

先天性上尺桡关节融合的研究进展

李建伟¹, 杨亚东^{2*}

¹赣南医科大学第一临床医学院, 江西 赣州

²赣南医科大学第一附属医院骨科, 江西 赣州

收稿日期: 2024年11月27日; 录用日期: 2024年12月21日; 发布日期: 2024年12月30日

摘要

先天性上尺桡关节融合是一种罕见的先天性疾病, 表现为前臂近端桡骨与尺骨之间异常融合, 导致前臂旋转功能受限。这种疾病与骨形态发生蛋白(BMP)信号通路的异常有关, 但其确切机制尚不清楚。制定科学的分类和筛查标准对于早期诊断和干预至关重要。目前, X线和CT扫描仍然是诊断CRUS的主要影像学工具。对于复杂病例, MRI在评估软组织结构异常方面也具有重要价值。在治疗方面, 选择方案需根据患者的个体功能需求制定。旋转截骨术已被证明是改善严重功能障碍的一种有效手术方法, 可显著提高患者的生活质量。然而, 对于症状较轻或功能需求较低的患者, 保守治疗和功能训练可能已足够满足其生活需求。建立先天性尺桡骨近端融合的分类系统和早期筛查方案是改善患者预后的关键。更深入地了解与这种疾病相关的遗传因素和BMP通路异常将利于更好地筛查管理以及制定更有效的治疗策略。

关键词

先天性上尺桡关节融合, 骨性畸形, 软骨发育, 进行性骨纤维化, BMP信号通路

Research Progress of Congenital Radioulnar Synostosis

Jianwei Li¹, Yadong Yang^{2*}

¹The First Clinical Medical College of Gannan Medical University, Ganzhou Jiangxi

²Department of Orthopedics, The First Affiliated Hospital of Gannan Medical University, Ganzhou Jiangxi

Received: Nov. 27th, 2024; accepted: Dec. 21st, 2024; published: Dec. 30th, 2024

Abstract

Congenital radioulnar synostosis (CRUS) is a rare condition characterized by abnormal fusion of the

*通讯作者。

文章引用: 李建伟, 杨亚东. 先天性上尺桡关节融合的研究进展[J]. 临床医学进展, 2024, 14(12): 1411-1417.
DOI: 10.12677/acm.2024.14123233

proximal radius and ulna, leading to restricted forearm rotation. This disorder is associated with abnormalities in the bone morphogenetic protein (BMP) signaling pathway, although the exact mechanism remains unclear. Developing robust classification and screening criteria is essential for early diagnosis and intervention. Currently, X-rays and CT scans are the primary diagnostic tools for CRUS. In complex cases, MRI provides additional value by evaluating soft tissue abnormalities. Treatment strategies should be tailored to the patient's functional needs. Rotational osteotomy has proven effective in addressing severe dysfunction, significantly enhancing patients' quality of life. For those with mild symptoms or lower functional demands, conservative management and functional training are often sufficient to maintain daily activities. Establishing a comprehensive classification system and early screening program is crucial to improving patient outcomes. Further research into the genetic underpinnings of CRUS, particularly BMP pathway abnormalities, will facilitate better diagnostic methods, management protocols, and innovative treatment strategies.

Keywords

Congenital Radioulnar Synostosis, Skeletal Deformities, Development of Cartilage, Progressive Bone Fibrosis, BMP Signaling Pathway

Copyright © 2024 by author(s) and Hans Publishers Inc.

This work is licensed under the Creative Commons Attribution International License (CC BY 4.0).

<http://creativecommons.org/licenses/by/4.0/>



Open Access

1. 介绍

先天性上尺桡关节融合(Congenital radioulnar synostosis, CRUS)是一种罕见的先天性畸形, 发病率约为 0.2% [1], 性别与疾病发病率之间没有显著关联[2]。其特征是桡骨近端和尺骨之间的异常骨性连接, 导致前臂旋转活动受限[3]。CRUS 通常遵循 X 连锁显性遗传模式, 常累及双肘关节[4]。CRUS 的诊断主要依靠临床检查和影像学技术, 如 X 线和 MRI, 以确定关节融合的严重程度[5]。建立新的分类和筛查标准对于 CRUS 的早期识别和治疗至关重要。如果不及时诊断和干预, CRUS 可继续发展从而导致更严重的日常活动功能障碍。

CRUS 患者常表现为腕关节活动受限、肘关节僵硬、握力下降。肘关节抬高角度异常、前臂缩短或畸形、不同程度的活动受限也很常见, 这些症状会严重影响日常功能, 如抓取物体或写作[3]-[8]。然而, 并非所有 CRUS 患者都需要手术干预; 有些可以通过相邻关节的代偿运动来适应[9]。CRUS 典型症状常发生在儿童期或青春期, 此时前臂旋转受限变得明显[10]。

关于 CRUS 发病机制的研究主要集中在其遗传学基础上。约 60% CRUS 为双侧发病, 约 9%有阳性家族史, 提示为常染色体显性遗传模式。近年来研究发现与 CRUS 相关的多个基因突变, 尤其是涉及骨形态发生蛋白(BMP)信号通路的基因突变, 但其确切机制尚不清楚。综上所述, CRUS 是一种复杂的先天性疾病, 对患者的功能和生活质量有重要影响。基因研究和早期诊断方案的进步对于改善结果和开发有效的治疗至关重要。了解 CRUS 相关的遗传学基础和信号通路将为更好地管理和治疗策略铺平道路。

2. 临床表现

CRUS 的严重程度可能不同, 主要症状包括前臂从手掌向下(旋前)旋转到手掌向上(旋后)的能力有限、腕关节活动受限、肘关节僵硬、握力下降。随着关节融合程度的发展可能表现为肘关节抬高角度异常, 前臂缩短或变形等。这些与关节融合相关的症状会显著影响日常活动, 如捡起物体或写字的能力。部分

患者症状较轻, 仅腕关节轻度压痛, 肘关节旋前、旋后活动中度受限, 其他部位无明显异常。因此, 并不是所有 CRUS 患者都需要手术治疗, 部分 CRUS 患者功能缺陷通常可以通过调节邻近关节(如腕关节和肩关节)的运动来补偿, 以满足日常需要[3] [6] [7] [11]。

CRUS 是一种由基因突变和单倍剂量不足引起的先天性疾病。大多数伴有桡尺关节早闭的 SMAD6 阳性携带者以双侧桡尺关节早闭为特征, 但也观察到单侧桡尺关节早闭[12] [13]。早期研究显示, 部分 CRUS 患者还可能出现四肢骨骼发育不良、肾脏和心脏异常等与非整倍体综合征相关的症状。部分患者可发生骨髓衰竭综合征(BMF), 表现为巨核细胞血小板减少症(RUSAT), 可进展为骨髓增生异常综合征和全血细胞减少症[14]-[16]。研究发现 MECOM (MDS1 和 EVI1 复合位点)的杂合突变与先天性无弹性血小板减少症和 CRUS 之间的罕见关联有关[16]。MECOM 编码锌指转录因子, 在正常发育和肿瘤发生中发挥重要作用, 并参与调控胚胎发育和造血干细胞更新。因此, 携带这些突变的个体表现出多种表型, 包括 BMF、骨骼畸形、心脏异常、肾脏异常、B 细胞缺陷和感音神经性耳聋[14]。

3. 发病机制

纵向分段失败是导致 CRUS 的原因之一, 桡骨和尺骨的骨骺原发骨化中心可在妊娠 9 周时通过超声波成像观察到, 桡骨和尺骨的近端继发骨化中心分别在桡骨和尺骨 3 岁和 9 岁左右出现[3]。桡骨近端和尺骨近端通常衔接形成一个滑膜枢轴关节, 即近端尺桡关节(PRUJ)。与桡骨远端关节一起, PRUJ 允许前臂通过前伸和上举运动进行旋转。在解剖学上, PRUJ 由尺骨桡侧切迹和桡骨头之间的关节组成。环状韧带包裹着桡骨头, 并附着在桡骨切迹的前缘, 为 PRUJ 提供旋转稳定性。桡侧副韧带、尺侧副韧带和附属侧副韧带进一步稳定了 PRUJ, 这些韧带与环状韧带共同组成了肘关节的侧副韧带复合体[17]。虽然侧副韧带复合体对前屈和后伸提供了生理性约束, 但在 CRUS 中突触的存在会导致前屈和后伸的病理性丧失, CRUS 与外侧副韧带复合体结构形成异常有关[11]。

目前关于 CRUS 的研究主要集中在发病机制, 尤其是遗传学方面。约 60% 的 CRUS 病例为双侧发病。20% 的病例有阳性家族史, 该病主要以常染色体显性方式遗传[2] [18]。此外, 一些研究者报道 CRUS 的发病率存在性别差异, 男性患病率更高, 尤其是具有多个 Y 染色体或 Y 染色体异常的患者[5] [8]。通过 24 项全基因组关联研究(GWAS)发现了与 CRUS 相关的多个基因突变, 这些基因突变可能会干扰骨形态发生蛋白(BMP)的产生和功能, 影响胚胎发育期间的正常骨发育, 阻止尺桡骨分离[19]。

除 BMP 外, 其他与 CRUS 相关的基因位点也可能影响正常的骨骼发育。Niïhori 等人最近发现 MECOM 复合体基因(编码 MDS1 和 EVI1)的错义突变与 CRUS 相关, 该突变也可导致巨幼细胞性血小板减少症[15]。报道还表明, 家族性特发性血小板减少症患者, 以及先天性桡骨近端和尺骨近端融合的患者, 通常有同源盒 A11 (HOXA11)基因突变[16]。另一项研究对 117 例尺桡关节散发融合的患者进行了外显子组测序, 发现了 SMAD6 基因的显著功能缺失变异, 提示上尺桡关节融合可能由 SMAD6 缺陷引起[13]。也有研究提示 CRUS 与 ZMAT2 基因突变存在潜在联系[19]。

CRUS 常合并其他影响四肢的先天性肌肉骨骼疾病和综合征, 如 Apert 综合征、关节挛缩和胎儿酒精综合征[8] [18]。CRUS 的发病机制还涉及胎儿环境和软骨表面之间屏障的破坏, 与 CRUS 易感性相关的基因和与软骨异常相关的基因之间有显著的重叠[5]。软骨异常的患者出现骨畸形, 提示软骨可能在 CRUS 的发生发展中也起着关键作用。

4. 分类标准

CRUS 是指尺桡骨近端未成功分离的融合, 主要影响肘关节的旋后和旋前运动。而前臂的畸形又很复杂, 它由几个独立的畸形组成, 包括桡骨畸形、尺骨畸形、桡骨和尺骨近端畸形, 以及桡骨和尺骨远

端的畸形等。这些独立的畸形与固定前臂旋转畸形的严重程度有关。Yang 等人通过对 48 例先天性上桡尺关节融合患者使用数字模型重建软件进行数字 3D 建模测量内旋、桡侧和背侧等成角畸形, 发现在 CRUS 引起的畸形中桡背角(DAR)和半径内旋角(IRAR)可能是影响前臂旋转畸形严重程度的最重要指标, 而尺骨内旋角(IRAU)和尺骨掌角(PAU)与前臂旋转角度的相关性不高[11]。这种局限性可以通过已建立的方法进行定量评估, 如在 X 线上测量桡骨旋前角[20]。

由于 CRUS 临床表现多样, 严重程度不一, 因此建立统一的分类系统对该病的诊断、治疗和预后评估至关重要。基于目前的病例研究, 四种不同的放射学类型已被确定, 常用 Cleary 和 Omer 分型系统进行分型: I 型: 纤维性融合; II 型: 无桡骨头脱位的骨性融合; III 型: 桡骨头发育不全伴骨性融合和后脱位; IV 型: 短骨性融合伴前脱位和蘑菇状桡骨头[6]。由于涉及骨髓的软组织异常通常与骨畸形同时存在, 这表明有必要同时对软组织和骨髓进行评估。最近, 中国多中心小儿骨科研究组(CMPOS)提出了一种基于 X 射线和磁共振成像(MRI)的新型分类系统将旋后肌纳入其中, 揭示了 MRI 测量的旋后肌体积与先天性 CRUS 影像学畸形之间的关系[21]。一项对被诊断为 CRUS 的儿童患者进行的回顾性研究发现, 虽然 CRUS 是一种罕见的前臂畸形, 但其影像学表现与临床前臂功能受限有一定的关系, 且 C&OIII 型分类的 CRUS 患者可能会出现严重的前臂前伸畸形, 需要尽早进行干预[22]。

5. 诊断原则

CRUS 是一种因前臂桡尺关节过早融合导致的先天性疾病, 表现为前臂旋转受限。轻度病例往往不易察觉, 因此诊断常延迟至学龄期或青春期, 随着患儿成长, 症状逐渐加重, 多数父母在孩子运动功能明显受限时才被确诊。

CRUS 的诊断以临床评估和影像学检查为主, X 线片是首选的诊断工具, 通常可以显示尺桡骨近端的融合、骨骼异常扭转或桡骨头脱位[7] [21]。对于复杂病例或需要进一步评估周围软组织时, MRI 和 CT 扫描可提供更详细的信息[23]。MRI 在软组织成像上具有优势, 有助于发现潜在的软组织损伤。对于年龄较小的 CRUS 患者, 因肘关节变化尚不明显, 影像学诊断可能较为困难, 建议进一步行 MRI 检查, 以便更全面地评估关节融合情况及周围软组织状态[21]。CT 三维重建有助于显示骨结构的完整视图, 能够直观展示骨关节的详细情况, 为复杂病例的手术规划提供支持[24]。新技术如 3D CT 和电磁感应技术则可以收集前臂运动数据, 使诊断更加精准[25]。这些影像学工具的进步使医生能够更全面地了解关节的解剖结构, 为制定个性化治疗方案奠定基础。

在 CRUS 患者的体格检查中, 常可见患侧前臂肌肉萎缩、前臂弯曲等异常, 结合病史及影像学结果, 通常能较快确诊[8]。数字化 X 线和三维 CT 对骨骼评估尤为重要, 而 MRI 在评估骨骼软组织和骨髓异常方面也不可或缺。此外, 鉴别诊断在排除其他潜在疾病方面至关重要, 如退行性骨病、脊柱疾病、弥漫性骨骼肥大等, 这些疾病可能在影像上与 CRUS 表现类似需要与之鉴别[5]。

6. 治疗原则

CRUS (先天性上桡尺关节融合征)的治疗具有挑战性, 其中严重畸形通常需要手术干预。传统方法如单纯分离融合术风险较高, 容易导致关节术后再次融合复发[26]。目前最常见的手术方式包括旋转截骨术、融合区分离结合游离筋膜脂肪瓣移植术等[26]-[28], 但其长期疗效仍具争议。对于有家族史的患者, 基因检测可辅助风险评估, 提供预防和干预策略。

针对 CRUS 的最佳治疗方法, 临床医生意见不一。部分专家认为, 骨骼畸形常伴有软组织畸形, 单纯手术难以完全恢复前臂旋转功能, 且术后关节再融合的风险较高[3] [6] [27]。常见术后并发症包括神经麻痹、前臂缺血性挛缩、截骨部位残余成角畸形及筋膜间隔综合征等[29]。对于症状较轻、仅单侧受累或

旋前角度较小的患者, 非手术治疗和功能训练可改善活动范围并促进正常发育。研究显示, 经过功能训练的患者在手功能方面显著改善。

在手术指征上尚无统一标准, 一些医生主张在活动受限或生活质量受影响时手术[18][30], 而另一部分医生建议等到桡骨骨骺闭合后再行手术, 以避免对骨生长的不良影响。旋转截骨术被认为是矫正前臂畸形的一种有效方法, 可帮助患者恢复日常生活能力[31]。对于 Cleary-Omer iv型患者, 桡骨头切除或置换术有助于改善肘关节功能[32]。

3D 打印技术和导航模块的引入提升了手术精度, 使微创手术成为可能[24][33]。Dong 等人[1]通过分析 6 例行外固定器重建前臂旋转功能的 CRUS 患者发现, 前臂旋转重建术是一种安全有效的手术方法且可以快速恢复前臂的部分旋转功能。然而, 尽管这些技术已取得一定成效, 术后效果仍需长期随访验证。创新疗法如基因治疗和干细胞疗法也在探索中, 基因治疗有望从根本上改变病程, 而干细胞疗法为组织再生提供更多治疗选择[14]。

7. 疾病的研究进展及未来展望

CRUS 是一种罕见而复杂的先天性疾病, 对前臂旋转功能和患者生活质量有显著影响。本文系统综述了 CRUS 的流行病学、临床表现、发病机制及诊断方法, 强调了其高度遗传性和多基因突变的关联, 尤其是骨形态发生蛋白(BMP)信号通路异常在其中的重要作用。早期诊断和干预对于改善患者预后至关重要, 目前影像学技术, 如 X 射线和 CT 扫描, 仍是主要的早期诊断手段[5]。

治疗策略需根据患者的具体功能需求来制定, 部分轻症患者可通过非手术干预来维持良好的功能状态。然而, 对于那些严重影响日常生活的患者, 旋转截骨术已被证明是一种有效的手术治疗方法, 有助于恢复部分前臂旋转功能, 显著改善生活质量[31]。

未来的研究应着重于进一步阐明 CRUS 的遗传学基础, 特别是 BMP 信号通路异常在发病中的作用, 以增强对疾病机制的理解。这种深入认识将有助于开发更具针对性的治疗策略和预防手段, 从而为患者提供更好的长期管理和干预选择。此外, 建立标准化的分型和筛查体系将有助于早期识别高危个体, 从而实现更精确的风险评估和干预[34]。

随着基因研究的进展, 未来的目标还应包括探索 CRUS 的潜在基因治疗方法, 以期在分子层面上解决发病根源。结合最新的影像学和生物技术创新, 有望为 CRUS 患者提供更多的治疗选择和改善生活质量的机会。

参考文献

- [1] Dong, Y., Xu, J., Wang, F., Jia, Y., Feng, G., Liu, Y., *et al.* (2024) Observation on the Effect of Reconstruction of the Forearm Rotation Function with an External Fixator in the Treatment of Congenital Radioulnar Synostosis. *Journal of Orthopaedic Surgery and Research*, **19**, Article No. 625. <https://doi.org/10.1186/s13018-024-05112-0>
- [2] Li, Y., Olisova, K., Chen, Y., Chang, C. and Chang, T. (2023) Congenital Radioulnar Synostosis: Is Prenatal Diagnosis possible? A Case Report. *Journal of Obstetrics and Gynecology*, **62**, 334-335. <https://doi.org/10.1016/j.tjog.2022.09.011>
- [3] Rutkowski, P.T. and Samora, J.B. (2021) Congenital Radioulnar Synostosis. *Journal of the American Academy of Orthopaedic Surgeons*, **29**, 563-570. <https://doi.org/10.5435/jaaos-d-20-01133>
- [4] Alsharif, M.H.K., Almasaad, J.M., Taha, K.M., Elamin, A.Y., Bakhit, N.M., Nouredin, M.A., *et al.* (2020) Congenital Radioulnar Synostosis Presenting in Adulthood. A Case Report. *Pan African Medical Journal*, **36**, Article 75. <https://doi.org/10.11604/pamj.2020.36.75.21413>
- [5] Jia, Y., Geng, C., Song, Z., Lv, S. and Dai, B. (2020) Congenital Unilateral Proximal Radioulnar Synostosis. *Medicine*, **99**, e19782. <https://doi.org/10.1097/md.00000000000019782>
- [6] Chandoga, I., Petrović, R., Varga, I., Šteňo, B. and Šteňová, E. (2023) Congenital Proximal Radioulnar Synostosis in an Elite Athlete-Case Report. *Medicina*, **59**, Article 531. <https://doi.org/10.3390/medicina59030531>

- [7] Iyoko, I.K., Iyoko, I.I., Essien, M.A. and Henshaw, J.E. (2020) Congenital Proximal Radioulnar Synostosis—A Case Report. *Radiology Case Reports*, **15**, 1313-1316. <https://doi.org/10.1016/j.radcr.2020.05.070>
- [8] Alabau-Rodriguez, S., Garrido Ferrer, J.F., Bulló Mir, X., Martín Dominguez, L.A., Pardo Pol, A. and Soldado Carrera, F. (2024) Congenital Radioulnar Synostosis Review: Recommendations and Treatment Outcomes. *Children*, **11**, Article 1317. <https://doi.org/10.3390/children11111317>
- [9] Yang, Z., Ni, J., Long, Z., Kuang, L. and Tao, S. (2020) Unusual Presentation of Congenital Radioulnar Synostosis with Osteoporosis, Fragility Fracture and Nonunion: A Case Report and Review of Literature. *World Journal of Clinical Cases*, **8**, 1538-1546. <https://doi.org/10.12998/wjcc.v8.i8.1538>
- [10] Chen, Y., Kuo, K.N., Takagi, T., Takayama, S., Shih, P. and Chang, C. (2023) A New Technique for Separating Radioulnar Synostosis with Vascularized Flap: A Case Report. *JSES International*, **7**, 709-713. <https://doi.org/10.1016/j.jseint.2023.03.016>
- [11] Yang, C., Liu, L., Wei, Q., Bai, F. and Chen, S. (2023) Quantitative Analysis of Deformity in Digital Model of Congenital Radioulnar Synostosis. *Orthopaedic Surgery*, **15**, 1348-1356. <https://doi.org/10.1111/os.13701>
- [12] Shen, F., Yang, Y., Li, P., Zheng, Y., Luo, Z., Fu, Y., *et al.* (2021) A Genotype and Phenotype Analysis of smad6 Mutant Patients with Radioulnar Synostosis. *Molecular Genetics & Genomic Medicine*, **10**, e1850. <https://doi.org/10.1002/mgg3.1850>
- [13] Yang, Y., Zheng, Y., Li, W., Li, L., Tu, M., Zhao, L., *et al.* (2019) SMAD6 Is Frequently Mutated in Nonsyndromic Radioulnar Synostosis. *Genetics in Medicine*, **21**, 2577-2585. <https://doi.org/10.1038/s41436-019-0552-8>
- [14] Huang, D., Jiang, M., Zhu, Y., Li, D., Lu, X. and Gao, J. (2024) A Novel Missense Mutation in the MECOM Gene in a Chinese Boy with Radioulnar Synostosis with Amegakaryocytic Thrombocytopenia. *BMC Pediatrics*, **24**, Article No. 62. <https://doi.org/10.1186/s12887-024-04552-1>
- [15] Nagai, K., Niihori, T., Muto, A., Hayashi, Y., Abe, T., Igarashi, K., *et al.* (2023) mecom Mutation Related to Radioulnar Synostosis with Amegakaryocytic Thrombocytopenia Reduces Hsps in Mice. *Blood Advances*, **7**, 5409-5420. <https://doi.org/10.1182/bloodadvances.2022008462>
- [16] Niihori, T., Ouchi-Uchiyama, M., Sasahara, Y., Kaneko, T., Hashii, Y., Irie, M., *et al.* (2015) Mutations in MECOM, Encoding Oncoprotein EVI1, Cause Radioulnar Synostosis with Amegakaryocytic Thrombocytopenia. *The American Journal of Human Genetics*, **97**, 848-854. <https://doi.org/10.1016/j.ajhg.2015.10.010>
- [17] Rubin, G., Rozen, N. and Bor, N. (2013) Gradual Correction of Congenital Radioulnar Synostosis by an Osteotomy and Ilizarov External Fixation. *The Journal of Hand Surgery*, **38**, 447-452. <https://doi.org/10.1016/j.jhsa.2012.10.037>
- [18] Mehta, G., Agrawal, T., Jain, D. and Singh, S. (2023) Congenital Radioulnar Synostosis: A Case Report and Review of Various Osteotomies. *Journal of Orthopaedic Case Reports*, **13**, 117-121. <https://doi.org/10.13107/jocr.2023.v13.i11.4028>
- [19] Suzuki, T., Nakano, M., Komatsu, M., Takahashi, J., Kato, H. and Nakamura, Y. (2020) ZMAT2, a Newly-Identified Potential Disease-Causing Gene in Congenital Radioulnar Synostosis, Modulates BMP Signaling. *Bone*, **136**, Article 115349. <https://doi.org/10.1016/j.bone.2020.115349>
- [20] Kanaya, F., Kinjo, M., Nakasone, M., Okubo, H., Miyagi, W. and Nishida, K. (2023) Preoperative Radius Head Dislocation Affects Forearm Rotation after Mobilization of Congenital Radioulnar Synostosis. *Journal of Orthopaedic Science*, **28**, 1285-1290. <https://doi.org/10.1016/j.jos.2022.10.008>
- [21] Li, J., Chen, K., Wang, J., Guo, Y., Rai, S., Tang, X., *et al.* (2022) An Anatomical Classification of Congenital Proximal Radioulnar Synostosis Based on Retrospective MRI Measurement Combined with Radiography. *Scientific Reports*, **12**, Article No. 6585. <https://doi.org/10.1038/s41598-022-09411-6>
- [22] Hong, P., Tan, W., Zhou, W., Zheng, Y., Li, J., Zheng, P., *et al.* (2023) The Relation between Radiographic Manifestation and Clinical Characteristics of Congenital Radioulnar Synostosis in Children: A Retrospective Study from Multiple Centers. *Frontiers in Pediatrics*, **11**, Article 1117060. <https://doi.org/10.3389/fped.2023.1117060>
- [23] Nakasone, M., Nakasone, S., Kinjo, M., Murase, T. and Kanaya, F. (2018) Three-Dimensional Analysis of Deformities of the Radius and Ulna in Congenital Proximal Radioulnar Synostosis. *Journal of Hand Surgery (European Volume)*, **43**, 739-743. <https://doi.org/10.1177/1753193417753261>
- [24] Zhang, Z.Q., Hu, X.Y., Yuan, H.J. and Zheng, P.F. (2021) Application of 3-Dimensional Printing Technology in Rotational Osteotomy of Congenital Radioulnar Synostosis. *The Journal of Hand Surgery*, **46**, 924.e1-924.e6. <https://doi.org/10.1016/j.jhsa.2020.12.004>
- [25] Guo, X., Liang, X., Jin, J., Chen, J., Liu, J., Qiao, Y., *et al.* (2021) Three-Dimensional Computed Tomography Mapping of 136 Tongue-Type Calcaneal Fractures from a Single Centre. *Annals of Translational Medicine*, **9**, 1787-1787. <https://doi.org/10.21037/atm-21-6168>
- [26] Barik, S., Farr, S., Gallone, G., Zarantonello, P., Trisolino, G. and Di Gennaro, G.L. (2020) Results after Treatment of Congenital Radioulnar Synostosis: A Systematic Review and Pooled Data Analysis. *Journal of Pediatric Orthopaedics*

- B, **30**, 593-600. <https://doi.org/10.1097/bpb.0000000000000841>
- [27] Bai, F., Chen, S., Liu, L., Tong, D., Li, P., Rong, Y., *et al.* (2022) Treatment of Congenital Radioulnar Synostosis Using a Free Vascularized Fascia Lata Graft. *Orthopaedic Surgery*, **14**, 1229-1234. <https://doi.org/10.1111/os.13226>
 - [28] Hamiti, Y., Yushan, M., Yalikun, A., Lu, C. and Yusufu, A. (2022) Derotational Osteotomy and Plate Fixation of the Radius and Ulna for the Treatment of Congenital Proximal Radioulnar Synostosis. *Frontiers in Surgery*, **9**, Article 888916. <https://doi.org/10.3389/fsurg.2022.888916>
 - [29] Nema, S.K., Ramasubramani, P., Pasupathy, P. and Austine, J. (2022) Corrective Derotation Osteotomies to Treat Congenital Radioulnar Synostosis in Children: Results of a Systematic Review and Meta-Analysis. *Indian Journal of Orthopaedics*, **56**, 717-740. <https://doi.org/10.1007/s43465-021-00582-4>
 - [30] Satake, H., Kanauchi, Y., Kashiwa, H., Ishigaki, D., Takahara, M. and Takagi, M. (2018) Long-Term Results after Simple Rotational Osteotomy of the Radius Shaft for Congenital Radioulnar Synostosis. *Journal of Shoulder and Elbow Surgery*, **27**, 1373-1379. <https://doi.org/10.1016/j.jse.2018.04.012>
 - [31] Pei, X. and Han, J. (2019) Efficacy and Feasibility of Proximal Radioulnar Derotational Osteotomy and Internal Fixation for the Treatment of Congenital Radioulnar Synostosis. *Journal of Orthopaedic Surgery and Research*, **14**, Article No. 81. <https://doi.org/10.1186/s13018-019-1130-0>
 - [32] Giannicola, G., Spinello, P., Villani, C. and Cinotti, G. (2020) Post-Traumatic Proximal Radioulnar Synostosis: Results of Surgical Treatment and Review of the Literature. *Journal of Shoulder and Elbow Surgery*, **29**, 329-339. <https://doi.org/10.1016/j.jse.2019.07.026>
 - [33] Guo, Y., Tian, G., Zlotolow, D.A., Tian, W., Zhong, W. and Sun, L. (2019) A Cadaveric Study on the Accuracy of an Individualized Guiding Template to Assist Scaphoid Fixation Using Computed Tomography and 3-Dimensional Printing. *The Journal of Hand Surgery*, **44**, 251.e1-251.e6. <https://doi.org/10.1016/j.jhsa.2018.06.017>
 - [34] Goldfarb, C.A., Torres, B., Steinman, S., Wang, A., Vuillermin, C. and Wall, L.B. (2024) Patient and Caregiver Impressions of the Impact of Madelung Deformity: A Could Registry Analysis. *The Journal of Hand Surgery*, **49**, 772-778. <https://doi.org/10.1016/j.jhsa.2024.01.019>