

Aus dem Fachbereich Medizin
der Johann Wolfgang Goethe-Universität

Frankfurt am Main

betreut am

Zentrum der Kinder- und Jugendmedizin

Klinik für Kinderheilkunde und Jugendmedizin

Direktor: Prof. Dr. Jan-Henning Klusmann

When your ankle becomes a knee - a clinical study on long-term functional outcome and quality of life with a rotationplasty after resection of malignant limb tumors.

Dissertation

zur Erlangung des Doktorgrades der Medizin

des Fachbereichs Medizin

der Johann Wolfgang Goethe-Universität Frankfurt am Main

vorgelegt von

Jennifer Gotta

aus Aschaffenburg

Frankfurt am Main, 2022

Aus dem Fachbereich Medizin
der Johann Wolfgang Goethe-Universität

Frankfurt am Main

betreut am

Zentrum der Kinder- und Jugendmedizin

Klinik für Kinderheilkunde und Jugendmedizin

Direktor: Prof. Dr. Jan-Henning Klusmann

When your ankle becomes a knee - a clinical study on long-term functional outcome and quality of life with a rotationplasty after resection of malignant limb tumors.

Dissertation

zur Erlangung des Doktorgrades der Medizin

des Fachbereichs Medizin

der Johann Wolfgang Goethe-Universität Frankfurt am Main

vorgelegt von

Jennifer Gotta

aus Aschaffenburg

Frankfurt am Main, 2022

Dekan:	Prof. Dr. Stefan Zeuzem
Referent:	Prof. Dr. Thomas Klingebiel
Korreferent:	Prof. Dr. Dirk Günter Henrich
Tag der mündlichen Prüfung:	20.07.2022

INHALTSVERZEICHNIS

ZUSAMMENFASSUNG IN DEUTSCHER SPRACHE	4
ZUSAMMENFASSUNG IN ENGLISCHER SPRACHE	6
ABKÜRZUNGSVERZEICHNIS.....	8
ÜBERGREIFENDE ZUSAMMENFASSUNG.....	9
ÜBERSICHT DER ZUR VERÖFFENTLICHUNG ANGENOMMENEN PUBLIKATION(EN).....	19
PUBLIKATION	20
DARSTELLUNG DES EIGENEN ANTEILS.....	37
LITERATURVERZEICHNIS.....	38
ANHANG	44
LEBENS LAUF	60
DANKSAGUNG	64
SCHRIFTLICHE ERKLÄRUNG	65

ZUSAMMENFASSUNG IN DEUTSCHER SPRACHE

Das Osteosarkom ist einer der am häufigsten auftretenden primären bösartigen Knochentumore bei Kindern.

Durch die Einführung einer multidisziplinären Therapie einschließlich neoadjuvanter und adjuvanter Therapie überlebt eine zunehmende Anzahl von Patienten maligne Knochentumore.

Durch die steigenden Überlebensraten werden Studien zu Langzeitergebnissen dieser Patienten im Hinblick auf die Lebensqualität und das funktionelle Ergebnis immer wichtiger, um eine patientenspezifische chirurgische Entscheidung treffen zu können.

Heutzutage werden maligne Knochentumore im Bereich des Knies in der Regel mit einem endoprothetischen Ersatz behandelt. Allerdings müssen auch andere Behandlungsoptionen, wie die primäre Amputation oder die Borggreve-Umkehrplastik mit ihren Vor- und Nachteilen in Betracht gezogen werden.

Die Herausforderung für Ärzte, Patienten und Eltern besteht darin, die für den jeweiligen Patienten beste Operationsmethode zu finden, die maximale Heilungschancen mit einem akzeptablen kosmetischen Ergebnis, einem hohen funktionellen Ergebnis und einer hohen Lebensqualität für den Patienten verbindet.

In der vorliegenden Studie wurden die Langzeitergebnisse der Borggreve-Umkehrplastik nach Resektion maligner Knochentumore im Hinblick auf das funktionelle Ergebnis und die Lebensqualität untersucht, um einen besseren Vergleich mit anderen Behandlungsoptionen in der Knochenkrebsbehandlung zu ermöglichen. Diese Ergebnisse können Ärzten, Eltern und Patienten als Entscheidungshilfe der unterschiedlichen chirurgischen Therapieoptionen dienen.

Vor diesem Hintergrund wurden 135 Patienten, die sich aufgrund eines Knochensarkoms im Bereich des Knies einer Borggreve-Umkehrplastik Operation unterzogen hatten, mit Hilfe der Cooperativen Osteosarkom-Studie der Deutschen Gesellschaft für Pädiatrische Onkologie und Hämatologie (COSS-Studie) zur Teilnahme an dieser Studie eingeladen.

Die Daten wurden anhand von Fragebögen ermittelt. Das funktionelle Ergebnis wurde mit dem Musculoskeletal Tumor Society Score (MSTS) und der Tegner Aktivitätslevel Skala beurteilt. Die gesundheitsbezogene Lebensqualität (HRQL) wurde mit Hilfe des Short- Form - Health Survey (SF-36) analysiert.

Die klinischen und demografischen Merkmale der Patienten wurden ebenfalls mit Hilfe des Fragebogens ermittelt.

Die Auswertung der Langzeitergebnisse mit einer mittleren Nachbeobachtungszeit von 23 Jahren (Spannweite 10-47Jahre) zeigte, dass Patienten, die mit einer Borggreve-Umkehrplastik behandelt wurden, ein hohes Aktivitätsniveau erreichen (mittlerer MSTS-Score von 23, Median von 24). Sogar eine Rückkehr zum Sport auf hohem Niveau ist möglich (mittlere Tegner-Aktivitätsskala von 4). Die Dauer der Nachbeobachtung hatte keinen Einfluss auf das funktionelle Ergebnis.

In Bezug auf die gesundheitsbezogene Lebenszufriedenheit (HRQL) zeigten sich vergleichbare Ergebnisse zur allgemeinen deutschen Bevölkerung. In der Altersgruppe 18-29 zeigten sich signifikant höhere Scores in den Subskalen körperliche Rollenfunktion (PR), körperliche Schmerzen (BP), Vitalität (VT) und der psychischen Summenskala (MCS).

Die in der Literatur oft erwähnten Befürchtungen von psychologischen Problemen aufgrund des ungewöhnlichen Aussehens des gedrehten Fußes haben sich nicht bestätigt. 88% würden sich wieder für die Borggreve-Umkehrplastik als Operationsmethode entscheiden.

Zusammenfassend lässt sich sagen, dass die Borggreve-Umkehrplastik eine gute Wiederherstellung der Funktion ermöglicht. Die Borggreve-Umkehrplastik war nicht mit langfristigen Nachteilen in Bezug auf das funktionelle Ergebnis und der Lebenszufriedenheit verbunden. Sie ist eine gute Alternative zum endoprothetischen Ersatz oder zur Amputation, nicht nur als Primäreingriff, sondern auch als Sekundäreingriff nach Versagen des endoprothetischen Ersatzes. Insbesondere bei Kindern im Wachstumsalter und bei sehr aktiven Patienten sollte die Borggreveplastik in Betracht gezogen werden.

ZUSAMMENFASSUNG IN ENGLISCHER SPRACHE

Osteosarcoma is one of the most frequently occurring primary malignant bone tumors in children.

Due to the implementation of a multidisciplinary treatment including neoadjuvant and adjuvant therapy, an increasing number of patients survive malignant bone tumors.

This increasing number of malignant bone tumor survivors leads to an increasing importance to assess the long-term results of these patients regarding functional outcome and quality of life.

Nowadays malignant bone tumors around the knee are usually treated with endoprosthetic replacement or limb salvage surgery. However other treatment options like primary amputation or rotationplasty need to be considered with their advantages and disadvantages.

The challenge for doctors, patients and parents is to find the best type of surgery that will combine maximum chances of cure with an acceptable cosmetic outcome, high functional outcome and high quality of life for the patient.

The present study assessed the long-term results of rotationplasty after resection of malignant bone tumors regarding functional outcome and quality of life to allow better comparison with other treatment options in bone cancer treatment. These results may help physicians, parents and patients to find the right choice of surgery.

Against this background, 135 patients who underwent rotationplasty surgery due to a bone sarcoma around the knee were identified in the database of the Cooperative Osteosarcoma Study of the German Society for Pediatric Oncology and Hematology (COSS-Study). The last known treating physicians of these patients were contacted by COSS and were asked to inform their patients about the study. The data were identified through the questionnaires. The functional outcome was assessed with the Musculoskeletal Tumor Society Score (MSTS) and the Tegner Activity Level scale. Health related quality of life (HRQL) was assessed by using the Short -Form -Health -Survey (SF-36). The patient´s clinical and demographic characteristics were also identified through the questionnaire.

The evaluation of long-term outcome with a mean follow-up of 23 years (range 10-47 years) showed that patients treated with rotationplasty achieve a high level of activity (mean MSTS score of 23, median of 24). Even a return to high level sports is possible (mean Tegner Activity Level Scale of 4). The duration of follow-up did not influence the functional outcome.

It has been shown that HRQL was comparable to the general German population. The age group 18-29 showed significantly higher scores in the subscales Physical role functioning (PR), Bodily pain (BP), Vitality (VT), Mental Health Component Summary score (MCS).

Often mentioned concerns that the unusual appearance of the rotated foot may cause psychological problems haven't been confirmed. 88% would choose rotationplasty as treatment option again.

In conclusion, rotationplasty provides a good restitution of function. Rotationplasty was not related with any long-term disadvantages regarding functional outcome and HRQL. It is a good alternative to endoprosthesis replacement or amputation. Particularly for very active patients and growing children rotationplasty should be considered.

ABKÜRZUNGSVERZEICHNIS

SF-36	Short-Form-Health -Survey 36
MSTS	Musculoskeletal Tumor Society <i>Score</i>
ROM	Range of motion
HRQL	Health related quality of life
COSS	Cooperative Osteosarcoma Study Group
PF	Physical functioning
PR	Physical role functioning
BP	Bodily pain
GH	General health
VT	Vitality
SR	Social role functioning
ER	Emotional role functioning
PCS	Physical Component Summary score
MCS	Mental Health Component Summary score

ÜBERGREIFENDE ZUSAMMENFASSUNG

Einleitung

Mit einer Inzidenz von 0,3/100.000 pro Jahr ist das Osteosarkom der häufigste maligne Knochentumor im Kindesalter ^{1 2 3}.

Die Einführung einer multidisziplinären Therapie einschließlich neoadjuvanter und adjuvanter Therapie hat dazu geführt, dass immer mehr Patienten einen bösartigen Knochentumor überleben⁴. Durch die steigende Zahl von Überlebenden gewinnt die Beurteilung der Langzeitergebnisse hinsichtlich des funktionellen Ergebnisses und der Lebensqualität immer mehr an Bedeutung. Die Behandlung von Patienten mit malignen Knochentumoren beinhaltet neben der neoadjuvanter und adjuvanter Chemotherapie die chirurgische Resektion des Tumors.

Heutzutage können die meisten der malignen Knochentumore der unteren Extremität extremitätenerhaltend versorgt werden¹. Dabei hat die endoprothetische Versorgung immer weiter an Bedeutung gewonnen ⁵.

Für Ärzte, Patienten und Eltern ist es eine schwierige Entscheidung die richtige Operationsmethode zu wählen, die maximale Heilungschancen mit einem akzeptablen kosmetischen und einem hohen funktionellen Ergebnis, sowie einer hohen Lebensqualität verbindet ⁶.

Extremitätenerhaltende Verfahren sind mit einem guten kosmetischen und funktionellen Ergebnis assoziiert ⁷, jedoch auch mit einer hohen Revisionsrate verbunden, sodass das Risiko nachfolgender Operationen für die Patienten besteht ^{8 6}.

Auch bei der Borggreve-Umkehrplastik wurde in verschiedenen Studien ein hohes funktionelles Ergebnis nachgewiesen ^{9 10 11 12 13}. Jedoch bestehen hier oft Bedenken bezüglich der psychosozialen Auswirkungen durch das ungewohnte Aussehen des Beines ^{14 15 16}.

Da sich keine Unterschiede in den Überlebensraten von Patienten mit endoprothetischem Ersatz und Patienten mit ablativer Chirurgie (Borggreve-Umkehrplastik oder Amputation) zeigte¹⁷¹⁸, werden Studien zu Langzeitergebnissen dieser Patienten immer wichtiger, um eine

patientenspezifische chirurgische Entscheidung treffen zu können.

Ziel dieser Studie war es daher, die Langzeitergebnisse der Borggreve-Umkehrplastik nach Resektion maligner Knochentumore im Hinblick auf die Lebensqualität und das funktionelle Ergebnis zu analysieren, um einen besseren Vergleich mit anderen Behandlungsoptionen in der Knochenkrebsbehandlung zu ermöglichen. Diese Ergebnisse sollen Ärzten, Eltern und Patienten helfen, eine Entscheidung für das passende Operationsverfahren zu treffen ¹⁹.

Darstellung der Publikation

Zur Beantwortung der Fragestellung wurden 135 Patienten, die sich aufgrund eines Knochensarkoms im Bereich des Knies einer Borggreveplastik-Operation unterzogen hatten, in der Datenbank der Cooperativen Osteosarkom-Studie der Deutschen Gesellschaft für Pädiatrische Onkologie und Hämatologie (COSS-Studie) identifiziert. Die letzten bekannten behandelnden Ärzte dieser Patienten wurden von COSS kontaktiert und gebeten, ihre Patienten über die Studie zu informieren.

Die Daten wurden anhand von Fragebögen erhoben. Das funktionelle Ergebnis wurde mit dem Musculoskeletal Tumor Society Score (MSTS) und der Tegner-Aktivitätslevel-Skala beurteilt. Die gesundheitsbezogene Lebensqualität (HRQL) wurde mit Hilfe des Short-Form-Health -Survey (SF-36) analysiert. Eine genaue Darstellung der Methodik befindet sich im Anhang.

Ergebnisse

Patientencharakteristika

Das Durchschnittsalter der Patienten bei Studienteilnahme betrug 36 Jahre (Spannweite 19-56) und das Durchschnittsalter zum Zeitpunkt der Operation betrug 13 Jahre (Spannweite 3-36 Jahre). Der durchschnittliche Nachbeobachtungszeitraum von der Operation bis zur Studienteilnahme betrug 23 Jahre (Spannweite 10-47 Jahre). 32 Teilnehmer(53%) waren männlich und

28 (47%) Teilnehmer waren weiblich. Die Stichprobe bestand aus mehr Männern (53 %), was die Geschlechterverteilung bei Osteosarkomen widerspiegelt (normalerweise 1,3 Männer zu 1 Frau) ²⁰.

Die meisten Patienten (52%) erhielten eine Typ-A1-Rotationsplastik nach der von Winkelmann beschriebenen Klassifizierung ^{21 22}. Am häufigsten war das rechte Bein betroffen (60%).

Funktionelles Ergebnis

Der durchschnittliche MSTS-Score betrug 23 (Median 24) von maximal 30 Punkten. Tabelle 1 zeigt die Ergebnisse des MSTS Scores.

	Schmerz	Funktion	Emotionale Akzeptanz	Hilfsmittel	Gehfähigkeit	Gang	MSTS
Median (Min-Max)	5 (0, 5)	3 (0, 5)	4 (0, 5)	5 (1, 5)	4 (2, 5)	3 (0, 5)	24 (7, 30)
Q1, Q3	4, 5	3, 4	3, 5	5, 5	3, 4	2, 4	21, 26
Mittelwert (SD)	4 (1)	3 (1)	4 (1)	5 (1)	4 (1)	3 (1)	23 (5)

Tabelle 1: Ergebnisse des Musculoskeletal Tumor Society Scores (MSTS) der gesamten Kohorte; SD, Standardabweichung

Es zeigte sich ein signifikanter Zusammenhang zwischen dem funktionellen Ergebnis und dem Patientenalter. Ältere Patienten gaben an signifikant mehr Schmerzen, sowie eine schlechtere Gehfähigkeit im Vergleich zu jüngeren Patienten zu haben. Die emotionale Akzeptanz war signifikant mit dem Geschlecht, dem Alter zum Zeitpunkt der Operation und des Bewegungsumfangs des Sprunggelenks assoziiert. Frauen berichteten über eine geringere emotionale Akzeptanz als Männer ($p=0,014$). Patienten mit einem höheren Alter zum Zeitpunkt der Operation gaben eine schlechtere emotionale Akzeptanz, als jüngere Patienten zum Zeitpunkt der Operation an ($p=0,027$). Außerdem spiegelte sich ein hoher Bewegungsumfang des Sprunggelenks in einer hohen emotionalen Akzeptanz ($p=0,011$) und besseren Gangwerten ($p=0,011$) wider. Mit einer mittleren Tegner-Aktivitätsskala von 4 zeigte sich, dass die Patienten regelmäßig sportlich aktiv sind. 41 Patienten (69%) berichteten, dass sie sportlich

aktiv sind. 19% betreiben Wettkampf- oder Leistungssport und 5% sogar auf internationalem Niveau. 19 Patienten waren nicht sportlich aktiv (32%). Das Alter zum Zeitpunkt der Operation war mit einem höheren Tegner-Aktivitätslevel assoziiert, wobei Patienten mit jüngerem Alter zum Zeitpunkt der Operation signifikant höhere Scores aufwiesen ($p=0,099$).

Lebensqualität

Die Medianwerte für die Summenscores lagen bei 52 (Spannweite 20-60) für die körperliche Summenskala (PCS) und 52 (Spannweite 29-61) für die psychische Summenskala (MCS). Tabelle 2 zeigt die Ergebnisse der Subskalen.

	PF	PR	BP	GH	VT	SR	ER	MH	PCS	MCS
Median	80	100	100	72	70	100	100	80	52	52
Min-Max	30-100	0-100	21-100	0-100	30-100	12-100	0-100	40-100	20-60	29-61
Q1, Q3	70, 95	75,100	62,100	62, 85	55, 80	75,100	67,100	72,88	44,55	47,56
IQR	25	25	38	23	25	25	33	16	11	9
Mittelwert (SD)	77(20)	82(34)	82(24)	71(20)	68(16)	85(21)	85(29)	77(12)	49(10)	50(7)

Tabelle 2: Ergebnisse des Sf-36 Fragebogens der Gesamtkohorte

PF, körperliche Funktionsfähigkeit; PR, körperliche Rollenfunktion; BP, körperliche Schmerzen; GH, allgemeiner Gesundheitszustand; VT, Vitalität; SR, soziale Rollenfunktion; ER, emotionale Rollenfunktion; MH, psychische Gesundheit; PCS, körperliche Summenskala; MCS, psychische Summenskala; SD, Standardabweichung

In der Altersgruppe 18-29 zeigten sich signifikant höhere Scores in den Subskalen PR, BP, VT, MCS, jedoch ein signifikant niedrigerer Score in der Subskala PF im Vergleich zur deutschen Allgemeinbevölkerung²³ (siehe Tabelle S1 der Publikation). In den älteren Altersgruppen (30-39, 40-49) zeigte sich ein signifikant niedrigerer Score in der Subskala PF, sowie ein signifikant niedrigerer Score in der Subskala PCS in der Altersgruppe 40-49.

Außerdem bestand eine signifikante Korrelation zwischen dem Nachbeobachtungszeitraum (Follow-up) und der Lebensqualität.

Patienten mit einem längeren Nachbeobachtungszeitraum hatten niedrigere Scores für die Subskalen: BP, GH, SR, PR, PCS.

Außerdem wurde ein signifikanter Zusammenhang zwischen dem Alter und der Lebensqualität gefunden. Ältere Patienten hatten niedrigere Scores für die Subskalen: BP, GH, PF, SR, PCS.

Außerdem hatte das funktionelle Ergebnis einen Einfluss auf die Lebensqualität. Patienten mit einem eingeschränkten Bewegungsumfang des Knöchels hatten niedrigere Scores für die Subskalen: PF, VT, ER, MH, MCS. Es zeigte sich kein Unterschied bezüglich der Lebenszufriedenheit-Scores zwischen den Geschlechtern.

Diskussion

Da sich keine Unterschiede in den Überlebensraten von Patienten mit endoprothetischem Ersatz und Patienten mit ablativer Chirurgie (Borggreve-Umkehrplastik oder Amputation) zeigten^{17,18}, werden Studien zu Langzeitergebnissen dieser Patienten im Hinblick auf die Lebensqualität und das funktionelle Ergebnis immer wichtiger, um eine patientenspezifische chirurgische Entscheidung treffen zu können.

Diese multizentrische Studie gibt einen Überblick über die Langzeitergebnisse von Patienten, die mit einer Borggreve- Umkehrplastik behandelt wurden.

Die Ergebnisse der vorliegenden Studie sind hinsichtlich der Studienkohorte und der Dauer der Nachbeobachtung bisher einzigartig. Mit der Untersuchung von 60 Patienten und einer mittleren Nachbeobachtungszeit von 23 Jahren übertrifft sie die bereits existierenden Studien von Gradl et al. (12 Patienten, 14 Jahre Nachbeobachtung)²⁴, Hillmann et al. (33 Patienten, 6 Jahre Nachbeobachtung)⁹ und Rödl et al. (22 Patienten, 12 Jahre Nachbeobachtung)¹⁵, die ebenfalls die Langzeitergebnisse von Patienten mit einer Umkehrplastik untersuchten.

Auch wenn heutzutage die meisten der malignen Knochentumore im Bereich des Kniegelenks mit einem endoprothetischen Ersatz behandelt werden⁵, müssen andere Behandlungsoptionen mit ihren Vor- und Nachteilen in Betracht gezogen werden. Während die Amputation zum Verlust der gesamten Gliedmaße führt, ist der endoprothetische Ersatz mit hohen Revisionsraten und postoperativen

Komplikationen, wie aseptischen Lockerungen oder Infektionen verbunden^{25 26}. El Dalil et al. berichteten, dass 42 % der Patienten, die mit einem endoprothetischem Ersatz behandelt wurden, an postoperativen Komplikationen litten, verglichen mit 25 % der Patienten, die mit einer Umkehrplastik behandelt wurden²⁵. Als Hauptursachen für Komplikationen stellten sich Infektionen und mechanische Komplikationen heraus⁸. Außerdem zeigte sich, dass das Komplikationsrisiko mit jedem Revisionseingriff deutlich anstieg⁸. Dadurch ist die Prognose für die betroffene Gliedmaße ungewiss und die Patienten riskieren weitere Operationen, die eine Amputation zur Folge haben könnten^{27 8 28 29}.

Die Borggreveplastik ist im Vergleich dazu mit einer relativ geringen Rate von Spätkomplikationen verbunden^{12 27}. Frühe postoperative Komplikationen waren Gefäßverschlüsse und transiente Nervenlähmungen. Spätkomplikationen waren Wundkomplikationen und Frakturen³⁰.

In der vorliegenden Studie wurden folgende Langzeitkomplikationen festgestellt: Hautveränderungen, Probleme mit dem kontralateralen Bein, Lymphödeme und Arthrose des Sprunggelenks. Verschiedene Hautveränderungen wurden von den Patienten angegeben (siehe Tabelle 1 der Publikation), welche durch mechanische Irritationen der Prothese entstehen. Diese Hautveränderungen wurden vor allem bei sehr körperlich aktiven Patienten beobachtet. Eine Arthrose des Sprunggelenks wurde überwiegend von Patienten mit einem längeren Follow-up angegeben (Mittelwert 31 Jahre, Spannweite 19-38 Jahre Follow-up).

Bereits in vorherigen Studien wurden morphologische Veränderungen des gedrehten Sprunggelenks festgestellt^{31 32}. Gebert et al. berichteten über nicht-symptomatische radiologische Veränderungen als Folge eines Adaptionsprozesses des rotierten Sprunggelenks, die nicht zwangsläufig zu einer Arthrose des Sprunggelenks führten³¹, jedoch zu einer eingeschränkten Beweglichkeit. Diese Veränderungen wurden vor allem bei älteren Patienten festgestellt³². Dies deckt sich mit unseren Ergebnissen: Arthrose und eingeschränkte Beweglichkeit des Sprunggelenks wurde von älteren Patienten mit einem mittleren Follow-up von 31 Jahren (Spannweite 19-38 Jahre) berichtet. Zwei Patienten (3%) berichteten über ein Lymphödem am Knöchel, welches mit Kompressionsstrümpfen behandelt wird. 23% der Patienten berichteten über Probleme mit ihrem kontralateralen Bein. In diesem Zusammenhang wurden Hüftschmerzen und Rückenschmerzen genannt. Einige Patienten vermuteten,

dass diese Probleme mit einer Überlastung des kontralateralen Beines zusammenhängen. In Bezug auf diese Befunde wurde gezeigt, dass Unterschiede in der Länge der rotierten Tibia im Verhältnis zum kontralateralen Femur zu einem veränderten Gangbild führen. Diese Längendifferenz war mit Unterschieden in der Gliedmaßenbelastung und der Kniekinematik verbunden, so dass Patienten mit geringerer Längendifferenz ein physiologischeres Gangbild aufwiesen³². In der vorliegenden Studie zeigte sich, dass Patienten, die über Probleme mit ihrem kontralateralen Bein berichteten, auch über Veränderungen ihres Gangbildes berichteten. Daher vermuten wir, dass bei diesen Patienten eine Längendifferenz vorliegt, welche die Gehleistung zu beeinträchtigen scheint und die Probleme der kontralateralen Extremität verursacht. In unserer Kohorte traten Probleme mit dem kontralateralen Bein vorwiegend bei weiblichen Patienten und Patienten auf, bei denen die Borggreve-Umkehrplastik auf der linken Seite durchgeführt wurde. Patienten mit diesen Beeinträchtigungen hatten signifikant niedrigere Lebensqualität-Scores. Dennoch waren diese Patienten mit ihrer Gehfähigkeit zufrieden (mittlerer MSTS-Score von 4 Punkten). Dies scheint im Einklang mit anderen Ergebnissen in der Literatur zu stehen. Catani et al. berichteten, dass Patienten mit einer Umkehrplastik langsamer gingen, als eine gesunde Kontrollgruppe³³, jedoch schneller und effizienter als Patienten mit einer Oberschenkelamputation³⁴. Es wurden keine Unterschiede zwischen Patienten mit einem endoprothetischen Ersatz und einer Umkehrplastik gefunden¹⁰. Darüber hinaus führt der Erhalt des propriozeptiven Feedbacks des Fußes zu einer besseren aktiven (Neo-) Kniestuerung im Vergleich zu einer Oberschenkelamputation. Dies ermöglicht ein flüssiges und koordiniertes Gangbild, das dem Gang eines nicht betroffenen Menschen ähnelt^{33 35 11}. So konnten komplexe Bewegungen wie Treppensteigen leichter ausgeführt werden³⁵ und sogar Autofahren mit dem Prothesenbein war möglich.

Generell erlangten die Patienten eine gute Wiederherstellung ihrer Funktionalität mit einem durchschnittlichen Gesamt-MSTS von 23 Punkten. Diese Ergebnisse sind vergleichbar mit Patienten, die mit einem endoprothetischen Ersatz behandelt wurden^{6 36 9}.

Es zeigte sich jedoch, dass das Alter zum Zeitpunkt der Operation das funktionelle Ergebnis positiv beeinflusst. Hillmann et al. berichteten, dass jüngere Patienten bessere Werte für die Gehfähigkeit, das Gangbild und den gesamten MSTs aufwiesen¹³, was darauf hindeutet, dass jüngere Patienten besser in der Lage sind, sich an ihre neue Situation anzupassen¹³.

Auch in der vorliegenden Studie hatten jüngere Patienten höhere Scores in Bezug auf das funktionelle Ergebnis und die Lebenszufriedenheit.

Außerdem war das Alter zum Zeitpunkt der Operation mit einem höheren Tegner-Aktivitätslevel assoziiert, wobei jüngere Patienten zum Zeitpunkt der Operation signifikant höhere Scores aufwiesen ($p=0,099$).

Außerdem zeigte sich, dass es möglich ist, High-Impact Sportarten mit einer Borggreve-Umkehrplastik zu betreiben. Dabei nutzten die meisten Patienten (73%) beim Sport ihre normale Prothese. 18% benutzten eine individuelle Sportprothese und 8% betrieben Sport ohne ihre Prothese. Sportliche Aktivitäten, die ohne Prothese ausgeübt wurden, waren Skifahren, Sitzvolleyball und Schwimmen. Im Vergleich dazu berichteten Hobusch et al., dass Patienten mit einem endoprothetischen Ersatz meist nur Low-Impact-Sportarten betreiben³⁷, da sie versuchen, ihre Endoprothese vor einer Revisionsoperation oder einer Sport assoziierten Verletzung zu schützen³⁸.

Dennoch wird die Umkehrplastik nur selten durchgeführt. Oft gibt es Bedenken, dass das Aussehen des rotierten Fußes psychologische Probleme verursachen könnte^{15 16 9 39}. Verschiedene Publikationen stellten jedoch eine gute psychologische Anpassung nach einer Umkehrplastik fest^{9 14 15 24}: Veenstra et al. gab an, dass es keine signifikanten Unterschiede in der psychosozialen Funktionsfähigkeit und der allgemeinen Lebensqualität im Vergleich zu gesunden Personen gab¹⁴. Auch die Studie von Rödl et al. stellte keine psychosozialen Probleme fest¹⁵. Dies deckt sich mit unseren Ergebnissen. 88% der Befragten würden sich wieder für die Borggreve-Umkehrplastik als Operationsmethode entscheiden.

Unserer Erfahrung nach profitierten die Patienten vom Besuch ehemaliger Patienten, damit diese sich mit dem zunächst ungewöhnlichen Aussehen des rotierten Fußes vertraut machen können.

In Bezug auf die gesundheitsbezogene Lebenszufriedenheit (HRQL) zeigten sich vergleichbare Ergebnisse zur allgemeinen deutschen Bevölkerung ²³. In der Altersgruppe 18-29 zeigten sich signifikant höhere Scores in den Subskalen körperliche Rollenfunktion (PR), körperliche Schmerzen (BP), Vitalität(VT) und der psychische Summenskala (MCS), jedoch ein signifikant niedrigeren Score in der Subskala körperliche Funktionsfähigkeit (PF) (siehe Tabelle S1 der Publikation).

Unsere Ergebnisse bezüglich der Lebenszufriedenheit scheinen im Einklang mit früheren Studien bei Patienten mit Knochenkrebs zu stehen. Stevens et al. berichteten ebenfalls über signifikant niedrigere Werte für die körperliche Funktionsfähigkeit im Vergleich zu gesunden Gleichaltrigen ⁴⁰. Verschiedene frühere Studien berichteten über niedrigere Werte für die körperliche Funktionsfähigkeit und ähnliche oder höhere Werte für die geistige Funktionsfähigkeit im Vergleich zur normalen Bevölkerung ^{40 14 41 15}.

Akahane et al. und Stevens et al. verglichen die Lebenszufriedenheit von Patienten, die aufgrund eines Knochensarkoms mit endoprothetischem Ersatz, Amputation oder Umkehrplastik behandelt wurden³⁶. Während Akahane et al. feststellten, dass alle Scores der Umkehrplastik-Patienten im Vergleich zum endoprothetischen Ersatz und Amputation höher waren ³⁶, stellten Stevens et al. keine Unterschiede zwischen den Gruppen fest ⁶.

Die Umkehrplastik ist somit nicht mit langfristigen Nachteilen in Bezug auf das funktionelle Ergebnis und die Lebenszufriedenheit verbunden. Sie ist eine gute Alternative zum endoprothetischen Ersatz oder zur Amputation, sowohl als Primäreingriff oder als Salvage-Verfahren nach Versagen des endoprothetischen Ersatzes ^{21 9 27 42}. Sie bietet den Patienten ein gutes funktionelles Ergebnis ohne Gliedmaßendiskrepanz, ohne Revisionsoperationen und ohne Nachteile im psychosozialen Ergebnis. Besonders bei Kindern im Wachstum und bei sehr aktiven Patienten sollte eine Borggreve-Umkehrplastik in Betracht gezogen werden, um die optimale Behandlungsoption zu finden. Vor der chirurgischen Entscheidung ist eine Patientenaufklärung, die auch ein Treffen mit ehemaligen Patienten beinhalten kann, sinnvoll, um den individuellen Behandlungsplan zu wählen.

Stärken und Einschränkungen dieser Arbeit

Die Ergebnisse dieser Arbeit stehen im Einklang mit den Ergebnissen von bisher veröffentlichten Studien, welche die Lebenszufriedenheit und die Funktionalität der Borggreveplastik untersucht haben. Jedoch wurden bisher nur wenige Studien durchgeführt, die die Langzeitergebnisse dieser Patienten untersuchten. Die Ergebnisse der vorliegenden Studie sind hinsichtlich der Studienkohorte und der Dauer der Nachbeobachtung bisher einzigartig. Mit der Untersuchung von 60 Patienten und einer mittleren Nachbeobachtungszeit von 23 Jahren übertrifft sie die bereits existierenden Studien.

Dennoch muss eine kritische Auseinandersetzung mit den vorliegenden Ergebnissen erfolgen. Es wurden folgende Einschränkungen festgestellt: Zunächst einmal liegt hier eine Umfragen-Studie vor. Die Fragebögen wurden von den Teilnehmern als Selbsteinschätzung ausgefüllt. Zweitens sind maligne Knochentumore sehr selten, was die Gesamtzahl der Patienten, die eine Borggreveplastik erhielten, begrenzte. Darüber hinaus hatten wir Schwierigkeiten, alle Patienten zu kontaktieren, da die Diagnose/Therapie der Patienten mindestens 10 Jahre zurückliegt. Es ist unklar, ob die Patienten aufgrund veralteter Angaben von Telefonnummern, Postanschriften oder aus anderen Gründen nicht geantwortet haben. Darüber hinaus gab es keine geeignete Kontrollgruppe für einen direkten Vergleich.

ÜBERSICHT DER ZUR VERÖFFENTLICHUNG ANGENOMMENEN PUBLIKATION(EN)

Gotta J, Bielack S, Hecker-Nolting S, et al. When Your Ankle Becomes a Knee - Long-Term Functional Outcome and Quality of Life with a Rotationplasty after Resection of Malignant Limb Tumors. *Klin Padiatr.* December 2021.

When Your Ankle Becomes a Knee – Long-Term Functional Outcome and Quality of Life with a Rotationplasty after Resection of Malignant Limb Tumors

Wenn der Knöchel zum Knie wird – Langzeitergebnisse und Lebensqualität mit einer Borggreve-Umkehrplastik nach Resektion maligner Knochentumore

Authors

Jennifer Gotta¹, Stefan Bielack², Stefanie Hecker-Nolting², Benjamin Sorg², Matthias Kevric², Emilia Salzmann-Manrique¹, Thomas Klingebiel¹

Affiliations

- 1 Department for Children and Adolescents, University Hospital Frankfurt, Goethe University, Frankfurt, Germany
- 2 Klinik für Kinder- und Jugendmedizin - Pädiatrie 5, Klinikum Stuttgart - Olgahospital, Stuttgart, Deutschland

Key words

quality of life, functional outcome, long-term outcome, bone cancer, rotationplasty

Schlüsselwörter

Knochentumor, Borggreve-Umkehrplastik, Lebenszufriedenheit, Langzeitergebnisse


published online 2021

Bibliography

Klin Padiatr
 DOI 10.1055/a-1681-1916
 ISSN 0300-8630
 © 2021. Thieme. All rights reserved.
 Georg Thieme Verlag, Rüdigerstraße 14,
 70469 Stuttgart, Germany

Correspondence

Prof. Thomas Klingebiel
 Klinikum der Johann-Wolfgang-Goethe-Universität
 Zentrum für Kinder- und Jugendmedizin
 Klinik III
 Theodor-Stern-Kai 7
 60590 Frankfurt
 Deutschland
 Tel.: +49/69/6301 6700, Fax: +49/69/6301 5094
 Thomas.klingebiel@kgu.de

 Supplementary Material is available under <https://doi.org/10.1055/a-1681-1916>

ABSTRACT

Background Increasing numbers of patients surviving malignant bone tumors around the knee joint have led to an increasing importance to investigate long-term results. This study assessed the long-term results of rotationplasty after resection of malignant bone tumors regarding functional outcome and quality of life to allow better comparison with other treatment options in bone cancer treatment.

Procedure 60 participants who underwent rotationplasty due to bone cancer took part in this multicentric questionnaire-based study. The long-term functional outcome was measured by the Musculoskeletal tumor society score (MSTS) and the Tegner activity level scale. The health-related quality of life (HRQL) was assessed by using the Short Form Health Survey (SF-36).

Results Patients treated with rotationplasty (median follow-up of 22 years, range 10–47 years) regained a high level of activity (median MSTS score of 24). Even a return to high level sports was possible (mean Tegner activity level scale of 4). Duration of follow-up did not influence the functional outcome. HRQL scores were comparable to the general German population. Concerns of psychological problems due to the unusual appearance of the rotated foot have not been confirmed.

Conclusion Rotationplasty can be a good alternative to endoprosthetic replacement or amputation, either as primary surgery or as a salvage procedure. Especially for growing children and very active patients rotationplasty should be considered.

ZUSAMMENFASSUNG

Hintergrund Durch die steigenden Überlebensraten von Patienten, die maligne Knochentumore im Bereich des Kniegelenks überleben, wird es immer wichtiger, die Langzeitergeb-

Downloaded by: Jennifer Gotta. Copyrighted material.

nisse dieser Patienten zu untersuchen. In dieser Studie wurden die Langzeitergebnisse der Borggreve-Umkehrplastik nach Resektion maligner Knochentumore im Hinblick auf das funktionelle Ergebnis und die Lebensqualität untersucht, um einen besseren Vergleich mit anderen Behandlungsoptionen in der Knochenkrebsbehandlung zu ermöglichen.

Methoden 60 Teilnehmer, die sich aufgrund eines Knochentumors einer Borggreve-Umkehrplastik unterzogen, nahmen an dieser multizentrischen Studie teil. Das langfristige funktionelle Ergebnis wurde mit dem Musculoskeletal Tumor Society Score (MSTS) und der Tegner-Aktivitätsskala erfasst. Die gesundheitsbezogene Lebensqualität (HRQL) wurde mit Hilfe des Short Form Health Surveys (SF-36) ermittelt.

Ergebnisse Die befragten Patienten (mediane Nachbeobachtungszeit von 22 Jahren, Spanne 10–47 Jahre) erlangten ein

hohes Aktivitätsniveau zurück (medianer MSTS-Score von 24). Selbst eine Rückkehr zum Leistungssport war möglich (mittlere Tegner-Aktivitätsskala von 4). Die Dauer der Nachbeobachtung hatte keinen Einfluss auf das funktionelle Ergebnis. In Bezug auf die gesundheitsbezogene Lebenszufriedenheit (HRQL) zeigten sich vergleichbare Ergebnisse zur allgemeinen deutschen Bevölkerung. Die Befürchtungen von psychologischen Problemen aufgrund des ungewöhnlichen Aussehens des gedrehten Fußes haben sich nicht bestätigt.

Schlussfolgerungen Die Borggreve-Umkehrplastik kann eine gute Alternative zum endoprothetischen Ersatz oder zur Amputation sein, nicht nur als Primäreingriff, sondern auch als Sekundäreingriff nach Versagen des endoprothetischen Ersatzes. Insbesondere bei Kindern im Wachstumsalter und bei sehr aktiven Patienten sollte die Borggreveplastik in Betracht gezogen werden.

ABBREVIATIONS

SF-36	Short-form-health survey 36
MSTS	Musculoskeletal tumor society score
ROM	Range of motion
HRQL	Health related quality of life
COSS	Cooperative Osteosarcoma Study Group
VT	Vitality
PF	Physical functioning
BP	Bodily pain
GH	General health
PR	Physical role functioning
ER	Emotional role functioning
SR	Social role functioning
MH	Mental health
PCS	Physical component summary score
MCS	Mental health component summary score
EPR	Endoprosthesis replacement

Introduction

The most common location for bone tumors is the knee region. Especially osteosarcoma is the most common primary malignant bone tumor in children with an incidence of 0.3 per 100 000 per year [9, 28, 44].

Progress in malignant bone tumor treatment including neoadjuvant and adjuvant therapy has entailed in an increasing number of patients surviving malignant bone tumors [6].

This increasing number of survivors leads to a rising importance to assess the long-term results of the treatment options regarding functional outcome and quality of life. The minority of patients obtain primary amputation or rotationplasty. Nowadays endoprosthesis knee replacement is the treatment of choice [9]. It is a difficult decision for doctors, patients and parents to choose the type of surgery that will combine maximum chances for cure with an acceptable cosmetic outcome, high functional outcome and quality of life [41].

Limb salvage procedures like endoprosthesis replacement (EPR) are associated with a good cosmetic and functional outcome [29] but they are also associated with a high failure rate, so patients face the risk of many future surgeries [38, 41]. In comparison, various studies have also proved high functional outcomes after rotationplasty [5, 15, 20, 22, 35] but there are often concerns about the psychosocial impact of the unusual limb appearance [30, 34, 46]. Therefore, the aim of this study was to assess the long-term results of rotationplasty after resection of malignant bone tumors regarding quality of life and functional outcome to allow better comparison with other treatment options in bone cancer treatment. These results may help physicians, parents and patients choosing the option of surgery [14].

Patients and Methods

Patient recruitment

135 patients who underwent rotationplasty due to a bone sarcoma around the knee were identified from the database of the Cooperative Osteosarcoma Study group of the German Society for Pediatric Oncology and Hematology (COSS). The last known treating physicians of these patients were contacted by COSS and were asked to inform their patients about the study. 46 of 61 invited institutions were involved in this study.

A letter that introduced the study, its purpose, a link to the questionnaire and the eligibility to participate were sent to the patient by the treating physician. The questionnaire could be opened and answered via the link in the letter or via QR-code. The questionnaires were completed by participants as self-evaluation.

COSS is an international, multi-institutional study group which was founded in 1977. Since its foundation COSS has developed several therapy protocols on the treatment of osteosarcoma and participates in many international clinical trials and research projects. The goal of COSS is to advance the care of osteosarcoma patients and to increase knowledge of all aspects of the biology of this bone tumor, including molecular and clinical research.

Informed consent was obtained from each patient. The study was approved by the local Ethical Committee (Universitätsklinikum Frankfurt am Main, Nr. 22/19) and was carried out according to the data protection law of the EU.

The patients had to fulfil the following inclusion criteria: (1) undergone rotationplasty at least 10 years prior, (2) be at least 18 years at time of study participation, (3) informed consent.

We received 72 answered questionnaires. 12 questionnaires were excluded from this study: Six did not fulfill inclusion criteria, one patient received secondary amputation and five duplicates were found. Finally, a total of 60 patients were included in this study (Fig. S1). The other invited patients did not respond. However, there are no references whether they failed to answer due to outdated information of phone numbers, postal address or any other reasons.

Questionnaires

The patients clinical and demographic characteristics were assessed by the questionnaire. The functional outcome was assessed by the Musculoskeletal tumor society score (MSTS) [13] and the Tegner activity level scale [45].

The MSTS-Score consists of three general components (pain, function, emotional acceptance) and three components specific to the affected extremity (use of external supports, walking ability and gait). Each item ranges from 0 to 5 points, so the maximum total score is 30 points which indicates a high level of function [13]. However, this score does not regard the level of sports activities.

Therefore, the Tegner activity level scale was used as a second device. This score rates activity based on sports activities and work on a scale from zero to ten [45]. Ten points indicates a maximum activity level while an activity of zero represents invalidity or limited ability [31].

Health related quality of life (HRQL) was assessed by using the Short Form Health Survey (SF-36). The SF-36 quantifies the individual health just as disease related quality of life. It contains 36 items with eight multi-item subscales: physical functioning (PF), physical role functioning (PR), bodily pain (BP), general health (GH), vitality (VT), social role functioning (SR), emotional role functioning (ER), mental health (MH) [48]. Each scale ranges from 0–100. These eight subscales can be scored independently or can be transformed into two summary scores: Physical component summary score (PCS) and Mental health component summary score (MCS). The PCS includes PF, PR, BP, GH and the MCS includes VT, SR, ER, MH [25, 33].

Statistics

Statistical analyses were performed using R (Version 4.0.2) and SPSS (Version 26.0, SPSS Inc.). Categorical variables were summarized as the frequency and percentage and numerical variables as median (range), first and third quartiles (Q1, Q3) and mean (SD).

Numeric variables: age at surgery, BMI and time since surgery were categorized in two groups according their median. Furthermore, age was categorized in five groups: 18–29, 30–39, 40–49 and 50–59 years. These variables were analyzed as numeric and category.

The data were analyzed to determine Gaussian distribution using visual methods such as qq-plots, histograms, boxplots and violin plots as well as the Wilk-Shapiro test.

The differences of the MSTS-score, Tegner activity level scale or SF-36-score between the sociodemographic/clinical variables or impairments groups were explored. Due to the non-normal distribution of the scores, the differences were assessed using the Mann-Whitney test or the Kruskal-Wallis test, as appropriate. The Spearman's rank correlation was employed to analyze the association between the scores and numerical variables.

The differences of SF-36 scores between our patient cohort and the general German population were assessed with the one sample median test. The mean value was used as the median for the reference group, since both are equal in normally distributed data.

All significance tests were two-sided and the 5 % significance level was used to denote statistical significance. No statistical adjustment was made for the present analysis.

Results

Participant characteristics

60 participants who underwent rotationplasty surgery because of a bone sarcoma around the knee fulfilled the inclusion criteria and participated in this study. The median time from surgery to study participation (follow-up) was 22 years (range 10–47 years).

► **Table 1** presents the socio-demographic and clinical characteristics. 32 participants (53 %) were male and 28 (47 %) were female. Median age at study participation was 36 years (range 19–56) and median age at time of surgery had been 12 years (range 3–36 years).

Most of the patients (52 %) received a type-A1 rotationplasty according to the classification described by Winkelmann [49, 50]. The most common side was the right leg (60 %). 52 participants (86 %) reported a range of motion (ROM) > 60 ° of the ankle joint. 95 % wore their exoprosthesis the whole day. Impairments due to the exoprosthesis are shown in ► **Table 1**.

Functional outcome

The average MSTS score was 23 points (median = 24). ► **Fig. 1** shows the results of the MSTS score and components. 48 patients (80 %) reported no or intermediate pain. Two (3 %) patients had modest, not restrictive pain without using opioids (**Fig. S2**).

While 12 patients (20 %) were not restricted during daily activities, 25 patients (42 %) reported limitations during recreational activities or negligible disability. Limitations in activities related to work were recorded in four cases (7 %).

Regarding emotional acceptance, an overall satisfaction with rotationplasty was found. 88 % would choose rotationplasty as treatment option again.

92 % didn't require any assistive devices. 7 % used occasionally an assistive device in addition to the exoprosthesis. The reason for and the frequency of using this assistive device is unknown.

While 12 patients (20 %) were not limited in the distance they could walk, 20 (33 %) had the impression that their walking ability was less than prior to surgery.

Most of the patients reported no (8 %), intermediate (22 %) or minimal alterations (33 %) in their gait pattern. An obvious alteration in gait pattern with an impact on the function was reported by 9 patients (15 %).

► **Table 1** Participant and surgery related characteristics (n = 60).

Gender, n (%)	
Male	32 (53)
Female	28 (47)
Age, years (y)	
Median (range)	36 (19, 56)
Q1, Q3	28, 43
Mean (SD)	36 (10)
Age Groups, n (%)	
18–29 years	18 (30)
30–39 years	19 (32)
40–49 years	18 (30)
50–59 years	5 (8)
BMI, kg/m ²	
Median (range)	24 (18, 37)
Q1, Q3	21, 27
Mean (SD)	24 (5)
Marital status, n (%)	
Single, living alone	18 (30)
Living together with partner	21 (35)
Married	18 (30)
Divorced	3 (5)
Age at surgery, years	
Median (range)	12 (3, 36)
Q1, Q3	9, 16
Mean (SD)	13 (6)
Time since surgery, years	
Median (range)	22 (10, 47)
Q1, Q3	15, 30
Mean (SD)	23 (9)
Anatomic site, n (%)	
Right	36 (60)
Left	24 (40)
Winkelmann classification, n (%)	
A1	31 (52)
B1	3 (5)
B2	2 (3)
B3a	1 (2)
Unknown	23 (38)
Wearing time prosthesis per day, n (%)	
< 5 h	1 (2)
8–10 h	2 (3)
Whole day time (not during night sleep)	57 (95)
24 h	0
ROM, n (%)	
0–30°	2 (3)
30–60°	6 (10)
60–90°	26 (43)
> 90°	26 (43)
Car driving, n (%)	
No driving license	5 (8)
Converted car	16 (27)
Automatic gear	25 (42)

► **Table 1** Continued

Stick shift car	14 (23)
Impairments, n (%)	
Sore	29 (48)
Limited mobility	22 (37)
Numbness	16 (27)
Swelling	16 (27)
Problems with contralateral leg	14 (23)
Mycosis pedis	11 (18)
Blisters	10 (17)
Arthrosis (ankle)	8 (13)
Phantom pain	5 (8)
Hematoma	1 (2)
Lymphoedema	2 (3)
Abbreviations: ROM, range of motion; BMI, body mass index; Q1, Q3, first and third quartiles; SD, standard deviation.	

MSTS by socio-demographic and clinical characteristics

A significant relationship between the functional outcome and the patient's age was found (**Table S1**). Older participants reported suffering significantly more pain than younger participants ($p = 0.035$) and they also reported less ability to walk ($p = 0.006$) (**Fig. S3**). Emotional acceptance was significantly associated with sex, age at surgery and ROM of the ankle joint. Females reported lower emotional acceptance than males ($p = 0.014$) (**Fig. S4**). Participants of older age at time of surgery declared worse emotional acceptance than younger participants at time of surgery ($p = 0.027$). Finally, high ROM of the ankle joint (ROM) was reflected in a high emotional acceptance ($p = 0.011$) and better gait scores ($p = 0.011$) (**Fig S4**).

MSTS by impairments

Associations between MSTS and impairments were found (**Table S1**). Participants with limited mobility of the ankle joint had significant lower scores in all MSTS components except pain and walking ability. Furthermore, problems with the contralateral leg were associated with lower total MSTS and components (except emotional acceptance and walking support).

Participants who reported swelling had also significant lower MSTS components (function, gait, total MSTS).

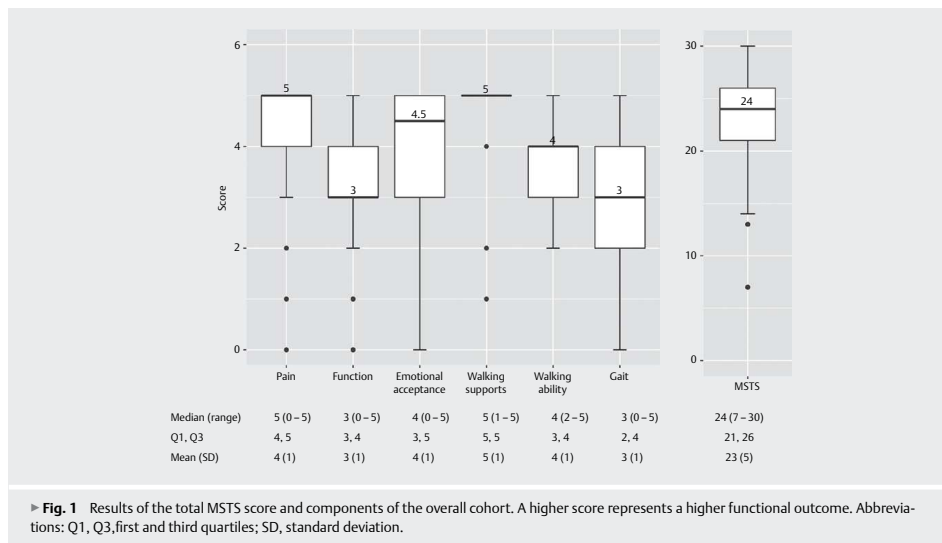
Tegner activity level scale

With a mean Tegner activity level scale of 4, the patients were regularly engaged in sports activities. 41 (69%) reported that they were active in sports. Eleven of the 41 took part in competitive sports (19%), three of them (5%) at an international level. 19 patients (32%) were not engaged in sports activities at all (**Fig. S7**).

Younger patients had a significant higher Tegner activity level scale ($p = 0.099$) (**Fig. S5**). Furthermore, age at time of surgery was associated with the Tegner activity level scale, where younger age at time of surgery showed higher scores ($p = 0.099$).

Quality of life

The medians for the summary scores were 52 (range 20–60) for the physical component summary score (PCS) and 52 (range 29–



61) for the mental health component summary score (MCS). ► **Figure 2** presents the results of the subscales.

Analysis of the HRQL showed that participants in the age group 18–29 had significant higher scores regarding the subscales PR, BP, VT, MCS but significant lower scores in the subscale PF than the German general population [12, 26] (► **Table 2**). In the older age groups (30–39, 40–49) a significant lower PF subscale as well as a significant lower PCS subscale in the age group 40–49 was found.

Quality of life by participant characteristics

Age as well as time since surgery had affected the HRQL components (**Table S2**). Older patients and patients with a longer time since surgery had lower scores for the subscales: PR, BP, GH, SR, PCS (**Fig. S6**). A high ROM of the ankle was associated with a high score for the subscale PF. Additionally, it has been shown that there is no difference regarding the HRQL-scores between genders.

Quality of life by impairments

Participants with limited mobility of the ankle had significant lower scores for the subscales: VT, ER, MH, MCS and participants who reported arthrosis of the ankle showed significant lower scores for the subscales: GH, VT, SR and PCS (**Table S2**).

Moreover, participants suffering from problems with the contralateral leg had significant lower scores for the subscales: PR, BP, SR, ER and PCS.

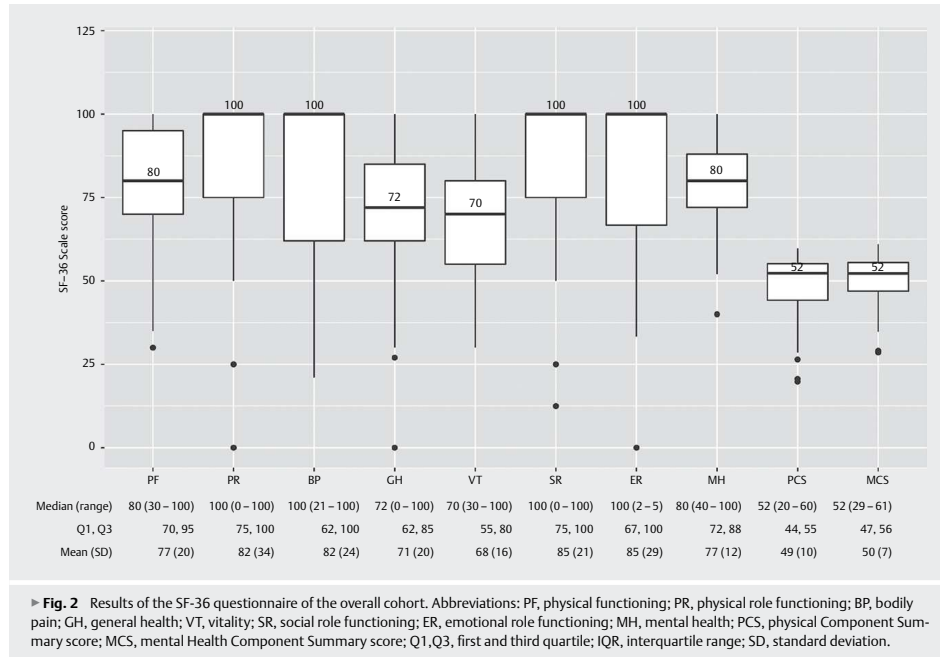
Discussion

This multicentric study provides evidence that patients treated with rotationplasty can regain a good functional outcome with a quality of life which is comparable to the German population.

The study of 60 such patients gives an overview about the long-term results of patients treated with rotationplasty for malignant bone tumors.

Even if malignant bone tumors around the knee are usually treated with EPR, other treatment options need to be considered. While amputation results in loss of the entire limb, EPR is associated with high failure rates and postoperative complications like aseptic loosening or periprosthetic infections [11, 21]. El Dalil et al. reported that 42% of the patients who were treated with EPR suffered from post-operative complications compared to 25% of the patients who were treated with rotationplasty [11]. The most frequent reason for complications were infection and mechanical complications [38]. They also noted that the risk of complications increased appreciably with revision surgeries [38], so patients face to risk many future surgeries which perhaps result in an amputation [19, 38, 39, 51]. Therefore, further long-term observations are necessary.

In comparison to EPR, rotationplasty is associated with a relatively low incidence of late complications [20, 51]. Sawamura et al. reported that in 88% of the patients in this study, rotationplasty was successfully performed. Early post-operative complications were vascular compromise and transient nerve palsy. Late complications were wound complications and fracture [37]. The present study has shown the following long-term complications: skin alterations, problems with the contralateral leg, lymphoedema and arthrosis of the ankle. Skin alterations caused by mechanical irritation were especially observed in patients who were physically active and participated in extended sports activities (► **Table 1**). Nearly all of the patients reported that these skin alterations were related to a not appropriately fitting exoprosthesis and could be reduced by improving the exoprosthesis fit [17].



Arthrosis of the ankle joint was reported in older participants with a mean follow up of 31 years (range 19–38 years). Even in previous studies, morphologic changes of the rotated ankle were noted [4, 17]. Gebert et al. reported non-symptomatic radiologic changes as a result of an adaption process of the rotated ankle which does not compulsorily lead to arthrosis of the ankle joint [17] but could lead to a limited neo-knee flexion due to a reduction of the ROM of the ankle joint. These morphologic changes and decrease of ROM were especially found in older patients [4].

Two patients reported lymphoedema of the ankle which is treated with compression stockings and 23% of the patients reported problems with their contralateral leg. Referring to this, hip pain and back pain were mentioned. Some patients assumed that these problems were related to an overload of the contralateral leg.

Regarding these findings, it has been shown that differences in the length of the rotated distal tibia in relation to the contralateral femur resulted in altered gait pattern. This length difference was associated with differences in limb loading and knee kinematic, so patients with less length discrepancy had a more physiologic gait pattern [4]. The present study examines that the participants who reported problems with their contralateral leg also reported changes in their gait pattern. Therefore, we suppose that these patients may have a length difference which seems to affect the walking performance and causes problems with their non-affected limb. In our cohort, problems with the contralateral leg were predominant-

ly found in women and patients with rotationplasty on the left side. Patients with these impairments had significant lower HRQL-scores. Nevertheless, these participants were satisfied with their walking ability with a mean MSTs score of four points. Catani et al. reported that patients with rotationplasty walked faster and more efficiently than patients with above-knee amputation [27]. No differences between patients with an EPR or a rotationplasty were found [5]. Moreover, the maintenance of the proprioceptive feedback of the foot results in a better active (neo-)knee control compared to an above-knee amputation. This allows a smooth and coordinated gait pattern which is similar to the gait of a non-affected person [7, 15, 16]. Thus, complex movements like walking stairs were easier to perform [16] and even car driving with the prosthetic leg was possible. 65% of the responders could drive a normal car, while 27% needed a converted car (► **Table 1**).

Overall, the participants of this study had a good restitution of function after rotationplasty with a mean total MSTs of 23 points (► **Fig. 1**). These results were comparable to patients treated with EPR [1, 2, 36, 41]. Hillmann et al. compared patients who were treated with rotationplasty and EPR because of malignant bone cancer. Patients treated with rotationplasty had a mean MSTs score of 24 points and patients treated with EPR had a mean MSTs score of 25 points [22]. Stevens et al. and Akahane et al. reported superior functional results for rotationplasty compared to EPR and amputation [2, 41]. This indicates that rotationplasty could achieve equal or superior functional results [2, 22, 41].

► **Table 2** SF-36 scores for patients treated with rotationplasty compared to the German health general population¹ based on the mean and median being equal in normally distributed data in the reference sample.

	n	Parti-	Reference	p-value
		cipants	sample	
		Median	Median	
Age 18–29 years	18			
PF		85	94.9	0.033 *
PR		100	91.5	0.002 **
BP		100	85	0.008 **
GH		80	74.5	0.393
VT		70	60.4	0.016 *
SR		100	87.1	0.217
ER		100	88.8	0.156
MH		84	72.4	0.029 *
PCS		53.1	55.8	0.145
MCS		52.5	48	0.045 *
Age 30–39 years	19			
PF		80	93.5	0.003 **
PR		100	88.9	0.295
BP		100	80.3	0.059
GH		77	72.3	0.177
VT		70	60.5	0.304
SR		100	87.1	0.191
ER		100	89	0.688
MH		80	73	0.614
PCS		53.2	54.3	0.134
MCS		50.5	48.7	0.623
Age 40–49 years	18			
PF		70	89.5	0.016 *
PR		100	85.5	1
BP		67	75.3	0.176
GH		67	69.9	0.163
VT		70	60.7	0.222
SR		75	85.6	0.204
ER		100	86.8	0.394
MH		76	72.8	0.315
PCS		45	52.4	0.006 **
MCS		51.1	48.8	0.442
Age 50–59 years	5			
PF		70	85.2	0.188
PR		75	80.1	0.588
BP		84	72	0.787
GH		67	67.6	0.588
VT		70	61.8	0.104
SR		100	84.7	0.784
ER		100	84.7	0.572
MH		84	72	0.058
PCS		42.4	50.4	0.313
MCS		56	49.1	0.063

Abbreviations: PF, physical functioning; PR, physical role functioning; BP, bodily pain; GH, general health; VT, vitality; SR, social role functioning; ER, emotional role functioning; MH, mental health; PCS, Physical component summary score; MCS, Mental health component summary score; * p<0.05; ** p<0.01; bold font indicates significant results.

Besides, it has been shown that the age at time of surgery influences the functional outcome positively. Hillmann et al. reported that younger patients had better scores for walking ability, gait and total MSTs [35] which indicates that younger patients were able to adapt to their new situation in a better way [35]. This is consistent with our results. In the present study, younger patients had higher scores regarding the functional outcome and the HRQL (Table S1 and S2).

Especially younger patients with a shorter time since surgery (follow-up) had significant lower scores for the subscale PF when the age at time of surgery was over 12 years (p=0.03).

Moreover, we noted that patients with a younger age at time of surgery had higher scores for the Tegner activity level scale. In our cohort, 69% were engaged in sports activities. 19% participated in competitive sports and 5% did so even at an international level (Fig. S7). Several participants were engaged in more than one sports activity and a variety of different sports were reported. This seems to be consistent compared with the work of Hillmann et al. who reported that patients with rotationplasty can re-engage in a high level of sports [3]. We also noted that it is possible to return to high-impact activities like skiing, running and handball. Most of the patients (73%) used their normal prosthesis for sports. 18% used an individual sport prosthesis and 8% did sports without their prosthesis. Sports activities that are practiced without prosthesis were skiing, sitting volleyball and swimming. In comparison, Hobusch et al. reported that patients with EPR mostly returned to low impact sports activities only [24] because they try to protect their EPR from a revision operation or an activity associated injury [23].

Nevertheless, rotationplasty is currently performed rarely. There are often concerns that the appearance of the rotated foot may cause psychological problems [22, 30, 32, 34], but various published reports noted good psychologic adjustment after rotationplasty [18, 22, 34, 47]: Veenstra et al. reported no significant differences in psychosocial functioning, quality of life and social support compared to healthy peers [47]. Also, the study of Rödl et al. noted no psychosocial problems, especially for the items partnership and sexuality [34]. This is consistent with our findings. Most of the participants were not disturbed by the appearance of the limb. Except three, all participants would choose a rotationplasty as treatment option again.

It has been shown that younger age at time of surgery was associated with a better emotional acceptance (Figure S4). Older participants with a longer time since surgery (follow-up) declared worse emotional acceptance when the age at time of surgery was over 12 years (p=0.01).

In our experience, patients benefited from visiting ex-patients so that they become aware of the initially unusual appearance of the rotated foot.

With respect to HRQL, we ascertained that patients in the age group 18–29 had higher scores in all subscales except physical functioning (PF) and physical component summary score (PCS). The older age groups (age group 40–49 and 50–59) had higher scores with respect to all subscales except PF, PR, GH, SR and PCS. The differences were particularly significant in the age group 18–29. The median scores of the SF-36 compared to the reference scores are presented in ► Table 2, [12, 26]. Our finding concerning HRQL seems to be in line with previous studies among patients with bone can-

cer. Stevens et al. also reported significantly lower scores concerning the physical functioning scores compared to the healthy peers [43] and various earlier studies consequently reported lower scores regarding physical functioning and similar or higher scores regarding mental functioning compared to the normal population [34, 42, 43, 47].

Akahane et al. and Stevens et al. compared the HRQL of patients treated with EPR, amputation and rotationplasty due to bone sarcoma. While Akahane et al. referred that all the scores of patients with rotationplasty were superior compared to EPR and amputation [2], Stevens et al. reported no differences between rotationplasty, EPR and amputation [41].

The similar or higher HRQL- scores except physical functioning of cancer patients compared to healthy peers has been described in previous studies [8, 40]. This phenomenon which is called "response shift" [40] reveals that life-threatening diseases can generate positive effects.

However, we recognize the following limitations in this study. First, this is a survey study. The questionnaires were completed by participants as self-evaluation.

Secondly, malignant bone tumors are very rare which limited the overall number of patients. In addition, we had difficulties to contact patients treated ages ago. The patients were lost to follow up or died from their underlying malignant tumor. Nevertheless, a good response rate was achieved. Regarding the long follow-up time a higher drop-out rate was expected. The results of the present study are so far unique regarding the study cohort and the time of follow-up. With the examination of 60 patients and a mean follow-up of 23 years it exceeds the already existing studies which also investigated the long-term results of patients treated with rotationplasty. Thirdly, there was no suitable control group for direct comparison.

In conclusion, the role of rotationplasty in the treatment of malignant bone cancer has to be reassessed. In our cohort, rotationplasty was not associated with any long-term disadvantages regarding functional outcome or HRQL. It can be a good alternative to endoprosthetic replacement or amputation, either as primary surgery or as a salvage procedure after failure of endoprosthetic replacement [10, 22, 50, 51]. Especially in growing children and in very active patients, rotationplasty should be considered when choosing the optimal treatment option. Facing the surgical decision, patient education which may include meeting ex-patients may be useful to choose their individual treatment plan.

Contributor's Statement

Conception and design: J. Gotta, T. Klingebiel. Acquisition of data: S. Biellack, B. Sorg, S. Hecker-Nolting, M. Kevric. Statistical concept: E. Salzmann-Manrique. Data evaluation: J. Gotta, E. Salzmann-Manrique. Drafting article and critically revising: all authors.

Acknowledgements

This study was supported by COSS. We sincerely appreciate COSS for facilitating access to potential study participants via their treating physicians in compliance with data protection rules. We are thankful for all the participants and their contribution in this study.

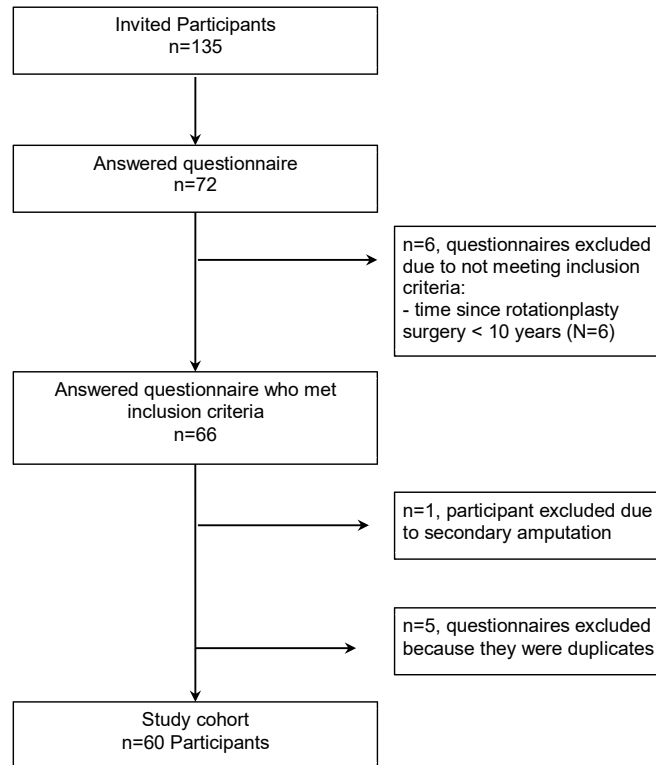
Conflict of Interest

The authors declare that there is no conflict of interest.

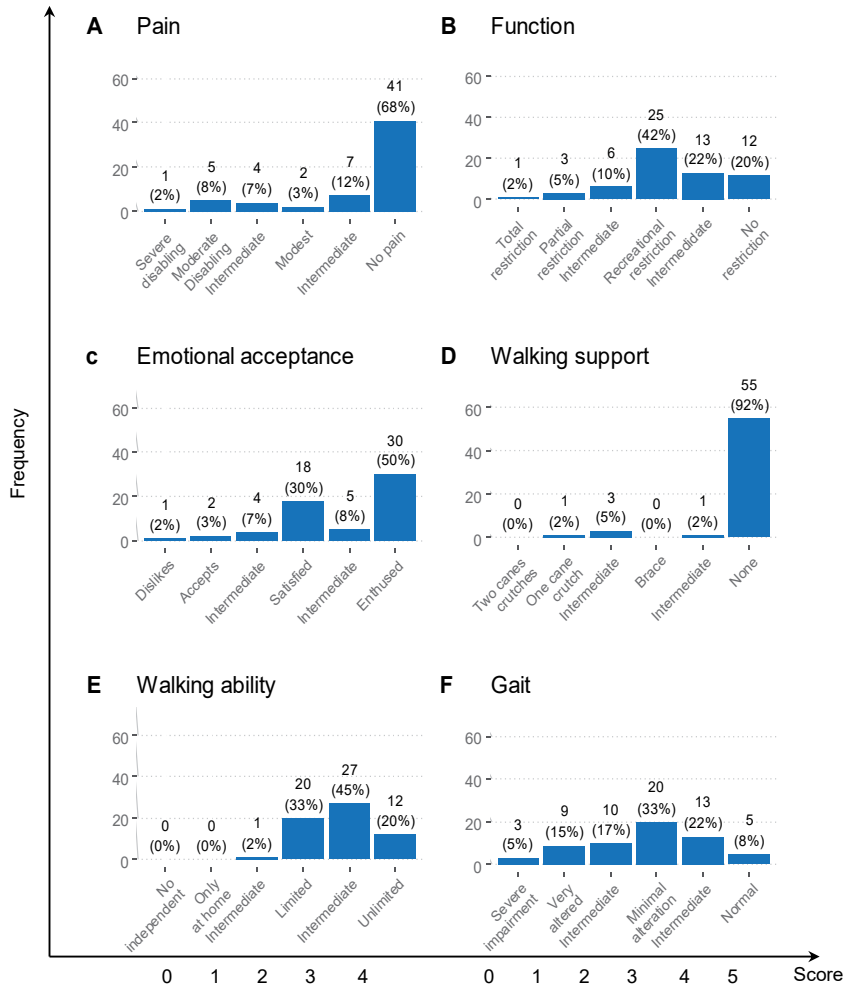
References

- [1] Ahlmann ER, Menendez LR, Kermani C et al. Survivorship and clinical outcome of modular endoprosthetic reconstruction for neoplastic disease of the lower limb. *J Bone Jt Surg - Ser B* 2006; 88: 790–795
- [2] Akahane T, Shimizu T, Isobe K et al. Evaluation of postoperative general quality of life for patients with osteosarcoma around the knee joint. *J Pediatr Orthop Part B* 2007; 16: 269–272
- [3] Article O. Sports Activities and Endurance Capacity of Bone Tumor 2007; 88: 885–890
- [4] Benedetti M, Okita Y, Recubini E et al. How much clinical and functional impairment do children treated with knee rotationplasty experience in adulthood? *Clin Orthop Relat Res* 2016; 474: 995–1004
- [5] Cammisa FJ, Glasser DB, Otis JC et al. The Van Nes tibial rotationplasty. A functionally viable reconstructive procedure in children who have a tumor of the distal end of the femur. *J Bone Joint Surg Am* 1990; 72: 1541–1547
- [6] Carrle D, Biellack SS. Current strategies of chemotherapy in osteosarcoma. Published online 2006; 445–451
- [7] Catani F, Capanna R, Benedetti MG et al. Gait analysis in patients after Van Nes rotationplasty. *Clin Orthop Relat Res* 1993; 270–277
- [8] De Clercq B, De Fruyt F, Koot HM et al. Quality of life in children surviving cancer: A personality and multi-informant perspective. *J Pediatr Psychol* 2004; 29: 579–590
- [9] Diagnostic I. Die interdisziplinäre Diagnostik und Therapie von Knochensarkomen der Extremitäten und des Rumpfes Interdisciplinary Diagnostic and Treatment of Bone Sarcomas of the. Published online 2015; 90–99
- [10] Dotan A, Dadia S, Bickels J et al. Expandable endoprosthesis for limb-sparing surgery in children: Long-term results. *J Child Orthop* 2010; 4: 391–400
- [11] El-Dalil P, Warrenner T, De Souza M et al. A comparative study of the complications and functional outcomes of endoprosthetic replacements and rotationplasty in childhood. *Orthop Proc* 2011; 93-B: 316
- [12] Ellert U, Kurth BM. Health related quality of life in adults in Germany: results of the German Health Interview and Examination Survey for Adults (DEGS1). *Bundesgesundheitsblatt - Gesundheitsforsch - Gesundheitsschutz* 2013; 56: 643–649
- [13] Enneking WF, Dunham W, Gebhardt MC et al. A system for the functional evaluation of reconstructive procedures after surgical treatment of tumors of the musculoskeletal system. *Clin Orthop Relat Res* 1993; 286: 241–246
- [14] Forni C, Gaudenzi N, Zoli M et al. Living With Rotationplasty – Quality of Life in Rotationplasty Patients From Childhood to Adulthood. 2012; 331–336
- [15] Frassica FJ, Schwartz HS, Pairolo PC et al. Rotation-plasty: Surgical technique of resection and reconstruction in the treatment of osteosarcoma about the knee in children. *Clin Anat* 1988; 1: 105–116
- [16] Fuchs B, Kotajarvi BR, Kaufman KR et al. Functional Outcome of Patients With Rotationplasty About the Knee. *Clin Orthop Relat Res* 2003; 415: 52–58
- [17] Geberth C, Harges J, Vieth V et al. The effect of rotationplasty on the ankle joint : Long-term results 2006; 30: 316–323
- [18] Gradl G, Postl LK, Lenze U et al. Long-term functional outcome and quality of life following rotationplasty for treatment of malignant tumors. *BMC Musculoskelet Disord*. Published online 2015; 1–7

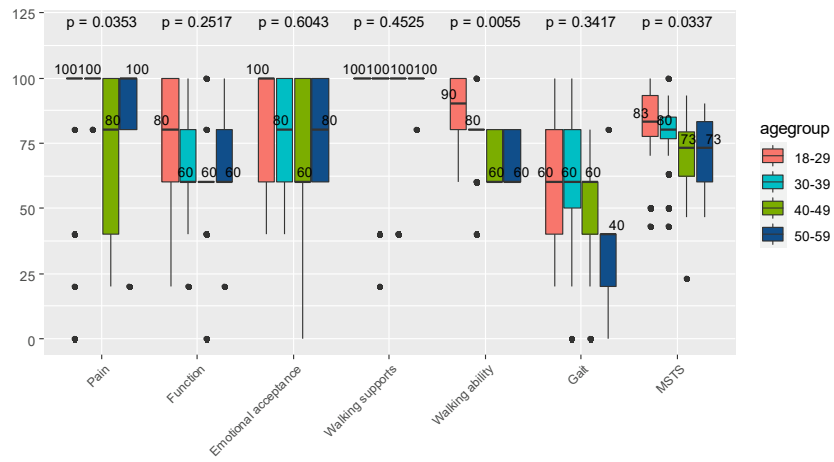
- [19] Grimer RJ, Aydin BK, Wafa H et al. Very long-term outcomes after endoprosthetic replacement for malignant tumours of bone. *Bone Jt J* 2016; 98-B: 857–864
- [20] Hanlon M, Krajbich JI. Rotationplasty in skeletally immature patients. Long-term followup results. *Clin Orthop Relat Res* 1999; 75–82
- [21] Henderson ER, Pepper AM, Marulanda G et al. Outcome of lower-limb preservation with an expandable endoprosthesis after bone tumor resection in children. *J Bone Jt Surg - Ser A* 2012; 94: 537–547
- [22] Hillmann A, Hoffmann C, Gosheger G et al. Malignant tumor of the distal part of the femur or the proximal part of the tibia: Endoprosthetic replacement or rotationplasty: Functional outcome and quality-of-life measurements. *J Bone Jt Surg - Ser A* 1999; 81: 462–468
- [23] Hobusch GM, Keusch F, Tsuchiya H et al. What Opinions Do Tumor Reconstructive Surgeons Have about Sports Activity after Megaprosthesis Replacement in Hip and Knee? Results of the MoReSports Expert Opinion Online Survey. *J Clin Med* 2020; 9: 3638
- [24] Lang NW, Hobusch GM, Funovics PT et al. What Sports Activity Levels Are Achieved in Patients With Modular Tumor Endoprostheses of Osteosarcoma About the Knee? *Clin Orthop Relat Res* 2015; 473: 847–854
- [25] Morfeld M, Kirchberger I, Fragebogen MB. Zum Gesundheitszustand 2., ergänz.. 2011; <https://www.testzentrale.de/shop/fragebogen-zum-gesundheitszustand.html>
- [26] Morfeld M, Kirchberger I, Fragebogen MB. Zum Gesundheitszustand 2., Ergänzte Und Überarbeitete Auflage 2011; 2011
- [27] McClenaghan BA, Krajbich JI, Pirone AM et al. Comparative assessment of gait after limb-salvage procedures. *J Bone Joint Surg Am* 1989; 71: 1178–1182
- [28] Mirabello L, Troisi RJ, Savage SA. International osteosarcoma incidence patterns in children and adolescents, middle ages and elderly persons. *Int J Cancer* 2009; 125: 229–234
- [29] Morri M, Forni C, Ruisi R et al. Postoperative function recovery in patients with endoprosthetic knee replacement for bone tumour: An observational study. *BMC Musculoskelet Disord* 2018; 19: 1–7
- [30] Nes V. Modified Van Nes 1990; 72-B(6)
- [31] Petersen W, Zantop T. Return to play following ACL reconstruction: survey among experienced arthroscopic surgeons (AGA instructors). *Arch Orthop Trauma Surg* 2013; 133: 969–977
- [32] Kotz R. Rotationplasty. *Semin Surg Oncol* 1334–40. Published online 1997; 34–40
- [33] Reulen RC, Zeegers MP, Jenkinson C et al. The use of the SF-36 questionnaire in adult survivors of childhood cancer: Evaluation of data quality, score reliability, and scaling assumptions. *Health Qual Life Outcomes* 2006; 4: 1–8
- [34] Rödl RW, Pohlmann U, Gosheger G et al. Rotationplasty - Quality of life after 10 years in 22 patients. *Acta Orthop Scand* 2002; 73: 85–88
- [35] Rotationplasty FPA. Electromyographic and Gait Analysis of. *J Bone Jt Surg*. Published online 1950; 187–196
- [36] Rubio D. tumour EPR for primary aggressive and malignant bone tumours of the distal femur 2013; 7: 1–5
- [37] Sawamura C, Hornicek FJ, Gebhardt MC. Complications and risk factors for failure of rotationplasty: Review of 25 patients. *Clin Orthop Relat Res* 2008; 466: 1302–1308
- [38] Shehadeh A, Noveau J, Malawer M et al. Late complications and survival of endoprosthetic reconstruction after resection of bone tumors. *Clin Orthop Relat Res* 2010; 468: 2885–2895
- [39] Sørensen AL, Jørgensen PH, Kiil BJ et al. [Orthopaedic treatment of malignant bone tumours in children]. *Ugeskr Laeger* 2020; 182(7)
- [40] Sprangers MA, Schwartz CE. Integrating response shift into health-related quality of life research: a theoretical model. *Soc Sci Med* 1999; 48: 1507–1515
- [41] Stevens M, Frobisher C, Hawkins M et al. A Comparative Analysis of Functional Outcomes in Adolescents and Young Adults With Lower-Extremity Bone Sarcoma. *J Child Adolesc Psychol Psychiatr* 2008; 50: 1018–1025
- [42] Stevens M, Frobisher C, Hawkins M et al. Health Related Quality of Life in Adolescent and Young Adult Survivors of Lower Extremity Bone Tumors. *Pediatr Blood Cancer* 2008; 50: 1018–1025
- [43] Stevens M, Frobisher C, Hawkins M et al. Quality of Life in Young Patients After Bone Tumor Surgery Around the Knee Joint and Comparison With Healthy Controls. *Pediatr Blood Cancer* 2008; 50: 1018–1025
- [44] Taran SJ, Taran R, Malipatil NB. Pediatric Osteosarcoma: An Updated Review. *Indian J Med Paediatr Oncol* 2017; 38: 33–43
- [45] Tegner Y, Lysholm J. Rating systems in the evaluation of knee ligament injuries. *Clin Orthop Relat Res* 1985; 198: 43–49
- [46] Veenstra KM, Sprangers MAG. Quality of Life in Survivors With a Van Ness-Borggreve Rotationplasty After Bone 2000; 192–197
- [47] Veenstra KM, Sprangers MAG, Van Der Eyken JW et al. Quality of life in survivors with a Van Ness-Borggreve rotationplasty after bone tumour resection. *J Surg Oncol* 2000; 73: 192–197
- [48] Ware JE, Sherbourne CD. The MOS 36-item short-form health survey (SF-36). I. Conceptual framework and item selection. *Med Care* 1992; 30: 473–483
- [49] Winkelmann WW. Hip rotationplasty for malignant tumors of the proximal part of the femur. *J Bone Joint Surg* 1986; 68(3)
- [50] Winkelmann WW. Rotationplasty. *Orthop Clin North Am* 1996; 27: 503–523
- [51] Winkelmann WW. Type-B-IIIa Hip Rotationplasty: An Alternative Operation for the Treatment of Malignant Tumors of the Femur in Early Childhood. *J Bone Joint Surg* 2000; 82: 814–823

Supplementary Material

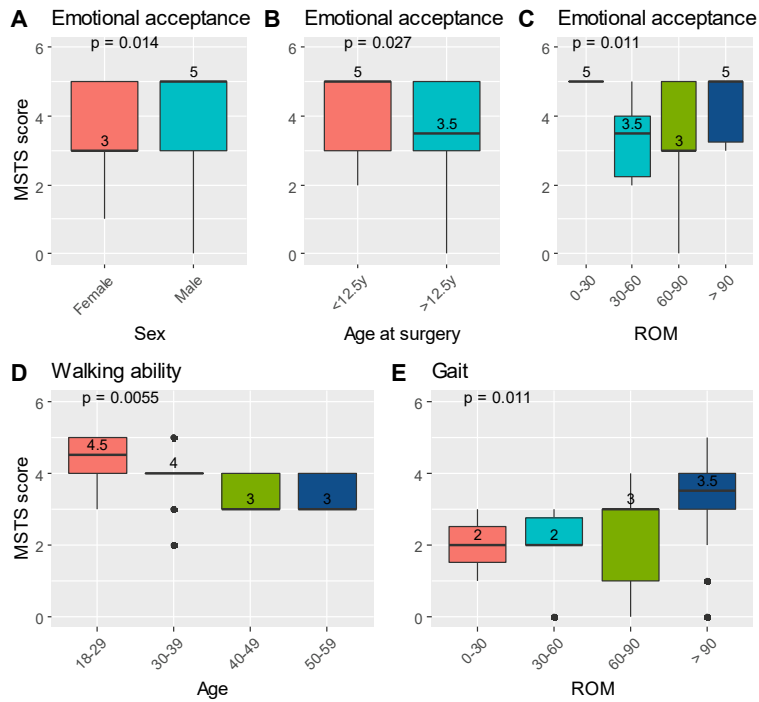
Supplemental Figure S1. Flow chart of study participants One of the 60 participants had not completed the SF-36 questionnaire.



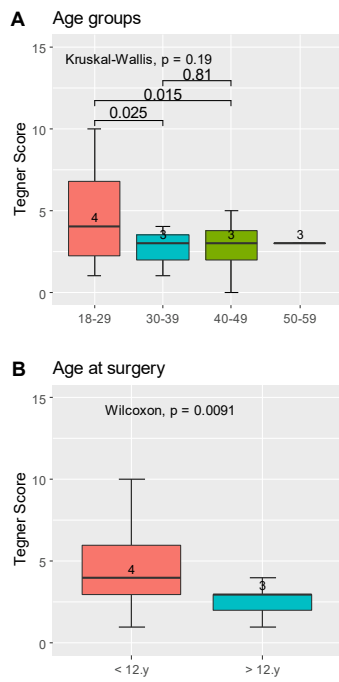
Supplemental Figure S2. Frequency distribution of the six components of MSTs. A higher score represents a better functional outcome.



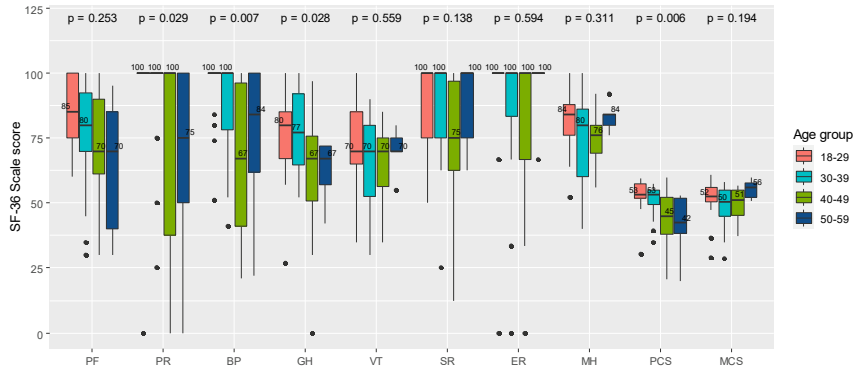
Supplemental Figure S3. Distribution of the Musculoskeletal Tumor Society Score (MSTS) and components categorized by age groups. The scores were transformed in a scale from 0-100. A higher score represents a better functional outcome. P-values were performed with the Kruskal-Wallis test.



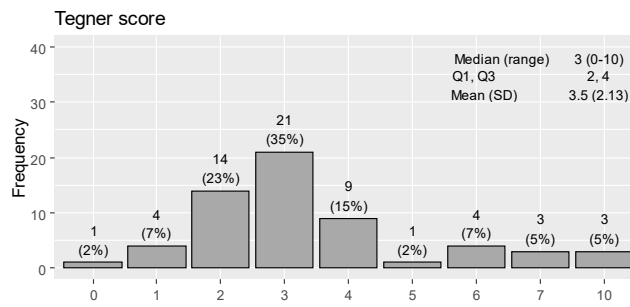
Supplemental Figure S4. Boxplots show the significant differences in the emotional acceptance scores by gender (A), by age at surgery (B) and by range of motion (C). The boxplots below exhibit the distribution of walking ability scores by age groups (D) and gait scores by ROM categories (E). P-values were performed with the Wilcoxon-Mann-Whitney-U-Tess or Kruskal-Wallis test as appropriate. Abbreviations: ROM, range of motion



Supplemental Figure S5. Distribution of the Tegner activity level scale (Tegner score) by age groups (A) and by age at surgery groups (B). P-values were performed with Wilcoxon-Mann-Whitney-U-test or Kruskal-Wallis test.



Supplemental Figure S6. Distribution of the SF-36 and subscales categorized by age group P-values were performed with the Kruskal-Wallis test. Abbreviations: PF, physical functioning; PR, physical role functioning; BP, bodily pain; GH, general health; VT, vitality; SR, social role functioning; ER, emotional role functioning; MH, mental health; PCS, Physical component summary score; MCS, Mental health component summary score



Supplemental Figure S7. Distribution of the Tegner activity level scale (Tegner Score). A higher score represents a better functional outcome and a higher activity level. Abbreviations: Q1, Q3, first and third quartiles; SD, standard deviation

Supplemental Table S1. Significant associations between the MST5 score and participant's characteristics or impairments.

Characteristics	Pain	Function	acceptanc e	walking support	walking ability	Gait	MST5
Gender (ref. level female)			↓ *				
Age	↓ *				↓ **		↓ *
BMI							
Age at surgery			↓ *				
Time since surgery							
Anatomic site							
ROM			↑ *			↑ *	↑ **
Impairments							
Sore							
Limited mobility ankle		↓ **	↓ *	↓ **		↓ ***	↓ ***
Numbness							
Swelling		↓ **				↓ **	↓ **
Problems with contralateral leg	↓ **	↓ **			↓ *	↓ **	↓ **
Mycosis pedis							
Blister							
Arthrosis (ankle)	↓ *						
Phantom pain							
Hematoma							

Abbreviations: ROM, range of motion

For numeric values, ↓ indicates high value of characteristics or impairments associated with low score; ↑ indicates high value of characteristics or impairments associated with high score. For categorized variables, ↓ indicates reference level associated with low score.

* p ≤0.05; ** p≤0.01; *** p≤0.001

Supplemental Table S2. Significant associations between the SF-36 score and participant's characteristics or impairments

Characteristics	PF	PR	BP	GH	VT	SR	ER	MH	PCS	MCS
Gender (ref. level female)										
Age		↓**	↓**	↓*		↓*			↓**	
BMI										
Age at surgery	↓*									
Time since surgery		↓**	↓***	↓**		↓*			↓***	
Anatomic site										
ROM	↑*									
Impairments										
Sore								↓*		
Limited mobility ankle					↓*		↓**	↓*		↓**
Numbness										
Swelling				↓*						
Problems with contralateral leg		↓**	↓**			↓*	↓*		↓**	
Mycosis pedis						↓*				
Blister										
Arthritis (ankle)				↓*	↓*	↓***			↓*	
Phantom pain										
Hematoma										

Abbreviations: ROM, range of motion; BMI, body mass index; PF, physical functioning; PR, physical role functioning; BP, bodily pain; GH, general health; VT, vitality; SR, social role functioning; ER, emotional role functioning; MH, mental health; PCS, Physical component summary score; MCS, Mental health component summary score

↓ indicates high value of characteristics or impairments associated with low score.

↑ indicates high value of characteristics or impairments associated high score.

* $p \leq 0.05$; ** $p \leq 0.01$; *** $p \leq 0.001$

DARSTELLUNG DES EIGENEN ANTEILS

Bei der hier vorliegenden Arbeit handelt es sich um eine publikationsbasierte Dissertation, wobei eine in einem Peer Review-Verfahren geprüfte und veröffentlichte Publikation enthalten ist, die durch die Zusammenarbeit mehrerer Personen entstanden ist.

Eigene Leistungen, die im Folgenden beschrieben werden, umfassten die Identifizierung eines geeigneten Patientenkollektivs, sowie die Implementierung eines Fragebogens. Dieser wurde mit Unterstützung der COSS (Cooperative OsteoSarkom Studiengruppe)-Studienzentrale an die Patienten verteilt. Die durch den Fragebogen erfassten Daten wurden dann in einem Data-Set zusammengefasst. Die Datenverarbeitung und statistische Auswertung wurde unter Supervision von Frau Emilia Salzmann durchgeführt.

Nach einer ausgiebigen Literaturrecherche wurde ein Entwurf des Manuskripts erstellt, welches mit Hilfe aller Beteiligten vervollständigt wurde. Während des Peer Review-Verfahrens wurden Änderungen an der finalen Arbeit vorgenommen.

LITERATURVERZEICHNIS

1. Diagnostic I. Die interdisziplinäre Diagnostik und Therapie von Knochensarkomen der Extremitäten und des Rumpfes Interdisciplinary Diagnostic and Treatment of Bone Sarcomas of the. 2015:90-99.
2. Taran SJ, Taran R, Malipatil NB. Pediatric Osteosarcoma: An Updated Review. *Indian J Med Paediatr Oncol*. 2017;38(1):33-43.
3. Mirabello L, Troisi RJ, Savage SA. International osteosarcoma incidence patterns in children and adolescents, middle ages and elderly persons. *Int J Cancer*. 2009;125(1):229-234.
4. Carrle D, Bielack SS. Current strategies of chemotherapy in osteosarcoma. 2006:445-451.
5. Tunn PU, Pomraenke D, Goerling U, Hohenberger P. Functional outcome after endoprosthetic limb-salvage therapy of primary bone tumours - A comparative analysis using the MSTS score, the TESS and the RNL index. *Int Orthop*. 2008;32(5):619-625.
6. Stevens M, Frobisher C, Hawkins M, et al. A Comparative Analysis of Functional Outcomes in Adolescents and Young Adults With Lower-Extremity Bone Sarcoma. *J Pediatr Blood Cancer*. 2008;50(5):1018-1025.
7. Morri M, Forni C, Ruisi R, et al. Postoperative function recovery in patients with endoprosthetic knee replacement for bone tumour: An observational study. *BMC Musculoskelet Disord*. 2018;19(1):1-7.
8. Shehadeh A, Noveau J, Malawer M, Henshaw R. Late complications and survival of endoprosthetic reconstruction after resection of bone tumors. *Clin Orthop Relat Res*. 2010;468(11):2885-2895.
9. Hillmann A, Hoffmann C, Gosheger G, Krakau H, Winkelmann W. Malignant tumor of the distal part of the femur or the proximal part of the

- tibia: Endoprosthetic replacement or rotationplasty: Functional outcome and quality-of-life measurements. *J Bone Jt Surg - Ser A*. 1999;81(4):462-468.
10. Cammisa FPJ, Glasser DB, Otis JC, Kroll MA, Lane JM, Healey JH. The Van Nes tibial rotationplasty. A functionally viable reconstructive procedure in children who have a tumor of the distal end of the femur. *J Bone Joint Surg Am*. 1990;72(10):1541-1547.
 11. Frassica FJ, Schwartz HS, Pairolero PC, Sim FH. Rotation-plasty: Surgical technique of resection and reconstruction in the treatment of osteosarcoma about the knee in children. *Clin Anat*. 1988;1(2):105-116.
 12. Hanlon M, Krajbich JI. Rotationplasty in skeletally immature patients. Long-term followup results. *Clin Orthop Relat Res*. 1999;(358):75-82.
 13. Rotationplasty FPA. Electromyographic and Gait Analysis of. *J Bone Jt Surg*. 1950:187-196.
 14. Veenstra KM, Sprangers MAG, Van Der Eyken JW, Taminiau AHM. Quality of life in survivors with a Van Ness-Borggreve rotationplasty after bone tumour resection. *J Surg Oncol*. 2000;73(4):192-197.
 15. Rödl RW, Pohlmann U, Gosheger G, Lindner NJ, Winkelmann W. Rotationplasty - Quality of life after 10 years in 22 patients. *Acta Orthop Scand*. 2002;73(1):85-88.
 16. Nes V. Modified Van Nes. 1990;72(6).
 17. Bielack SS, Kempf-Bielack B, Delling G, et al. Prognostic factors in high-grade osteosarcoma of the extremities or trunk: an analysis of 1,702 patients treated on neoadjuvant cooperative osteosarcoma study group protocols. *J Clin Oncol Off J Am Soc Clin Oncol*. 2002;20(3):776-790.
 18. Nagarajan R, Clohisy DR, Neglia JP, et al. Function and quality-of-life of survivors of pelvic and lower extremity osteosarcoma and Ewing's sarcoma: The Childhood Cancer Survivor Study. *Br J Cancer*.

- 2004;91(11):1858-1865.
19. Forni C, Gaudenzi N, Zoli M, et al. Living With Rotationplasty — Quality of Life in Rotationplasty Patients From Childhood to Adulthood. 2012;(May 2011):331-336.
 20. Kinderkrebsregister D. Deutscher Kinderkrebsregister Auswertung Osteosarkom.17.01.2017.
 21. Winkelmann WW. Rotationplasty. *Orthop Clin North Am.* 1996;27(3):503-523.
 22. Winkelmann WW. Hip rotationplasty for malignant tumors of the proximal part of the femur. *JBJS.* 1986;68(3).
 23. Ellert U, Kurth BM. Health related quality of life in adults in Germany: results of the German Health Interview and Examination Survey for Adults (DEGS1). *Bundesgesundheitsblatt - Gesundheitsforsch - Gesundheitsschutz.* 2013;56(5-6):643-649.
 24. Gradl G, Postl LK, Lenze U, et al. Long-term functional outcome and quality of life following rotationplasty for treatment of malignant tumors. *BMC Musculoskelet Disord.* 2015:1-7.
 25. El-Dalil P, Warrener T, De Souza M, Abudu A. A comparative study of the complications and functional outcomes of endoprosthetic replacements and rotationplasty in childhood. *Orthop Proc.* 2011;93-B(SUPP_III):316.
 26. Henderson ER, Pepper AM, Marulanda G, Binitie OT, Cheong D, Letson GD. Outcome of lower-limb preservation with an expandable endoprosthesis after bone tumor resection in children. *J Bone Jt Surg - Ser A.* 2012;94(6):537-547.
 27. Winkelmann WW. Type-B-IIIa Hip Rotationplasty: An Alternative Operation for the Treatment of Malignant Tumors of the Femur in Early Childhood*. *JBJS.*2000;82(6).
 28. Sørensen AL, Jørgensen PH, Kiil BJ, Baad-Hansen T. [Orthopaedic

- treatment of malignant bone tumours in children]. *Ugeskr Laeger*. 2020;182(7).
29. Grimer RJ, Aydin BK, Wafa H, et al. Very long-term outcomes after endoprosthetic replacement for malignant tumours of bone. *Bone Jt J*. 2016;98-B(6):857-864.
 30. Sawamura C, Hornicek FJ, Gebhardt MC. Complications and risk factors for failure of rotationplasty: Review of 25 patients. *Clin Orthop Relat Res*. 2008;466(6):1302-1308.
 31. Gebert C, Hardes J, Vieth V, Hillmann A, Winkelmann W, Gosheger G. The effect of rotationplasty on the ankle joint: Long-term results. *Prosthet Orthot Int*. 2006;30(3):316-323.
 32. Benedetti M, Okita Y, Recubini E, Mariani E, Leardini A, Manfrini M. How much clinical and functional impairment do children treated with knee rotationplasty experience in adulthood? *Clin Orthop Relat Res*. 2016;474(4):995-1004.
 33. Catani F, Capanna R, Benedetti MG, et al. Gait analysis in patients after Van Nes rotationplasty. *Clin Orthop Relat Res*. 1993;(296):270-277.
 34. McClenaghan BA, Krajchich JI, Pirone AM, Koheil R, Longmuir P. Comparative assessment of gait after limb-salvage procedures. *J Bone Joint Surg Am*. 1989;71(8):1178-1182.
 35. Fuchs B, Kotajarvi BR, Kaufman KR, Sim FH. Functional Outcome of Patients With Rotationplasty About the Knee. *Clin Orthop Relat Res*. 2003;415(415):52-58.
 36. Akahane T, Shimizu T, Isobe K, Yoshimura Y, Fujioka F, Kato H. Evaluation of postoperative general quality of life for patients with osteosarcoma around the knee joint. *J Pediatr Orthop Part B*. 2007;16(4):269-272.
 37. Lang NW, Hobusch GM, Funovics PT, Windhager R, Hofstaetter JG.

- What Sports Activity Levels Are Achieved in Patients With Modular Tumor Endoprostheses of Osteosarcoma About the Knee? *Clin Orthop Relat Res.* 2015;473(3):847-854.
38. Hobusch GM, Keusch F, Tsuchiya H, Joyce M, Windhager R. What Opinions Do Tumor Reconstructive Surgeons Have about Sports Activity after Megaprosthesis Replacement in Hip and Knee? Results of the MoReSports Expert Opinion Online Survey. *J Clin Med.* 2020;9(11):3638.
 39. Rainer Kotz. Rotationplasty. *Semin Surg Oncol* 1334–40. 1997:34-40.
 40. Stevens M, Frobisher C, Hawkins M, et al. Quality of Life in Young Patients After Bone Tumor Surgery Around the Knee Joint and Comparison With Healthy Controls W. *Pediatr Blood Cancer.* 2008;50(5):1018-1025.
 41. Stevens M, Frobisher C, Hawkins M, et al. Health Related Quality of Life in Adolescent and Young Adult Survivors of Lower Extremity Bone Tumors. *Pediatr Blood Cancer.* 2008;50(5):1018-1025.
 42. Dotan A, Dadia S, Bickels J, et al. Expandable endoprosthesis for limb-sparing surgery in children: Long-term results. *J Child Orthop.* 2010;4(5):391-400.
 43. Enneking WF, Dunham W, Gebhardt MC, Malawar M, Pritchard DJ. A system for the functional evaluation of reconstructive procedures after surgical treatment of tumors of the musculoskeletal system. *Clin Orthop Relat Res.* 1993;(286):241-246.
 44. Tegner Y, Lysholm J. Rating systems in the evaluation of knee ligament injuries. *Clin Orthop Relat Res.* 1985;(198):43-49.
 45. Petersen W, Zantop T. Return to play following ACL reconstruction: survey among experienced arthroscopic surgeons (AGA instructors). *Arch Orthop Trauma Surg.* 2013;133(7):969-977.
 46. Ware JEJ, Sherbourne CD. The MOS 36-item short-form health survey

- (SF-36). I. Conceptual framework and item selection. *Med Care*. 1992;30(6):473-483.
47. Reulen RC, Zeegers MP, Jenkinson C, et al. The use of the SF-36 questionnaire in adult survivors of childhood cancer: Evaluation of data quality, score reliability, and scaling assumptions. *Health Qual Life Outcomes*. 2006;4:1-8.
48. M. Morfeld, I. Kirchberger MB. *Fragebogen Zum Gesundheitszustand. 2., ergänz.*; 2011.

ANHANG

Methodik

Patientenrekrutierung:

135 Patienten, die sich aufgrund eines Knochensarkoms im Bereich des Knies einer Borggreveplastik unterzogen hatten, wurden von der Cooperativen Osteosarkom-Studie der Deutschen Gesellschaft für Pädiatrische Onkologie und Hämatologie (COSS-Studie) zur Teilnahme an der vorliegenden Studie eingeladen.

Ein Brief, in dem die Studie, ihr Zweck, ein Link zum Fragebogen und die Einwilligungserklärung zur Teilnahme enthalten waren, wurde verschickt. Der Fragebogen konnte über den Link im Brief oder über einen QR-Code geöffnet und beantwortet werden. Die Fragebögen wurden von den Teilnehmern als Selbsteinschätzung ausgefüllt.

Von jedem Patienten wurde eine Einwilligung eingeholt. Die Studie wurde von der lokalen Ethikkommission (Universitätsklinikum Frankfurt am Main Nr. 22/19) genehmigt und gemäß dem Datenschutzgesetz der EU durchgeführt.

Die Patienten mussten folgende Einschlusskriterien erfüllen: (1) Es mussten mindestens 10 Jahre seit der Borggreve-Operation vergangen sein, (2) zum Zeitpunkt der Studienteilnahme mussten die Teilnehmer mindestens 18 Jahre alt sein, (3) eine Einwilligung zur Teilnahme an der Studie musste vorliegen.

Die Antwortquote betrug 53,3% (72 von 135). 12 Patienten wurden aus unterschiedlichen Gründen von der Studie ausgeschlossen. Sechs Teilnehmer erfüllten die Einschlusskriterien nicht, ein Patient erhielt eine sekundäre Amputation und es wurden fünf Duplikate gefunden.

Schließlich wurden insgesamt 60 Patienten in diese Studie eingeschlossen.

Die restlichen eingeladenen Patienten haben nicht geantwortet. Es ist unklar, ob die Patienten aufgrund veralteter Angaben von Telefonnummern, Postanschriften oder aus anderen Gründen nicht geantwortet haben.

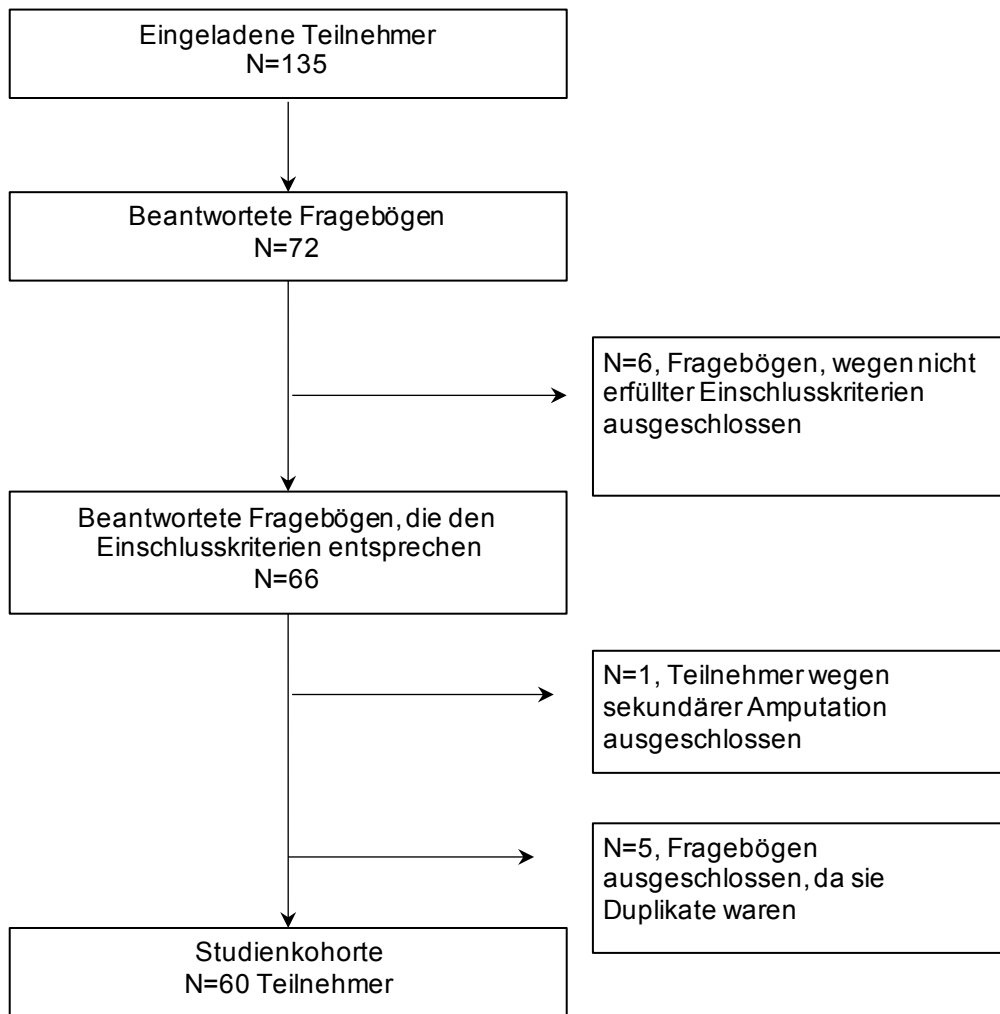


Abbildung 1: Flow chart der Studienteilnehmer

Einer der 60 Teilnehmer hat den SF-36-Fragebogen nicht vollständig ausgefüllt.

Fragebögen:

Das funktionelle Outcome wurde mit dem Musculoskeletal Tumor Society Score (MSTS) und der Tegner-Aktivitätsskala analysiert.

Der MSTS-Score besteht aus drei allgemeinen Komponenten (Schmerz, Funktion, emotionale Akzeptanz) und drei Komponenten, die spezifisch für die betroffene Extremität sind (Verwendung von Hilfsmitteln, Gehfähigkeit und Gangart).

Jedes Item kann mit 0 bis 5 Punkten bewertet werden, so dass der maximale Gesamtscore 30 Punkte beträgt, was ein hohes Maß an Funktionalität widerspiegelt ⁴³.

Die Tegner- Aktivitätsskala erfasst die sportlichen Aktivitäten und Arbeitsfähigkeit der Patienten. Die verschiedenen Aktivitätsgrade reichen von eingeschränktem Gehen und Arbeitslosigkeit bis hin zu Wettkampfsport auf internationalem Niveau^{44 45}.

Die Lebenszufriedenheit wurde mit Hilfe des Short Form Health Survey (SF-36) beurteilt. Der SF-36 quantifiziert die individuelle Gesundheit, sowie die krankheitsbezogene Lebensqualität. Er enthält 36 Items mit acht mehrstufigen Subskalen: körperliche Funktionsfähigkeit (PF), körperliche Rollenfunktion (PR), körperliche Schmerzen (BP), allgemeiner Gesundheitszustand (GH), Vitalität (VT), soziale Rollenfunktion (SR), emotionale Rollenfunktion (ER), psychische Gesundheit (MH), körperliche Summenskala (PCS), psychische Summenskala (MCS)⁴⁶.

Jede Skala reicht von 0-100. Diese acht Subskalen können unabhängig voneinander bewertet werden oder in zwei Summenscores zusammengefasst werden: Körperliche Summenskala (PCS) und Psychische Summenskala (MCS). Die körperliche Summenskala (PCS) umfasst PF, PR, BP, GH und die psychische Summenskala (MCS) umfasst VT, SR, ER, MH^{47 48}.

Die klinischen und demografischen Merkmale der Patienten wurden ebenfalls mit Hilfe des Fragebogens ermittelt.

Statistik

Alle statistischen Analysen wurden mit R (Version 4.0.2) und SPSS (Version 26.0, SPSS Inc.) durchgeführt.

Kategorische Variablen wurden als Häufigkeiten und als Prozentsatz angegeben. Numerische Variablen wurden als Median (Bereich), erstes und drittes Quartil (Q1, Q3) und Mittelwert (SD) zusammengefasst.

Numerische Variablen wurden außerdem in zwei Gruppen entsprechend ihrem Median kategorisiert. Außerdem wurde das Alter in fünf Gruppen kategorisiert: 18-29, 30-39, 40-49 und 50-59 Jahre. Diese Variablen wurden als numerische Variablen und als kategorische Variablen analysiert.

Die Daten wurden mit visuellen Methoden wie, Histogrammen, Boxplots und Violin-Plots und dem Wilk-Shapiro-Test auf Gauß'sche Verteilung analysiert.

Zusätzlich wurde untersucht, ob eine Korrelation zwischen dem MSTS-Score, der Tegner Aktivitätslevel Skala oder des SF-36-Scores und den soziodemographischen und klinischen Variablen besteht. Da keine Normalverteilung vorlag, wurde der Mann-Whitney-Test bzw. der Kruskal-Wallis-Test verwendet. Die Spearman's Rangkorrelation wurde angewendet, um die Korrelation zwischen den Scores und numerischen Variablen zu analysieren.

Unterschiede im SF-36-Score zwischen unserer Patientenkohorte und der allgemeinen deutschen Bevölkerung wurde mit dem Einstichproben-Median-Test ermittelt. Der Mittelwert wurde als Median für die Referenzgruppe verwendet, da beide bei normalverteilten Daten gleich sind.

Alle Signifikanztests waren zweiseitig und ein p-Wert $<0,05$ wurde als statistisch signifikant angesehen. Für die vorliegende Analyse wurde keine statistische Anpassung vorgenommen.

Fragebogen

Einführung

Sehr geehrte Patientin, sehr geehrter Patient,

Vielen Dank, für Ihre Bereitschaft an dieser Studie teilzunehmen.

Mit Ausfüllen des Fragebogens willigen Sie ein an dieser Studie teilzunehmen. Sie erklären sich damit einverstanden, dass die im Rahmen der Studie erhobenen Daten gespeichert, ausgewertet und weitergegeben werden, wie in der Patienteninformation erläutert (Art. 9 (2a) DSGVO).

Gemäß § 51 BDSG können Sie Ihre Einwilligung zur Verwendung Ihrer Daten jederzeit ohne Angaben von Gründen und ohne nachteilige Folgen für Sie widerrufen.

Ich bin darüber aufgeklärt worden, dass durch den Widerruf der Einwilligung die Rechtmäßigkeit der aufgrund der Einwilligung bis zum Widerruf erfolgten Verarbeitung nicht berührt wird (Widerruf mit Wirkung für die Zukunft). Die bis zu diesem Zeitpunkt gespeicherten Daten können weiterhin für Forschungszwecke genutzt werden.

Bei Beendigung der Studienteilnahme werden die Daten wie in der Patienteninformation erläutert behandelt und keine weiteren Daten mehr erhoben.

Bereits erhobene Daten werden weiterhin für Forschungszwecke genutzt.

Wenn Sie mit der in der Patienteninformation beschriebenen Handhabung Ihrer Daten einverstanden sind, klicken Sie bitte auf "weiter" und Sie gelangen zum Fragebogen.

Allgemeine Fragen

* 1. Was ist Ihr Geschlecht?

- Weiblich
 Männlich

* 2. Wie alt sind Sie?

* 3. Bitte geben Sie Ihre Körpergröße in cm ein

* 4. Bitte geben Sie Ihr aktuelles Gewicht in Kilogramm ein.

* 5. Welche der folgenden Optionen beschreibt Ihren derzeitigen Familienstand am besten?

- Verheiratet
 Verwitwet
 Geschieden
 Getrennt lebend
 Ledig, aber mit Partnerin/Partner lebend
 Ledig, alleine lebend

* 6. Was ist der höchste Bildungsgrad bzw. der höchste Bildungsabschluss, den Sie erreicht haben?

- Hauptschulabschluss/Mittlere Reife
 Abitur oder gleichwertiger Abschluss
 Studium ohne Abschluss
 Vordiplom
 Bachelor-Abschluss/Diplom
 Weiterführendes Studium/Master-Abschluss
 Sonstiges

* 7. Meine Umkehrplastik ist

- rechts
 links

* 8. Ich habe folgenden Typ der Umkehrplastik

- | | |
|--------------------------|---|
| <input type="radio"/> A1 | <input type="radio"/> B3a |
| <input type="radio"/> A2 | <input type="radio"/> B3b |
| <input type="radio"/> B1 | <input type="radio"/> Ich weiß es nicht |
| <input type="radio"/> B2 | |

* 9. Bitte geben Sie Ihr Alter zum OP-Zeitpunkt ein.

* 10. Seit meiner OP habe ich folgende Beeinträchtigungen:
(Mehrfachantworten sind hier möglich)

- | | |
|--|---------------------------------------|
| <input type="checkbox"/> Keine Beeinträchtigungen | <input type="checkbox"/> Wundstellen |
| <input type="checkbox"/> eingeschränkte Beweglichkeit | <input type="checkbox"/> Schwellungen |
| <input type="checkbox"/> Taubheitsgefühl im operierten Bein | <input type="checkbox"/> Blasen |
| <input type="checkbox"/> Arthrose des Sprunggelenks | <input type="checkbox"/> Blutergüsse |
| <input type="checkbox"/> Phantomschmerzen | <input type="checkbox"/> Fußpilz |
| <input type="checkbox"/> Probleme mit der anderen Extremität | <input type="checkbox"/> Schmerzen |

Sonstiges

* 11. Ich trage meine Prothese

- weniger als 5 Stunden
- einen vollen Arbeitstag (8-10 Stunden)
- Vom Aufstehen bis zum Schlafen gehen
- 24 Stunden

* 12. Meine Beweglichkeit des Umkehrplastik-Fußgelenks ist

- über 90°
- 60-90°
- 30-60°
- 0-30°

* 13. Ich kann mit meiner Umkehrplastik Auto fahren

- | | |
|---|--|
| <input type="radio"/> Nein | <input type="radio"/> Ja, mit einem für mich umgebauten Auto |
| <input type="radio"/> Ja, mit Schaltung | <input type="radio"/> Ja, mit Handgas |
| <input type="radio"/> Ja, mit Automatik | <input type="radio"/> Ich habe keinen Führerschein |

Allgemeine Fragen zur Funktionalität nach dem Musculoskeletal Tumor Society-Score (MSTS)

Bitte antworten Sie in diesem Teil auf die folgenden Aussagen.

* 14. Meine Schmerzstärke und dadurch bedingte Einschränkung:

- Keine Schmerzen (keine Medikamente)
- Dazwischenliegend (= zwischen Antwort 1 und 3)
- Mäßig/nicht behindernd (Nichtopioide *)
- Dazwischenliegend (=zwischen Antwort 3 und 5)
- Mäßig/ Zeitweise behindernd (Intermittierend Opioide, *Nicht dem Betäubungsmittel unterliegende Schmerzmittel, wie z.B. Paracetamol, Voltaren, Ibuprofen, Novalgin)
- Stark/Ständig behindernd (Kontinuierlich Opioide. Dem Betäubungsmittel unterliegende Substanzen (z.B. Morphin, Fentanyl))

* 15. Bei den alltäglichen Aktivitäten habe ich

- Keine Einschränkung, keine Behinderung
- Dazwischenliegend (= zwischen Antwort 1 und 3)
- Einschränkungen bei Freizeitaktivitäten, geringe Behinderung
- Dazwischenliegend (=zwischen Antwort 3 und 5)
- Teilweise berufliche Einschränkungen, deutliche Behinderung
- vollständige berufliche Einschränkung, komplette Behinderung

* 16.

Meine emotionale Akzeptanz hinsichtlich des funktionalen Ergebnisses ist:

- Begeistert, ich würde die Umkehrplastik weiterempfehlen
- Dazwischenliegend (=zwischen Antwort 1 und 3)
- Zufrieden, ich würde mich wieder für die Umkehrplastik entscheiden
- Dazwischenliegend (=zwischen Antwort 3 und 5)
- Akzeptiert, ich würde mich ungern wieder für die Umkehrplastik entscheiden
- Ablehnend, ich würde mich nicht wieder für die Umkehrplastik entscheiden

* 17. Benötigen Sie Hilfsmittel zum Gehen (Art und Häufigkeit der Hilfsmittelnutzung, um Schwäche oder Instabilität zu kompensieren):

- Keine Hilfsmittel
- Dazwischenliegend, gelegentliche Nutzung von Bandagen
- Bandagen, meistens Nutzung von Bandagen
- Dazwischenliegend, gelegentlich Stock/ Unterarmgehstütz
- Meistens Stock oder Unterarmgehstütz
- Immer 2 Stöcke oder Unterarmgehstütz

* 18. Wie beurteilen Sie Ihre Gehfähigkeit (ohne Einfluss kardialer, respiratorischer oder neurologischer Faktoren)?

- Keine Limitierung, wie vor der OP
- Dazwischenliegend (= zwischen Antwort 1 und 3)
- Limitiert, signifikant weniger als vor der OP
- Dazwischenliegend (=zwischen Antwort 3 und 5)
- Keine Fortbewegung außerhalb des Hauses/ der Wohnung
- Nicht unabhängig, Fortbewegung nur mit Unterstützung oder Rollstuhl

* 19. Wie beurteilen Sie Ihren Gang ? (Vorhandene oder nicht vorhandene Gangveränderungen, sowie deren Auswirkungen auf die Funktion):

- Normal, keine Veränderungen
- Dazwischenliegend
- Geringfügig verändert (=zwischen Antwort 1 und 3)
- Dazwischenliegend (=zwischen Antwort 3 und 5)
- Stark verändert, leichtes funktionelles Defizit
- Starke Beeinträchtigung, starkes funktionelles Defizit

Allgemeine Fragen zur Funktionalität nach dem Tegner Aktivitätsscore

* 20. Bitte lesen Sie die nachfolgende Aufstellung durch. Beurteilen Sie Ihren Aktivitätsstatus und kreuzen Sie die betreffende Spalte an (nur eine Spalte ankreuzen). Falls mehrere Spalten zutreffen sollten, wählen sie bitte die mit der höchsten Wertung.

- 1. Wettkampfsport auf nationalem oder internationalem Niveau (Fußball, Ski Alpin auf nationalem, internationalem Niveau)
- 2. Wettkampfsport auf regionalem Niveau (Eishockey, Ringen, Turnen, Fußball, Ski Alpin auf regionalem Niveau)
- 3. Wettkampfsport (Snowboard, Badminton, Squash, Leichtathletik (Sprungdisziplinen))
- 4. Wettkampfsport (Tennis, Leichtathletik (Lauf- und Wurfdisziplinen), Geräteturnen, Handball, Basketball, Orientierungslauf, Crosslauf, Eishockey, Fußball, Ski Alpin)
- 5. Freizeitsport (Badminton, Tennis, Squash, Basketball, Handball, Volleyball, Orientierungslauf, Crosslauf, Snowboard, Aerobic (high impact) Joggen (mind. 5x pro Woche))
- 6. Wettkampfsport (Radfahren, Skilanglauf, Eiskunstlauf)

Freizeitsport (Turnen, Gymnastik, Inline-Skating, Klettern, Bergsteigen, Skitouren, Schneeschuhlaufen, Joggen auf unebenen Boden (mind. 2x pro Woche))

Arbeit (schwere körperliche Arbeit wie Bauarbeiten, Waldarbeiten)

- 7. Freizeitsport (Skilanglauf, Radfahren, Tanzen, Aerobic (low impact), Bergwandern abwärts, Joggen auf ebenen Boden (mind. 2x pro Woche))

Arbeit (mittelschwere körperliche Arbeit, wie schwere Hausarbeiten)

- 8. Wettkampf- und Freizeitsport (Schwimmen, Wandern, Walking, Kegeln, Bowling)

Arbeit (leichte körperliche Arbeit)

Gehen (Querfeldein möglich)

- 9. Arbeit (vorwiegend sitzende Tätigkeiten)

Gehen (auf unebenen Boden möglich)

- 10. Arbeit (Sitzende Tätigkeit)

Gehen (Nur auf ebenen Boden möglich)

- 11. Arbeit (Arbeitsunfähig oder berentet)

Gehen (nur eingeschränkt möglich)

Ich mache eine hier nicht genannte Sportart und zwar:

* 21. Ich trage beim Sport

- Meine Alltagsprothese
- Eine für die Sportart speziell angefertigte Prothese
- Eine Multifunktionsprothese
- Keine Prothese

Allgemeine Fragen zur Lebenszufriedenheit nach dem SF-36

„© Hogrefe Verlag GmbH & Co. KG, Göttingen. Nachdruck und jegliche Art der Vervielfältigung verboten. Mit freundlicher Genehmigung.“

* 22. Wie würden Sie Ihren Gesundheitszustand im Allgemeinen beschreiben?

- Ausgezeichnet
- Sehr gut
- Gut
- Weniger gut
- Schlecht

* 23. Im Vergleich zum vergangenen Jahr, wie würden Sie Ihren derzeitigen Gesundheitszustand beschreiben ?

- Derzeit viel besser
- Derzeit etwas besser
- Etwa wie vor einem Jahr
- Derzeit etwas schlechter
- Derzeit viel schlechter

* 24. Im folgenden sind einige Tätigkeiten beschrieben, die Sie vielleicht an einem normalen Tag ausüben. Sind Sie durch Ihren derzeitigen Gesundheitszustand bei diesen Tätigkeiten eingeschränkt? Wenn ja, wie stark?

(Bitte eine Antwort pro Zeile ankreuzen)

	Ja stark eingeschränkt	Ja, etwas eingeschränkt	Nein, überhaupt nicht eingeschränkt
Anstrengende Tätigkeiten z.B. schnell laufen, schwere Gegenstände heben, anstrengend Sport treiben	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
Mittelschwere Tätigkeiten, z.B. einen Tisch verschieben, staubsaugen, kegeln, Golf spielen	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
Einkaufstaschen heben oder tragen	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
mehrere Treppenabsätze steigen	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
einen Treppenansatz steigen	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
sich beugen, knien, bücken	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
mehr als 1 Kilometer weit zu Fuß gehen	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
mehrere Straßenkreuzungen weit zu Fuß gehen	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
eine Straßenkreuzung weit zu Fuß gehen	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
sich baden oder anziehen	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>

* 25. Hatten Sie in den vergangenen 4 Wochen aufgrund Ihrer körperlichen Gesundheit irgendwelche Schwierigkeiten bei der Arbeit oder anderen alltäglichen Tätigkeiten im Beruf bzw. zu Hause?

(Bitte eine Antwort pro Zeile ankreuzen)

	Ja	Nein
Ich konnte nicht so lange wie üblich tätig sein	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
Ich habe weniger geschafft als ich wollte	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
Ich war eingeschränkt bei einigen Aktivitäten	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
Ich hatte Schwierigkeiten bei der Ausführung (z.B. ich musste mich besonders anstrengen)	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>

* 26. Hatten Sie in den vergangenen 4 Wochen aufgrund seelischer Probleme irgendwelche Schwierigkeiten bei der Arbeit oder anderen alltäglichen Tätigkeiten im Beruf bzw. zu Hause (z.B. weil Sie sich niedergeschlagen oder ängstlich fühlten)?

(Bitte eine Antwort pro Zeile ankreuzen)

	Ja	Nein
Ich konnte nicht so lange wie üblich tätig sein	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
Ich habe weniger geschafft als ich wollte	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
Ich konnte nicht so sorgfältig wie üblich arbeiten	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>

* 27. Wie sehr haben Ihre körperliche Gesundheit oder seelischen Probleme in den vergangenen 4 Wochen Ihre normalen Kontakte zu Familienangehörigen, Freunden, Nachbarn oder zum Bekanntenkreis beeinträchtigt?

- Überhaupt nicht
- Etwas
- Mäßig
- Ziemlich
- Sehr

* 28. Wie stark waren Ihre Schmerzen in den vergangenen 4 Wochen ?

- Ich hatte keine Schmerzen
- Sehr leicht
- Leicht
- Mäßig
- Stark
- sehr stark

* 29. Inwieweit haben die Schmerzen Sie in den vergangenen 4 Wochen bei der Ausübung Ihrer Alltagstätigkeiten zu Hause und im Beruf behindert ?

- Überhaupt nicht
- Ein bisschen
- Mäßig
- Ziemlich
- Sehr

* 30. In diesen Fragen geht es darum, wie Sie sich fühlen und wie es Ihnen in den vergangenen 4 Wochen gegangen ist. (Bitte kreuzen Sie in jeder Zeile die Zahl an, die Ihrem Befinden am ehesten entspricht). Wie oft waren Sie in den vergangenen 4 Wochen...

(Bitte eine Antwort pro Zeile ankreuzen)

	Immer, die ganze Zeit	Meistens	Ziemlich oft	Manchmal	Selten	Nie
Voller Schwung	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
Sehr nervös	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
So niedergeschlagen, dass Sie nichts aufheitern konnte	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
Ruhig und gelassen	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
Voller Energie	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
Entmutigt und traurig	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
Erschöpft	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
Glücklich	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
Müde	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>

* 31. Wie häufig haben Ihre körperliche Gesundheit oder seelischen Probleme in den vergangenen 4 Wochen Ihre Kontakte zu anderen Menschen (Besuche bei Freunden, Verwandten usw.) beeinträchtigt?

- Immer
- Meistens
- Manchmal
- Selten
- Nie

* 32. Inwieweit trifft jede der folgenden Aussagen auf Sie zu ?

(Bitte eine Antwort pro Zeile ankreuzen)

	Trifft ganz zu	Trifft weitgehend zu	Weiß nicht	Trifft weitgehend nicht zu	Trifft überhaupt nicht zu
Ich scheine etwas leichter als andere krank zu werden	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
Ich bin genauso gesund wie alle anderen, die ich kenne	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
Ich erwarte, dass meine Gesundheit nachlässt, schlechter wird	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>
Ich erfreue mich ausgezeichneter Gesundheit	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>	<input type="radio"/>

33. Das möchte ich noch anmerken:

Vielen Dank für Ihre Teilnahme !

LEBENS LAUF

DANKSAGUNG

An dieser Stelle möchte ich meinen besonderen Dank an die folgenden Personen aussprechen, die die Durchführung dieser Promotion ermöglicht und unterstützt haben.

An erster Stelle möchte ich mich bei meinem Doktorvater, Herrn Prof. Dr. Thomas Klingebiel für die Ermöglichung der Promotion, die herausragende Betreuung sowie die inhaltliche und persönliche Unterstützung und ständige Erreichbarkeit bei Fragen jeglicher Art, bedanken.

Darüber hinaus gebührt ein großer Dank den Kollegen der Cooperativen Osteosarkom-Studie der Deutschen Gesellschaft für Pädiatrische Onkologie und Hämatologie (COSS-Studie), Prof. Dr. Stefan Bielack, Dr. Stefanie Hecker-Nolting, Benjamin Sorg und Matthias Kevric, für die Ermöglichung des Zugangs zu potenziellen Studienteilnehmern. In diesem Zusammenhang bedanke ich mich auch bei allen Studienteilnehmern, die sich dazu bereit erklärt haben, an dieser Studie teilzunehmen. Des Weiteren danke ich Frau Emilia Salzmann für die Unterstützung bei der Statistik.

Ganz besonders danke ich meiner Familie für die Begleitung und Unterstützung in jeder Lebenssituation, nicht nur während meines Studiums und meiner Promotion. Insbesondere danke ich meinen Eltern, Thomas und Martina Gotta, die meinen Werdegang erst möglich gemacht haben.

In besonderer Weise möchte ich mich abschließend bei Prof. Dr. Thomas Klingebiel, Prof. Dr. Joachim Schirren und Prof. Dr. Andreas Kurth bedanken. Ohne Ihre Unterstützung hätte ich nicht die Möglichkeit bekommen, an diesem Punkt im Leben zu stehen, an dem ich mich heute befinde.

Schriftliche Erklärung

Ich erkläre ehrenwörtlich, dass ich die dem Fachbereich Medizin der Johann Wolfgang-Goethe-Universität Frankfurt am Main zur Promotionsprüfung eingereichte Dissertation mit dem Titel

When your ankle becomes a knee - a clinical study on long-term functional outcome and quality of life with a rotationplasty after resection of malignant limb tumors

in der Klinik für Kinder- und Jugendmedizin unter Betreuung und Anleitung von Prof. Dr. Thomas Klingebiel mit Unterstützung durch die Cooperative Osteosarkom-Studie der Deutschen Gesellschaft für Pädiatrische Onkologie und Hämatologie (COSS-Studie) ohne sonstige Hilfe selbst durchgeführt und bei der Abfassung der Arbeit keine anderen als die in der Dissertation angeführten Hilfsmittel benutzt habe. Darüber hinaus versichere ich, nicht die Hilfe einer kommerziellen Promotionsvermittlung in Anspruch genommen zu haben.

Ich habe bisher an keiner in- oder ausländischen Universität ein Gesuch um Zulassung zur Promotion eingereicht. Die vorliegende Arbeit wurde bisher nicht als Dissertation eingereicht.

Vorliegende Ergebnisse der Arbeit wurden (oder werden) in folgendem Publikationsorgan veröffentlicht:

Gotta J, Bielack S, Hecker-Nolting S, et al. When Your Ankle Becomes a Knee - Long-Term Functional Outcome and Quality of Life with a Rotationplasty after Resection of Malignant Limb Tumors. *Klin Padiatr.* December 2021.

(Ort, Datum)

(Unterschrift)