

СПОСОБ СКРИНИНГА ДИСПЛАЗИИ СОЕДИНИТЕЛЬНОЙ ТКАНИ У ПОДРОСТКОВ

Калаева Г.Ю.¹, Хохлова О.И.¹, Деев И.А.²

¹Областной клинический центр охраны здоровья шахтеров, г. Ленинск-Кузнецкий

²Сибирский государственный медицинский университет, г. Томск

РЕЗЮМЕ

Цель исследования. На основании анализа встречаемости и значимости внешних признаков дисплазии соединительной ткани разработать диагностический вопросник для скрининга дисплазии соединительной ткани и оценки ее распространенности в популяции подростков.

Материал и методы. Обследовано 110 подростков в возрасте 10–14 лет, из них 81 – с дисплазией соединительной ткани (ДСТ) (первая группа). Вторую группу составили 29 подростков без ДСТ. Наличие и степень выраженности недифференцированной ДСТ устанавливали согласно критериям Т.И. Кадуриной, В.Н. Горбуновой (2009), Т. Милковска-Димитровой (1987). Проводили физикальное, лабораторное и инструментальное обследования. Статистическую обработку результатов проводили с использованием программы Statistica 6.0 и IBM SPSS Statistics 20.0. Диагностическую эффективность разработанного вопросника оценивали с помощью рабочей характеристической кривой (ROC-анализ).

Результаты. Установлена частая встречаемость внешних признаков ДСТ у подростков. Разработан диагностический вопросник, состоящий из 12 вопросов с наглядными рисунками, позволяющий быстро, с диагностической чувствительностью 81,5% и специфичностью 79,3% установить наличие диспластического фенотипа. Может быть рекомендован как для популяционных исследований, так и для скрининга ДСТ у подростков на первичном амбулаторном приеме педиатра. При положительном результате скрининга необходимо дальнейшее обследование для выявления органических изменений и уточнения диагноза.

КЛЮЧЕВЫЕ СЛОВА: дисплазия соединительной ткани, подростки, гипермобильность суставов.

Введение

Дисплазии соединительной ткани (ДСТ) посвящен ряд научных работ, что связано прежде всего как с ее высокой распространенностью, так и со значительным риском развития полиорганной патологии [1, 2, 3, 4]. Считается, что нарастание признаков ДСТ приходится на 11–14 лет, этот период некоторые авторы называют «критическим» для проявления данного состояния [5]. Однако до сих пор не существует единых стандартов выявления данного заболевания, что определяет значительную вариабельность имеющих в литературе сведений по его распростра-

ненности у детей и подростков и обуславливает невозможность их сопоставления. Так, по данным разных авторов, отдельные признаки ДСТ у лиц молодого возраста могут встречаться с частотой 14–85% [2, 6, 7].

Сложность диагностики обусловлена не только отсутствием общепринятых диагностических критериев, но и точного определения характера, количества и специфичности признаков [8]. При этом в основе верификации ДСТ лежат клинические данные [9]. Вместе с тем на практике существует некоторая неопределенность в оценке отдельных проявлений нарушений соединительной ткани, а часть из них оспаривается как маркеры ДСТ (в частности гипермобильность суставов, плоскостопие, сколиоз) [10]. Все вышеизложенное

✉ Калаева Ганна Юрьевна, e-mail: gannas.ru@mail.ru

придает актуальность проблеме поиска способов доступной донозологической диагностики этой патологии для оценки ее распространенности в популяции.

Целью данного исследования – на основании анализа встречаемости и значимости внешних признаков ДСТ разработать диагностический вопросник для скрининга дисплазии соединительной ткани и оценки ее распространенности в популяции подростков.

Материал и методы

Исследование проводилось согласно этическим принципам Хельсинкской декларации (2000), с информированного согласия подростков и их родителей. Схема исследования представлена на рис. 1.

В амбулаторных условиях был проведен осмотр 110 подростков в возрасте 10–14 лет (средний возраст $(11,9 \pm 1,40)$ лет), из них 57 мальчиков и 53 девочки. Наличие и степень недифференцированной ДСТ устанавливали, основываясь на критери-

ях, предложенных Т.И. Кадуриной, В.Н. Горбуновой (2009) [9], Т. Милковска-Димитровой [11].

В рамках выполнения мероприятий I этапа для выявления признаков ДСТ проводили объективный осмотр, включающий оценку пропорциональности длины и массы тела, состояния кожных покровов, внешних признаков изменений скелета. Физическое развитие оценивали по общепринятым критериям с использованием таблиц перцентильных величин массы (кг) при различной длине тела (см) среди подростков одного возраста и пола. Нормальными считали вариации в пределах 75 и 25 центилей [12]. Для оценки гармоничности физического развития рассчитывали по формулам индексы Кетле ($ИК = \text{масса тела (кг)} / \text{рост (м}^2\text{)}$) и индекс Варге ($ИВ = (\text{масса тела (г)} / \text{рост (см}^2\text{)}) - \text{возраст (годы)} / 100$). Избыточной считали массу тела при $ИК = 25-29 \text{ кг/м}^2$, ожирение диагностировали при $ИК \geq 30 \text{ кг/м}^2$. При значении ИВ в пределах 1,7–1,5 отмечали умеренное снижение массы тела, при 1,5 и ниже – выраженный дефицит массы тела [9].



Рис. 1. Схема исследования

При оценке состояния кожи у подростков обращали внимание на ее тонкость, вялость, растяжимость, наличие симптома «папиросной бумаги». Тонкую кожу диагностировали по видимой сосудистой сети на груди, спине, конечностях. Кожу расценивали как вялую при снижении естественной упругости и эластичности. О повышенной растяжимости кожи свидетельствовало безболезненное оттягивание на 2–3 см в области тыла кисти.

Для подтверждения долихостеномелии использовали следующие расчетные индексы: (соотношение длины кисти к росту $\times 100\%$) $> 11\%$; (соотношение длины стопы к росту $\times 100\%$) $> 15\%$; разность между величинами размаха рук и ростом > 7 см; соотношение верхнего сегмента тела к нижнему – 0,85 и менее.

Для выявления арахнодактилии использовали три теста: 1) тест большого пальца – большой палец легко укладывается поперек ладони и в этом положении выступает за ее ульнарный край; 2) тест запястья – подросток легко охватывает запястье мизинцем и большим пальцем; 3) длина среднего пальца кисти превышает 10 см.

Подвижность суставов оценивали по стандартным методикам Бейтона (9-балльная система) [13]. Показатель 1 балл означал патологическое переразгибание сустава на одной стороне, при величине суммы баллов 0–2 подвижность суставов расценивалась как физиологический вариант нормы; 3–5 баллов – умеренная гипермобильность суставов (ГС); 6–9 баллов – выраженная.

Патологию позвоночника подтверждали рентгенологически (по показаниям). Наличие, харак-

тер и степень плоскостопия определяли с помощью плантографического и рентгенологического методов. Диспластические изменения внутренних органов и сосудов выявляли ультразвуковыми методами (ультразвуковое исследование (УЗИ) органов брюшной полости, щитовидной железы, эхокардиография (ЭХО-КГ), дуплексное сканирование сосудов головного мозга).

В рамках II этапа с учетом анализа проведенного исследования были сформированы две группы подростков: с наличием ДСТ и без ДСТ (условно здоровые) (табл. 1). По соотношению мальчиков и девочек, возрасту, росту и массе тела группы статистически не отличались.

На III этапе исследования, проанализировав литературные сведения о диагностической значимости различных внешних признаков ДСТ и результаты собственного исследования, был составлен вопросник для скрининга ДСТ у подростков (табл. 2).

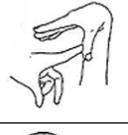
Таблица 1

Характеристика подростков, включенных в исследование			
Подростки с наличием ДСТ (n = 81)	Параметр	Подростки без ДСТ (n = 29)	p
39 (48,1)	Мальчики, абс. (%)	18 (62,1)	0,198 ($\chi^2=1,66$)
42 (51,9)	Девочки, абс. (%)	11 (37,9)	0,198 ($\chi^2=1,66$)
12,0 (10,5–13,0)	Возраст, годы	12,0 (11–13)	0,252
154,0 (145,25–162,25)	Рост, см	162,5 (144,25–170,50)	0,103
43,5 (35,75–51,75)	Вес, кг	43,0 (35,5–54,0)	0,535

Таблица 2

Вопросник для скрининга дисплазии соединительной ткани у подростков			
Вопрос	Рисунок	Да	Нет
Имеется ли у ребенка видимая сосудистая сеть (на груди, спине, конечностях) (тонкая кожа)		4	0
Возможно ли безболезненное оттягивание кожи на 2–3 см в области тыла кисти		5	0
Имеются ли грубые, выступающие рубцы после перенесенных операций или травм		3	0
Получается ли свернуть ушные раковины в трубочку		3	0
Какого цвета склеры у глазных яблок: – голубоватые – белые, желтоватые		4 0	0 0
Может ли ребенок: – уложить большой палец любой кисти поперек ладони так, чтобы он выступал за край ладони		2	0

О к о н ч а н и е т а б л . 2

Вопросник для скрининга дисплазии соединительной ткани у подростков			
– обхватить запястье кистью другой руки так, чтобы при этом мизинец и большой палец соприкасались		5	0
– отвести мизинец правой руки назад (с помощью другой руки) так, чтобы получился с кистью прямой угол		1	0
– отвести мизинец левой руки назад (с помощью другой руки) так, чтобы получился с кистью прямой угол		1	0
– согнуть кисть правой руки и коснуться большим пальцем до предплечья (с помощью другой руки)		1	0
– согнуть кисть левой руки и коснуться большим пальцем до предплечья (с помощью другой руки)		1	0
– коснуться ладонями пола при наклоне туловища вперед (при прямых ногах)		1	0
Сумма баллов			

При выборе маркеров ДСТ учитывали простоту, доступность, скорость, объективность и воспроизводимость тестов для их выявления. По предложенному вопроснику выраженность ГС может равна максимально 5 баллам. От тестов, отражающих переразгибание в коленных и локтевых суставах, решено было отказаться в связи с субъективностью визуальной оценки угла разгибания. Для выявления арахнодактилии включили в вопросник два теста – тест запястья и тест большого пальца. Вопросы сформулированы с использованием простых терминов, чтобы они были понятны как подросткам, так и их родителям. После заполнения вопросника и подсчета суммы баллов подростки были вновь распределены на группы. Основную группу составили 73 подростка с суммой баллов 13 и более, контрольную группу – 37 подростков с суммой баллов менее 13.

Статистическую обработку результатов проводили с использованием программы Statistica 6,0 и IBM SPSS Statistics 20.0. Проверку нормальности распределения количественных показателей выполняли с помощью критерия Колмогорова – Смирнова. Количественные данные представлены в виде $Me [LQ; UQ]$, где Me – медиана, $[LQ; UQ]$ – интерквартильный разброс (LQ – 25%, UQ – 75% квантили). Категориальные данные приведены в виде групповых долей с вычислением процентов. Для выявления различий между группами по количественным показателям использовали непа-

раметрический критерий Манна – Уитни. Межгрупповое сравнение категориальных данных осуществляли с учетом объема выборки с помощью критерия долей χ^2 или точного критерия Фишера (при количестве наблюдений менее 5). Различия считали статистически значимыми при $p < 0,05$. Пороговое значение и диагностическую эффективность разработанного диагностического вопросника оценивали с помощью рабочей характеристической кривой (ROC-анализ).

Результаты

Анализ клинических данных I этапа исследования показал, что у подростков с ДСТ наиболее часто встречаются гипермобильность суставов, асимметрия лопаток, мягкие ушные раковины, сколиоз I степени, долихостеномелия, тонкая кожа, голубые склеры (табл. 3). Редко отмечалось наличие келоидных рубцов, пигментации кожи над остистыми отростками, экхимозы и (или) носовые кровотечения. Девочки отличались от мальчиков более частой встречаемостью у них таких признаков, как тонкая кожа, ломкие ногти, тонкие волосы, гиперпигментация кожи над остистыми отростками, и более редкой встречаемостью нарушений прикуса и роста зубов. У подростков без ДСТ встречались долихостеномелия (37,9%) и сколиоз (37,9%).

Известно, что физическое развитие является одним из ведущих показателей состояния здо-

Т а б л и ц а 3

Клиническая характеристика подростков, включенных в исследование, в зависимости от наличия ДСТ

Признак	Подростки с наличием ДСТ (n = 81), абс. (%)	Подростки без ДСТ (n = 29), абс. (%)	$\chi^2_{\text{ид}}; P$
Физическое развитие:			
– ниже среднего	29 (35,8)	0 (0)	–
– выше среднего	5 (6,2)	0 (0)	
Избыток массы тела	6 (7,4)	0 (0)	–
Недостаток массы тела	19 (23,5)	0 (0)	–
Тонкая кожа	42 (51,8)	6 (20,7)	8,43; 0,0037
Гиперэластичность кожных покровов	29 (35,8)	5 (17,2)	3,45; 0,063
Келоидные рубцы	18 (22,2)	5 (17,2)	0,32; 0,571
Пигментация кожи над остистыми отростками	12 (14,8)	3 (10,3)	– ; 0,75
Экхимозы и (или) носовые кровотечения	3 (3,7)	3 (3,4)	– ; 0,186
Голубые склеры	44 (54,3)	7 (24,1)	7,82; 0,005
Тонкие, ломкие волосы	29 (35,8)	2 (6,9)	0,003
Ломкие, мягкие ногти	32 (39,5)	5 (17,2)	4,74; 0,029
Мягкие ушные раковины	61 (75,3)	9 (31,0)	18,1; < 0,001
«Готическое», высокое нёбо	37 (45,7)	8 (27,6)	2,89; 0,089
Аномалии прорезывания зубов	32 (39,5)	5 (17,2)	4,74; 0,029
Нарушение прикуса	29 (35,8)	10 (34,5)	0,02; 0,89
Асимметрия лопаток, вялая спина	63 (77,8)	8 (27,6)	23,5; 0,001
Долихостеномелия	49 (60,5)	11 (37,9)	4,38; 0,036
Арахнодактилия	30 (37,0)	5 (17,2)	3,86; 0,049
Гипермобильность суставов	81 (100)	0 (0)	–
Хруст в суставах	26 (32,1)	5 (17,2)	2,33; 0,127
Сколиоз	63 (77,8)	11 (37,9)	9,11; 0,0025
Плоскостопие	18 (22,2)	2 (6,9)	0,053

ровья подрастающего поколения [14]. Длина и масса тела, а также их соотношение являются важнейшими интегральными характеристиками морфофункционального статуса человека на протяжении всей его жизни [15]. При анализе антропометрических показателей установлено, что у 32% подростков с ДСТ отмечается физическое развитие ниже среднего, в то время как выше среднего наблюдается только у 12,2% подростков (см. табл. 3). У всех подростков без недифференцированной ДСТ физическое развитие было среднее гармоничное.

Согласованность регуляции ростовых процессов у подростков отражает пропорциональность телосложения, характеризующаяся массо-ростовыми индексами (Кетле, Варге). При их оценке у 31% подростков с ДСТ установлено дисгармоничное развитие преимущественно за счет выраженного дефицита массы тела: ИВ < 1,5 отмечался у 23,5%; гиперстенический тип телосложения выявлен у 7,4% подростков с ДСТ.

Одним из наиболее частых и явных проявлений ДСТ у детей считается ГС [10]; данный синдром в настоящем исследовании был выявлен только у подростков с ДСТ (см. табл. 3). При этом у 44% из них повышенная подвижность суста-

вов сопровождалась суставными болями, у 77,8% сочеталась с патологией позвоночника (преимущественно сколиозом I степени), у 22,2% – с плоскостопием. Гипермобильность суставов с одинаковой частотой наблюдалась и у девочек, и у мальчиков, однако у девочек выраженность данного синдрома была более значимой: средний балл (медиана) по шкале Бейтона у девочек составил 5,0 [3,0–8,0] у мальчиков – 4,0 [2,0–6,0] ($p = 0,015$). Приводимые в литературе сведения по распространенности этого синдрома у детей существенно варьируют: 3–65% [16, 17]. Различия, вероятно, обусловлены отсутствием единых диагностических критериев ГС у детей и подростков. Так, имеется мнение, что более приемлемо для диагностики ГС у детей использовать пороговое значение по шкале Бейтона, равное 7 баллам, поскольку традиционная оценка дает завышенные результаты [18]. Другие исследователи рекомендуют придерживаться стандартизированных критериев Бейтона [19].

Учитывая литературные данные и результаты собственного исследования, был разработан диагностический вопросник, апробацию которого провели на выборке подростков, осмотренных и обследованных в рамках I этапа (см. рис. 1). По

результатам самотестирования у 73 подростков сумма баллов составила 13 и более, они были включены в основную группу. У 37 подростков сумма баллов не превысила 12, они составили контрольную группу. По соотношению мальчиков и девочек группы не отличались друг от друга, причем это соотношение практически соответствовало таковому в группах I этапа (табл. 4). По частоте встречаемости отдельных маркеров ДСТ у подростков изучаемых групп существенной разницы не установлено.

Диагностическую эффективность разработанного вопросника оценивали путем анализа ха-

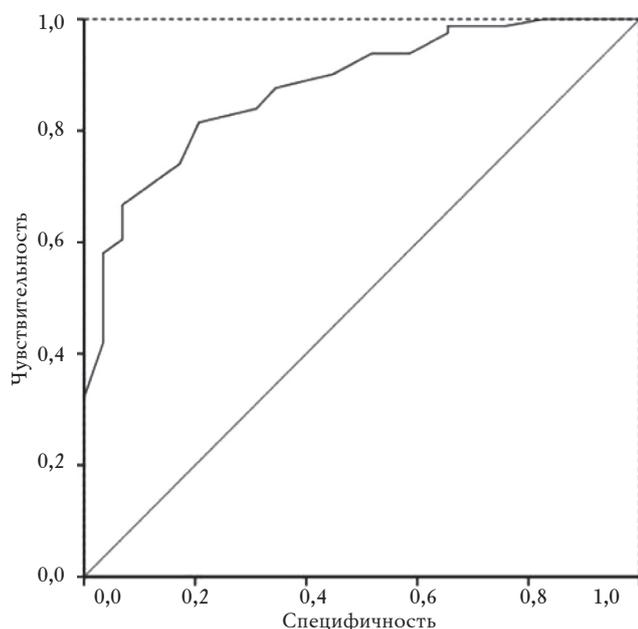


Рис. 2. Характеристическая кривая (ROC-кривая) зависимости чувствительности от специфичности при различных пороговых значениях суммы баллов

рактеристической кривой (ROC- анализ) (рис. 2). Площадь под кривой составила 0,877 (ДИ: 0,810–0,945; $p < 0,001$), что свидетельствует о достаточно высокой диагностической точности. По нашим данным, сумма баллов, равная 13 и более, позволяет установить наличие ДСТ и дает основание для дальнейшего обследования. Диагностическая чувствительность – 81,5%, диагностическая специфичность – 79,3%.

В отличие от известных диагностических шкал [9, 18], представленный вопросник состоит из оценки всего семи признаков недифференцированной ДСТ, которые отражены в 12 вопросах, сформулированных так, чтобы можно было ответить на них неспециалисту. Для наглядности часть вопросов дополнена рисунками. Все это делает анкету пригодной для популяционных исследований. Кроме того, предложенный вопросник может быть использован для скрининга ДСТ у подростков на первичном амбулаторном приеме педиатра (ограниченном, как известно, по времени), однако он не предназначен для нозологической диагностики.

Выделение только на основании клинической картины таких фенотипически схожих состояний, как марфаноидная внешность, марфаноподобный фенотип (MASS-фенотип), первичный пролапс митрального клапана, синдром Элерса – Данло и др. практически невозможно [9], особенно у детей и подростков вследствие существенного перекрытия отдельных симптомов, нечеткости и вариабельности их проявления. По мере роста в дальнейшем необходимо длительное наблюдение и тщательное обследование как самих детей, так и их родителей и других близких родственников.

Т а б л и ц а 4

Сравнительная характеристика подростков по результатам I и III этапа исследования				
Признак	Распределение подростков на I этапе, абс. (%)		Распределение подростков на III этапе, абс. (%)	
	Группа с ДСТ (n = 81)	Группа без ДСТ (n = 29)	Основная группа (n = 73)	Контрольная группа (n = 37)
Пол, девочки / мальчики, абс. (%)	42 / 39 (51,9 / 48,1)	11 / 18 (37,9 / 62,1)	38 / 35 (52,1 / 47,9)	15 / 22 (40,5 / 59,5)
Гипермобильность суставов, абс. (%)	81 (100)*	0 (0)	73 (100)#	4 (10,8)
Тонкая кожа, абс. (%)	42 (51,8)*	6 (20,7)	43 (58,9)#	5 (13,5)
Гиперэластичная кожа, абс. (%)	29 (35,8)*	5 (17,2)	33 (46,6)#	1 (2,7)
Келоидные рубцы, абс. (%)	18 (22,2)*	5 (17,2)	20 (27,4)#	3 (8,1)
Голубые склеры, абс. (%)	44 (54,3)*	7 (24,1)	47 (64,4)#	4 (10,8)
Мягкие ушные раковины, абс. (%)	61 (75,3)*	9 (31,0)	62 (84,9)#	8 (21,6)
Арахнодактилия, абс. (%)	30 (37,0)*	5 (17,2)	34 (46,6)#	1 (2,7)

* – статистически значимые различия между группами на I этапе; # – статистически значимые различия между группами на III этапе.

Обсуждение

У подростков с ДСТ наиболее часто встречаются гипермобильность суставов, асимметрия лопаток, нарушение осанки и (или) сколиоз, мягкие ушные раковины, тонкая кожа, долихостеномелия, голубые склеры, гиперэластичная кожа. Внешние клинические проявления ДСТ обусловлены патогенезом данного состояния, связанного с нарушением структуры и метаболизма основного белка соединительной ткани – коллагена [19]. Составляя более 30% общей массы тела, 50% запаса коллагена приходится на ткани скелета, 40% – на кожу и 10% – на строу внутренних органов. Наиболее выраженные изменения при ДСТ претерпевают ткани с высоким содержанием коллагена. Основными органами-мишенями являются кожа, опорно-двигательный аппарат, орган зрения, сердечно-сосудистая система [3]. Фенотипические проявления зависят от того, какой вид соединительной ткани преимущественно неполноценен. Изменения свойств кожи при ДСТ (повышенная растяжимость, истончение, «бархатистость») объясняются нарушениями ее строения: снижением доли толстых и увеличением количества тонких коллагеновых волокон, возрастанием количества основного вещества, фибробластов, эластических волокон [20]. Изменения опорно-двигательного аппарата при ДСТ связаны с поражением плотной оформленной соединительной ткани. Происходят нарушения строения хряща и задержка созревания эпифизарной зоны роста, что сопровождается удлинением трубчатых костей и клинически проявляется в виде различных аномалий строения скелета, обуславливая высокую распространенность патологий опорно-двигательного аппарата – долихостеномелии, арахнодактилии, сколиоза, плоскостопия [9, 21, 22].

Разработанный диагностический вопросник, состоящий из 12 вопросов с наглядными рисунками, позволяет быстро, с диагностической чувствительностью 81,5% и специфичностью 79,3% установить наличие диспластического фенотипа. Может быть рекомендован как для популяционных исследований, так и для скрининга ДСТ у подростков на первичном амбулаторном приеме педиатра. Положительный результат скрининга предполагает дальнейшее обследование для выявления органических изменений и уточнения диагноза.

Конфликт интересов

Авторы декларируют отсутствие явных и потенциальных конфликтов интересов, связанных с публикацией настоящей статьи.

Литература

1. *Арсентьев В.Г., Шабалов Н.П.* Дисплазия соединительной ткани у детей как конституциональная основа полиорганных нарушений: вопросы классификации, критерии диагностики // Вопросы практической педиатрии. 2011. Т 6. № 5. С. 59–65.
2. *Викторова И.А., Нечаева Г.И., Конев В.П. и др.* Клинико-прогностические критерии дисплазии соединительной ткани // Российские медицинские вести. 2009. № 1. С. 76–85.
3. *Иванова Е.А., Плотникова О.В., Глотов А.В. и др.* Профилактика потерь здоровья у лиц подросткового возраста с фенотипическими проявлениями дисплазии соединительной ткани // Казанский медицинский журнал. 2012. № 1. С. 93–97.
4. *Рахматуллина З.А., Выхристюк О.Ф., Русакова В.Д.* Дисплазии соединительной ткани и полиорганная патология у детей // Медицинская помощь. 2008. № 5. С. 29–31.
5. *Генова О.А.* Распространенность и некоторые клинико-патогенетические аспекты недифференцированной дисплазией соединительной ткани у подростков: Автореф. дис. ...канд. мед. наук. Хабаровск, 2011. 24 с.
6. *Арсентьев В.Г.* Дисплазии соединительной ткани у детей: этиология, классификация, клиника, критерии диагностики, принципы лечения // Детская медицина Северо-Запада. 2011. № 3. С. 43–52.
7. *Сидоров Г.А., Виноградов А.Ф., Корнюшо Е.М. и др.* Совершенствование диспансерного наблюдения детей с различной степенью дисплазии соединительной ткани // Вестник новых медицинских технологий. 2010. № 4. С. 136–139.
8. *Арсентьев В.Г., Асеев М.В., Баранов В.С. и др.* Исследование минеральной плотности костной ткани у детей и подростков с дисплазиями соединительной ткани // Педиатрия. 2010. № 5. С. 73–76.
9. *Кадурина Т.И., Горбунова В.Н.* Дисплазия соединительной ткани : руководство для врачей СПб., 2009. 704 с.
10. *Лапкин Ю.А.* Гипермобильность суставов в детской ортопедической практике // Дисплазия соединительной ткани. СПб.: Элби-СПб., 2009. Ч. II, гл. 1. С. 301–317.
11. *Милковска-Димитрова Т.* Врожденная соединительнотканная малостойкость у децатата. София, 1987. С. 89.
12. *Оценка основных антропометрических данных полового созревания и артериального давления у детей: методические рекомендации / под ред. Н.М. Воронцова. Л., 1984. 43 с.*
13. *Белозеров Ю.М., Османов И.М., Магомедова Ш.М.* Диагностика и классификация пролапса митрального клапана у детей и подростков // Кардиология. 2011. № 3. С. 63–67.
14. *Кретова И.Г., Русакова Н.В., Березин И.И. и др.* Состояние здоровья учащихся образовательных

- учреждений разного типа г. Самары // Педиатрия. 2011. № 1. С. 125–129.
15. Федотова Т.К. О специфике формирования соматического статуса детей от 7 до 16 лет // Педиатрия. 2005. № 5. С. 92–94.
16. Jansson A., Saartok T., Werner S. et al. General joint laxity in 1845 Swedish schoolchildren of different ages: age- and gender-specific distributions // Acta Paediatrica. 2004. V. 93. P. 1202–1206.
17. Adib N., Davies K., Grabame R. et al. Joint hyper mobility syndrome in childhood. A not so benign disorder? // Rheumatol. 2005. V. 44. P. 744–750.
18. Шабалов Н.П., Арсентьев В.Г. Наследственные болезни соединительной ткани (глава в руководстве) // Педиатрия: национальное руководство. В 2 т. М.: ГЭОТАР Медиа, 2009. Т. 1. С. 298–320.
19. Engelsman B., Klerks M., Kirby A. Beighton score: a valid measure for generalized hyper mobility in children // J. Pediatr. 2011. V. 158, № 1. P. 119–123.
20. Спивак Е.М., Комракова С.А. Минеральная плотность кости и особенности ее метаболизма при синдроме недифференцированной дисплазии соединительной ткани у детей // Вестник Ивановской медицинской академии. 2010. Т. 15, № 1. С. 36–38.
21. Bravo J.F., Wolff C. Clinical Study of Hereditary Disorders of Connective Tissues in a Chilean Population. Joint Hypermobility Syndrome and Vascular Ehlers-Danlos Syndrome // Arthritis & Rheumatism. 2006. V. 54, № 2. P. 515–523.
22. Калаева Г.Ю., Хохлова О.И. Недифференцированная дисплазия соединительной ткани у подростков // Российский вестник перинатологии и педиатрии. 2014. Т. 59, № 5. С. 52–58.

Поступила в редакцию 15.03.2016 г.

Утверждена к печати 15.03.2016 г.

Калаева Ганна Юрьевна (✉) – врач-педиатр детской поликлиники Областного клинического центра охраны здоровья шахтеров (г. Ленинск-Кузнецкий).

Деев Иван Анатольевич – д-р мед. наук, профессор кафедры факультетской педиатрии с курсом детских болезней лечебного факультета, проректор по развитию – первый проректор СибГМУ (г. Томск).

Хохлова Ольга Ивановна – д-р мед. наук, врач Областного клинического центра охраны здоровья шахтеров (г. Ленинск-Кузнецкий).

✉ **Калаева Ганна Юрьевна**, e-mail: gannas.ru@mail.ru

Областной клинический центр охраны здоровья шахтеров, 652509, г. Ленинск-Кузнецкий, Кемеровской обл., 7 микрорайон, д. 9, e-mail: info@gnkc.kuzbass.net.

Сибирский государственный медицинский университет, 634050, г. Томск, Московский тракт, 2, e-mail: office@ssmu.ru, тел. (382-2)-90-11-01.

SCREENING METHOD OF THE DYSPLASIA OF THE CONNECTIVE TISSUE IN ADOLESCENTS

Kalaeva G.Y., Khokhlova O.I., Deev I.A.²

¹ *Regional Clinical Center of the Miners' Health Protection, Leninsk-Kuznetsky, Russian Federation*

² *Siberian State Medical University, Tomsk, Russian Federation*

ABSTRACT

Aim of the study is to develop the diagnostic checklist based on the incidence and significance analysis of the external features of the dysplasia of the connective tissue (DCT) for its screening and assessment of its prevalence in the adolescents' population.

Materials and methods. 110 adolescents (aged from 10 to 14 years) were examined, 81 of them had the dysplasia of the connective tissue (the first group). The second group was presented by 29 adolescents without DCT. The presence and degree of manifestation of DCT were established according to the criteria of Kadurina T. I., Gorbunova V.N. (2009), T. Milkovska-Dimitrova (1987). There were the physical, laboratory and instrumental examination. Statistical processing of the results was carried out using Statistica 6.0 program and IBM SPSS

Statistics 20.0. The diagnostic efficiency of the developed checklist was appreciated by means of the receiver operating characteristic curve (ROC curve).

Results. The frequent occurrence of the DCT's external features in adolescents was identified. The diagnostic checklist was developed. It consisted of 12 items with illustrations, allowing readily identification of the dysplastic phenotype presence with diagnostic sensitivity 81.5% and specificity 79.3%. This checklist can be recommended as for the population studies, as for screening about DCT in adolescents during the primary outpatient pediatrician attendance. In the positive result of the screening it is necessary the further checkup to detect the organ changes and diagnosis updating.

KEY WORDS: undifferentiated dysplasia of the connective tissue, adolescents, joints' hypermobility.

Bulletin of Siberian Medicine, 2016, vol. 15, no. 2, pp. 35–44

References

1. Arsent'ev V.G., Shabalov N.P. Dysplasia of the connective tissue in children as the constitutional base of the multiple organs disorders: classification problems and diagnosis criteria // *Voprosy prakticheskoy pediatrii*, 2011, vol. 6, no 5. pp. 59–65 (in Russian).
2. Viktorova I.A., Nechaeva G.I., Konev V.P. et al. Clinical prognostic criteria of the dysplasia of the connective tissue // *Rossiyskie meditsinskie vesti*, 2009, vol. XIV, no 1, pp. 76–85 (in Russian).
3. Ivanova E.A., Plotnikova O.V., Glotov A.V. et al. Prevention of the health breakdown in adolescents with phenotypic signs of the dysplasia of the connective tissue // *Kazanskiy meditsinskiy zhurnal*, 2012, vol. 93, no 1. S. 93–97. (In Russian).
4. Rakhmatullina Z.A., Vykhristyuk O.F., Rusakova V.D. Dysplasia of the connective tissue and multi-organ pathology in children // *Meditsinskaya pomoshch'*, 2008, vol 5, pp. 29–31 (in Russian).
5. Genova O.A. Incidence and some clinical pathogenetic aspects of the undifferentiated dysplasia of the connective tissue in adolescents: avtoref. dis. ... kand. med. nauk. Khabarovsk, 2011. 24 p. (in Russian).
6. Arsent'ev V.G. Dysplasia of the connective tissue in pediatric patients: etiology, classification, clinical picture, diagnosis criteria, treatment principles // *Detskaya meditsina Severo-Zapada*, 2011, no 3, pp. 43–52 (in Russian).
7. Sidorov G.A., Vinogradov A.F., Kornusho E.M. i dr. Development of the dispensary observation of the pediatric patients with various degrees of the dysplasia of the connective tissue // *Vestnik novykh meditsinskikh tekhnologiy*, 2010, no 4, pp. 136–139 (in Russian).
8. Arsent'ev V.G., Aseev M.V., Baranov V.S. i dr. Investigation of the mineral density of the bony tissue in pediatric patients and in adolescents with dysplasia of the connective tissue // *Pediatriya*, 2010, no 5, pp. 73–76 (in Russian).
9. Kadurina T.I., Gorbunova V.N. Dysplasia of the connective tissue: guideline for the physicians. Sankt-Peterburg, 2009. 704 p. (in Russian).
10. Lapkin Yu.A. Hypermobility of the joints in the pediatric orthopedic practice // Kadurina T.I., Gorbunova V.N. *Dysplasia of the connective tissue*. SPb.: Elbi-SPb., 2009. Ch. II, Gl. 1. pp. 301–317 (in Russian).
11. Milkovska-Dimitrova T. Congenital failure of the connective tissue in children. Sofiya, 1987. 89 p. (in Bulgarian).
12. Appreciation of the main anthropometric data of the sexual development and arterial pressure in pediatric patients: guidelines / pod red. N.M. Vorontsova. L., 1984. 43 p. (in Russian).
13. Belozherov Yu.M., Osmanov I.M., Magomedova Sh.M. Diagnosis and classification of the mitral valve prolapse in children and adolescents // *Kardiologiya*, 2011, vol. 3, pp. 63–67 (in Russian).
14. Kretova I.G., Rusakova N.V., Berezin I.I. i dr. Health status of the students of the various types educational institutions in Samara // *Pediatriya*, 2011, no 1, pp. 125–129 (in Russian).
15. Fedotova T.K. About specificity of the somatic status formation in children aged from 7 to 16 years // *Pediatriya*, 2005, no 5, pp. 92–94 (in Russian).
16. Jansson A., Saartok T., Werner S. et al. General joint laxity in 1845 Swedish schoolchildren of different ages: age- and gender-specific distributions // *Acta Paediatr.* 2004. V. 93. pp. 1202–1206.
17. Adib N., Davies K., Grahame R. et al. Joint hypermobility syndrome in childhood. A not so benign disorder? // *Rheumatol.* 2005. V. 44. P. 744–750.
18. Shabalov N.P., Arsen'ev V.G. Hereditary diseases of the connective tissue // *Pediatriya: natsional'noe rukovodstvo: v 2-kh tomakh*. M.: GEOTAR Media, 2009. T. 1. pp. 298–320. (in Russian)
19. Smits-Engelsman B., Klerks M., Kirby A. Beighton score: a valid measure for generalized hyper mobility in children // *J. Pediatr.* 2011. V. 158, № 1. P. 119–123.
20. Spivak E.M., Komrakova S.A. Mineral bone density and characteristics of its metabolism in undifferentiated dysplasia of the connective tissue syndrome in children // *Vestnik Ivanovskoy meditsinskoy akademii*, 2010, vol. 15, no 1. pp. 36–38 (in Russian).

21. Bravo J.F., Wolff C. Clinical Study of Hereditary Disorders of Connective Tissues in a Chilean Population. Joint Hiper-mobility Syndrome and Vascular Ehlers-Danlos Syndrome // *Arthritis & Rheumatism*. 2006. V. 54, № 2. P. 515–523.
22. Kalaeva G.Yu., Khokhlova O.I. Undifferentiated dysplasia of the connective tissue in adolescents // *Rossiyskiy vestnik perinatologii i pediatrii*, 2014, vol. 59, no 5, pp. 52–58 (in Russian).

Kalaeva Ganna Y. (✉), Clinical Center of the Miners' Health Protection, Leninsk-Kuznetsky, Russian Federation.

Khokhlova Olga I., Regional Clinical Center of the Miners' Health Protection, Leninsk-Kuznetsky, Russian Federation.

Deev Ivan A., Siberian State Medical University, Tomsk, Russian Federation.

✉ **Kalaeva Ganna Y.**, e-mail: gannas.ru@mail.ru

Siberian State Medical University, 2 Moscow Trakt, Tomsk, 634050, e-mail: office@ssmu.ru, ph. (382-2)-90-11-01.

Regional Clinical Center of the Miners' Health Protection, 9, microrayon 7, Leninsk-Kuznetsky, Kemerovo Region, 652509, e-mail: info@gnkc.kuzbass.net.