузка разрешена через три недели после удаления конструкций из стоп. Назначено комплексное восстановительное лечение.

Результаты

На время публикации срок наблюдения за ребенком составил 4 года. В 2010–2012 гг. выполнено три этапа хирургического лечения, осложнений не отмечено.

Результаты контрольного осмотра (март 2014 г.)

Жалобы: ограничение активного сгибания в правом тазобедренном суставе.

Объективный статус: состояние удовлетворительное. Рост 92 см, вес 17 кг. Соматический статус без особенностей.

Послеоперационные рубцы белые, не спаянные с подлежащими тканями. Болевого синдрома в области проведенных вмешательств нет. Умеренно выраженная правосторонняя кривошея. Поясничны лордоз сглажен. Деформации грудного отдела позвоночника нет.

Ребенок активен: встает, садится самостоятельно, сидит устойчиво, ходит с помощью ходунков либо с опорой на окружающие предметы, за руку (рис. 2а). Небольшие расстояния (несколько шагов) проходит самостоятельно, без дополнительной опоры. Стоит на вытянутых ногах, переступает прямыми ногами, практически не сгибая в коленных суставах и слегка наклонив туловище вперед. Темп ходьбы снижен. Может самостоятельно подтянуть ноги к животу, согнув в тазобедренных суставах, активные движения в коленных суставах в мини-



Рис. 2

Данные пациентки с синдромом каудальной регрессии после хирургического вмешательства: а – поза ребенка стоя через 3,5 года после операции; б – форма стоп в положении стоя через 2 года после операции; в – рентгеноконтроль поясничного отдела позвоночника и тазобедренных суставов через 2 года после окончания этапов оперативного лечения

мальном объеме. Имеются умеренная гипотрофия мягких тканей нижних конечностей и снижение мышечно-тонуса. Относительное укорочение левой нижней конечности на 0,5 см, анатомическая длина равна. Объем движений в тазобедренных суставах удовлетворительный (отведение 40°, внутренняя ротация справа 30°, слева – 25°, наружная ротация справа 30°, слева – 35°), периферических чувствительных сосудистых расстройств нет. Стопы: опора на полную стопу, своды уплощены, объем движений в голеностопных суставах качательный, болевого синдрома нет. Натоптышей и участков давления обуви на кожу нет. Активных движений в пальцах стопы нет (рис. 2б).

Неврологический статус: силовых парезов в руках нет, сила в проксимальных отделах ног 4 балла, в дистальных – 3, мышечный тонус снижен, сухожильных рефлексов нет, чувствительных расстройств нет. Нарушение функции тазовых органов по периферическому типу.

Имеющиеся навыки: учится в общеобразовательной школе по индивидуальной программе, сидит устойчиво, ходит с помощью ходунков с полной опорой на обе ноги либо на незначительное расстояние самостоятельно.

Результаты инструментального обследования

Рентгенография пояснично-крестцового отдела позвоночника в двух проекциях: положение поясничного отдела стабильно по отношению к подвздошным костям, признаков миграции конструкций нет. Формирующийся пояснично-подвздошный костный блок. Рентгенография поясничного отдела позвоночника: лордоз пояснич-

ного отдела по Cobb 8°. Рентгенография таза в прямой проекции: головки бедра в проекции впадин, ацетабулярный индекс справа – 23°, слева – 25°. Головки бедренных костей центрированы правильно, степень покрытия полная (рис. 2в).

КТ на контрольном обследовании не проводили.

Обсуждение

При выявлении ребенка с синдромом каудальной регрессии и при отсутствии значимой для ортопедического вмешательства соматической патологии необходима консультация ортопеда высокоспециализированной клиники.

Несмотря на наличие у пациентов этой группы тяжелой сочетанной патологии, возможны адаптация пациентов к вертикализации с учетом исходного неврологического дефицита и создание условий для реализации потенциала ребенка к ходьбе. Учитывая возможности современной хирургии, считаем возможным расширение показаний к оперативному лечению детей с данным пороком.

Оперативное лечение должно проводиться с коррекцией всех основных элементов, препятствующих правильному вертикальному положению.

Рекомендовать хирургическое лечение нестабильности тазобедренных суставов можно при типах А и В по Guelle при имеющейся возможности или перспективах вертикализации пациента с последовательной коррекцией деформаций нижних конечностей для формирования правильной позы.

По нашему мнению, целесообразнее начинать этапное хирургическое

лечение со стабилизации позвоночника, так как сформированное окончательное положение подвздошных костей и позвоночника позволяет правильнее ориентировать положение вертлужных впадин относительно оси нагрузки на головки бедренных костей с сохранением более точного баланса туловища.

С учетом неврологического дефицита и гипотрофии мягких тканей необходимо планировать этапы лечения с максимальным сокращением их числа, применять симультанную хирургию и стабильный синтез, функциональные шины для сокращения сроков лечения и периода жесткой иммобилизации, сохранять мышечную массу и движения в суставах. Период медицинской паузы определяется индивидуально, до максимального полного восстановления тонуса мышц ребенка.

Пациентам, не имеющим перспектив вертикализации, возможно проведение операций, стабилизирующих сегмент «позвоночник – таз», корригирующих вмешательства на нижних конечностях для сидения и удобного положения в инвалидной коляске.

Достигнутый в описываемом случае результат можно признать хорошим. Выполненная стабилизация позвоночника и тазобедренных суставов, устранение грубой деформации стоп позволили пациенту не только сидеть и стоять, но и активно передвигаться с помощью дополнительных опор, что значительно расширило его возможности. Стало возможным пребывание ребенка в детском коллективе, что способствует дальнейшему развитию, социальной адаптации, освобождает родителей от постоянной опеки.

Литература

1. Виссарионов С.В., Казарян И.В., Беляничков С.М. Лечение пациентов с синдромом каудальной регрессии // Хирургия позвоночника. 2011. № 3. С. 56–59. [Vissarionov SV, Kazaryan IV, Belyanchikov SM. Treatment of patients with caudal regression syndrome. Hir pozvonoc. 2011;(3):56–59. In Russian].
2. Виссарионов С.В., Казарян И.В. Синдром каудальной регрессии // Хирургия позвоночника. 2010. № 2. С. 50–55. [Vissarionov SV, Kazaryan IV. Caudal regression syndrome. Hir Pozvonoc. 2010;(2): 50–55. In Russian].
3. Патент № 2445033 Российская Федерация. Способ лечения сакральной агенезии / Новиков В.В., Вастюра А.С., Михайловский М.В.; заявл. 21.04.2010; опубл. 20.03.2012, Бюл. № 8. [Novikov VV, Vasyura AS, Mikhailovsky MV. Method of surgical

- treatment of sacral agenesis. Patent RU 2445033; appl. 13.09.2010; publ. 20.03.2012, Bull. 8. In Russian].
4. **Adra A, Cordero D, Mejides A, et al.** Caudal regression syndrome: etiopathogenesis, prenatal diagnosis, and perinatal management. *Obstet Gynecol Surv.* 1994;49:508–516.
 5. **Al Kaissi A, Klaushofer K, Grill F.** Caudal regression syndrome and popliteal webbing in connection with maternal diabetes mellitus: a case report and literature review. *Cases J.* 2008;1:407. doi: 10.1186/1757-1626-1-407.
 6. **Banta JV, Nichols O.** Sacral agenesis. *J Bone Joint Surg Am.* 1969;51:693–703.
 7. **Begum S, Shelim R, Begum T, et al.** Caudal regression syndrome – a case report and literature review. *J Bangladesh Coll Phys Surg.* 2011;29:166–169.
 8. **Cama A, Palmieri A, Capra V, et al.** Multidisciplinary management of caudal regression syndrome (26 cases). *Eur J Ped Surg.* 1996;6. Suppl 1:44–45.
 9. **Chen CP, Chen CY, Lin CY, et al.** Prenatal diagnosis of concomitant alobar holoprosencephaly and caudal regression syndrome associated with maternal diabetes. *Prenat Diagn.* 2005;25:264–266.
 10. **De Marco P, Merello E, Mascelli S, et al.** Mutational screening of the CYP26A1 gene in patients with caudal regression syndrome. *Birth Defects Res A Clin Mol Teratol.* 2006;76:86–95.
 11. **Diel J, Ortiz O, Losada RA, et al.** The sacrum: pathologic spectrum, multimodality imaging, and subspecialty approach. *Radiographics.* 2001;21:83–104.
 12. **Duczowska A, Bekiesinska-Figatowska M, Herman-Sucharska I, et al.** Magnetic resonance imaging in the evaluation of the fetal spinal canal contents. *Brain Dev.* 2011;33:10–20. doi: 10.1016/j.braindev.2010.01.003.
 13. **Garcia-Barcelo MM, Wong KK, Lui VC, et al.** Identification of a HOXD13 mutation in a VACTERL patient. *Am J Med Genet A.* 2008;146A:3181–3185. doi: 10.1002/ajmg.a.32426.
 14. **Goto MP, Goldman AS.** Diabetic embryopathy. *Curr Opin Pediatr.* 1994;6:486–491.
 15. **Guille JT, Benevides R, DeAlba CC, et al.** Lumbosacral agenesis: a new classification correlating spinal deformity and ambulatory potential. *J Bone Joint Surg Am.* 2002;84-A:32–38.
 16. **Hay WW Jr.** Care of the infant of the diabetic mother. *Curr Diab Rep.* 2012;12:4–15. doi: 10.1007/s11892-011-0243-6.
 17. **Herrmann J, Brauer M, Scheer I, et al.** Extrahepatic biliary atresia and caudal regression syndrome in an infant of a diabetic mother. *J Pediatr Surg.* 2004;39: E20–E22.
 18. **Lete J, Granese R, Jeanty P, et al.** Fetal syndromes. In: P.W.Callen, ed. *Ultrasonography in Obstetrics and Gynaecology*, 5th edition. Philadelphia: Saunders Elsevier, 2008:112–180.
 19. **Mihmanli I, Kurugoglu S, Kantarci F, et al.** Dorsolumbosacral agenesis. *Pediatr Radiol.* 2001;31: 286–288.
 20. **Nivelstein RA, Valk J, Smit LM, et al.** MR of the caudal regression syndrome: embryologic implications. *AJNR Am J Neuroradiol.* 1994;15:1021–1029.
 21. **Reece EA, Hobbins JC.** Diabetic embryopathy: pathogenesis, prenatal diagnosis and prevention. *Obstet Gynecol Surv.* 1986;41:325–335.
 22. **Renshaw TS.** Sacral Agenesis. In: *The Pediatric Spine – Principles and Practice*. Raven Press, New York, 1994:1:2214.
 23. **Renshaw TS.** Sacral agenesis. *J Bone Joint Surg Am.* 1978;60:373–383.
 24. **Rojansky N, Fasouliotis SJ, Ariel I, et al.** Extreme caudal agenesis. Possible drug-related etiology? *J Reprod Med.* 2002;47:241–245.
 25. **Semba K, Yamamura K.** Etiology of caudal regression syndrome. *Human Genet Embryol.* 2013;3:107. doi: 10.4172/2161-0436.1000107.
 26. **Sendhil CA, Sunitha VC, Vasavi K, et al.** Caudal regression syndrome: a rare case report. *Int J Res Med Sci.* 2014;2:344–346. doi: 10.5455/2320-6012.ijrms20140268.
 27. **Singh SK, Singh RD, Sharma A.** Caudal regression syndrome – case report and review of literature. *Pediatr Surg Int.* 2005;21:578–581.
 28. **Stewart JM, Stoll S.** Familial caudal regression anomaly and maternal diabetes. *J Med Genet.* 1979;16: 17–20.
 29. **Temizkan O, Abike F, Ayvac H, et al.** Prenatal diagnosed caudal regression syndrome. *Open Journal of Obstetrics and Gynecology.* 2013;3:227–231. doi: 10.4236/ojog.2013.32042.
 30. **Unsinn KM, Geley T, Freund MC, et al.** US of the spinal cord in newborns: spectrum of normal findings, variants, congenital anomalies, and acquired diseases. *Radiographics.* 2000;20:923–938.
 31. **Valenzano M, Paoletti R, Rossi A, et al.** Sirenomelia. Pathological features, antenatal ultrasonographic clues, and a review of current embryogenic theories. *Hum Reprod Update.* 1999;5:82–86.
 32. **Versiani BR, Gilbert-Barness E, Giuliani LR, et al.** Caudal dysplasia sequence: severe phenotype presenting in offspring of patients with gestational and pregestational diabetes. *Clin Dysmorphol.* 2004; 13:1–5.
 33. **Welch JP, Aterman K.** The syndrome of caudal dysplasia: a review, including etiologic considerations and evidence of heterogeneity. *Pediatr Pathol.* 1984;2, 313–327.

Адрес для переписки:

Семенов Александр Леонидович
630091, Новосибирск, ул. Фрунзе 17,
НИИТО,
ASemenov@niito.ru

Статья поступила в редакцию 26.05.2014

Александр Леонидович Семенов, врач-ортопед; Дмитрий Владимирович Рыжиков, канд. мед. наук; Михаил Витальевич Михайловский, д-р мед. наук, проф.; Васюра Александр Сергеевич, канд. мед. наук, Новосибирский НИИ травматологии и ортопедии им. Я.Л. Цивьяна.
Aleksandr Leonidovich Semenov, MD; Dmitry Vladimirovich Ryzhikov, MD, PhD; Mikhail Vitalyevich Mikhailovsky, MD, DMSc, Prof.; Aleksandr Sergeevich Vasuyura, MD, PhD, Novosibirsk Research Institute of Traumatology and Orthopaedics n.a. Ya.L. Tsiuyan.