

临床论著

Chiari畸形伴胸椎侧凸患者两侧肋骨长度差异
及其与剃刀背畸形的相关性

朱 锋, 朱泽章, 邱 勇, 王 斌, 俞 杨, 钱邦平, 毛赛虎, 孙 旭, 马薇薇

(南京大学医学院附属鼓楼医院脊柱外科 210008 南京市)

【摘要】目的:评估 Chiari 畸形伴胸椎侧凸患者两侧肋骨长度的差异及其与剃刀背畸形的相关性,探讨两侧肋骨生长的差异性是否为继发性改变。**方法:**选取 Chiari 畸形伴脊柱侧凸 (scoliosis secondary to Chiari malformation, SSCM) 患者 38 例 (SSCM 组), 年龄 9~17 岁 (12.3 ± 3.6 岁), 身高 155.4 ± 10.8 cm, Cobb 角 $26^\circ \sim 108^\circ$ ($44.9^\circ \pm 23.5^\circ$); 顶椎位于 T7~T9。另选 58 例青少年特发性脊柱侧凸 (AIS) 患者作为对照, 均为右胸弯, 年龄 10~18 岁 (13.7 ± 2.6 岁), 身高 157.6 ± 11.5 cm, Cobb 角 $28^\circ \sim 102^\circ$ ($43.9^\circ \pm 17.2^\circ$), 顶椎位于 T7~T9。剃刀背畸形角 (rib hump, RH) 均使用 Scoliometer 测量, 采用螺旋 CT 三维重建的方法 (volume viewer workstation) 测量所有患者凹凸侧 12 对肋骨的长度, 比较两组患者顶椎区、上下端椎及非侧凸区两侧肋骨的长度, 分析顶椎区肋骨的对称性及其与 Cobb 角和 RH 的相关性。**结果:**SSCM 组患者顶椎区 (顶椎、顶椎上一椎体及顶椎下一椎体) 凹侧肋骨长度显著大于凸侧 ($P < 0.01$), 而上下端椎及非侧凸区两侧肋骨长度无显著性差异 ($P > 0.05$), RH 为 $12.7^\circ \pm 4.0^\circ$; AIS 组患者顶椎区 (顶椎上一椎体、顶椎及顶椎下一椎体) 凹侧肋骨长度也显著大于凸侧 ($P < 0.01$), 其程度与 Chiari 畸形组无显著性差异 ($P > 0.05$), RH 为 $11.9^\circ \pm 3.5^\circ$ 。顶椎区肋骨的不对称性与 Cobb 角大小呈显著性正相关关系 (SSCM 组: $r = 0.562, P = 0.001$; AIS 组: $r = 0.463, P = 0.003$); 与 RH 亦呈显著相关性 (SSCM 组: $r = 0.373, P = 0.01$; AIS 组: $r = 0.328, P = 0.02$)。**结论:**SSCM 患者主胸弯顶椎区两侧肋骨长度不对称, 且不对称程度和剃刀背畸形相关, 其不对称性特征与 AIS 患者一致, 其可能是脊柱侧凸在生长期发病后的继发性改变。

【关键词】 Chiari 畸形; 脊柱侧凸; 肋骨长度; 不对称; 剃刀背

doi: 10.3969/j.issn.1004-406X.2012.10.10

中图分类号: R682.3 文献标识码: A 文章编号: 1004-406X(2012)-10-0904-05

Correlation of rib length asymmetry and rib hump deformity in patients with thoracic scoliosis secondary to Chiari malformation/ZHU Feng, ZHU Zezhang, QIU Yong, et al//Chinese Journal of Spine and Spinal Cord, 2012, 22(10): 904-908

【Abstract】Objectives: To evaluate the rib length asymmetry in patients with thoracic scoliosis secondary to Chiari malformation and to correlate it to rib hump(RH) deformity, so as to elucidate whether the rib length asymmetry is primary or secondary. **Methods:** There were 38 patients in the group of scoliosis secondary to Chiari malformation(SSCM, group A) with a mean Cobb angle of $44.9^\circ \pm 23.5^\circ$ (range, $26^\circ \sim 108^\circ$), a mean age of 12.3 ± 3.6 years (range, 9-17yrs), a mean height of 155.4 ± 10.8 cm and the apical vertebrae ranging from T7 to T9. There were 58 patients in AIS group(group B) with a mean Cobb angle of $43.9^\circ \pm 17.2^\circ$ (range, $28^\circ \sim 102^\circ$), a mean age of 13.7 ± 2.6 years (range, 10-18yrs) and a mean height of 157.6 ± 11.5 cm. All AIS patients had a major thoracic curve, and the apical vertebrae ranged from T7 to T9. Rib hump was measured with scoliometer. The length of all ribs was measured from the tip of costal head to the end of the same rib by built-in software on spiral computed tomography. The rib length discrepancy was compared between concave and convex sides at apical vertebral level, end vertebral level and no scoliosis levels. The correlation of rib length discrepancy with the magnitude of the Cobb angle and RH at apical vertebral level. **Results:** At the levels of the apical vertebrae, the vertebrae above and below the apex, the mean rib length was significantly bigger in the concave side in both SSCM group and AIS group ($P < 0.01$), with no difference observed at the end verte-

基金项目: 江苏省创新学者攀登项目 (编号: BK2009001)

第一作者简介: 男 (1977-), 副主任医师, 医学博士, 研究方向: 脊柱外科

电话: (025) 83105121 E-mail: gulospine@gmail.com

bral level. The RH averaged at $12.7^{\circ} \pm 4.0^{\circ}$ and $11.9^{\circ} \pm 3.5^{\circ}$ in SSCM group and AIS group, respectively. The rib length discrepancy between concave and convex sides at apical vertebral level was significantly correlated with the magnitude of the Cobb angle and RH in both AIS and SSCM groups (Cobb angle: for AIS group, $r=0.463$, $P=0.003$; for SSCM group, $r=0.562$, $P=0.001$; RH: for AIS group, $r=0.328$, $P=0.02$; for SSCM group, $r=0.373$, $P=0.01$). **Conclusions:** Rib length asymmetry at the apex vertebral level is similar in both scoliotic groups, and significantly correlated with RH deformity, which points strongly to the fact that the rib length asymmetry in apical region is most likely secondary to the scoliosis deformity.

[Key words] Chiari malformation; Scoliosis; Rib length; Asymmetry; Rib hump

[Author's address] Spine Surgery, the Affiliated Drum Tower Hospital of Medical School, Nanjing University, Nanjing, 210008, China

不同病因所致的脊柱侧凸均可表现为三维结构性的脊柱畸形,而左右不对称性是体现其畸形程度非常重要的一个方面^[1-4]。在胸椎脊柱侧凸中,组成胸廓的肋骨常表现为凹凸侧不对称畸形,包括扭曲、成角等,影响胸椎和胸廓的稳定性,且造成剃刀背畸形。这种肋骨对胸廓平衡机制的干扰是脊柱侧凸的始动因素还是进展因素目前尚存在争议。邱勇等^[5]的研究表明,Lenke 1 型特发性脊柱侧凸患者凹凸侧的肋骨存在不对称性,但不能确定这种不对称性是原发性还是继发性改变。继发于 Chiari 畸形的脊柱侧凸病因明确,且畸形的影像学特征与特发性脊柱侧凸类似(无肋骨等骨骼发育的结构性畸形),因此本研究拟通过对继发于 Chiari 畸形的脊柱侧凸(scoliosis secondary to Chiari malformation, SSCM)及青少年特发性脊柱侧凸(AIS)患者两侧肋骨长度的不对称性进行比较,并与剃刀背畸形进行相关性分析,探讨 SSCM 患者左右肋骨不对称的特点,进一步研究其是否为不同病因学脊柱侧凸的共同特征。

1 资料与方法

1.1 一般资料

收集 2007 年 2 月~2008 年 12 月期间在我院以脊柱侧凸为首诊的青少年患者的资料,满足以下标准者入选:主胸弯,顶椎位于 T7~T9 之间;年龄小于 18 岁;Cobb 角小于 110° 。入选病例中 38 例为 SSCM 患者(SSCM 组),男 24 例,女 14 例,年龄 9~17 岁(12.3 ± 3.6 岁),身高 155.4 ± 10.8 cm; Cobb 角 $26^{\circ} \sim 108^{\circ}$ ($44.9^{\circ} \pm 23.5^{\circ}$), Risser 征 0~4 级; 10 例胸左弯, 28 例胸右弯; 顶椎位于 T7 23 例, T8 8 例, T9 7 例; 均经 MRI 证实存在 Chiari 畸形和脊髓空洞。58 例为 AIS 患者(AIS 组),男 10 例,女 48 例,年龄 10~18 岁 (13.7 ± 2.6 岁),身高

157.6 ± 11.5 cm; Cobb 角 $28^{\circ} \sim 102^{\circ}$ ($43.9^{\circ} \pm 17.2^{\circ}$), Risser 征 0~4 级; 均为胸右主弯,顶椎位于 T7 14 例, T8 25 例, T9 19 例; 均行全脊髓 MRI 检查排除神经系统可能存在的病变与畸形,摄站立位全脊柱正侧位 X 线片测量侧凸 Cobb 角,且排除肋软骨钙化者。

1.2 检测方法

采用螺旋 CT (GE, Light Speed 16 System) 对所有患者胸段脊柱行全节段 CT 扫描(包括所有肋骨在内),扫描条件为:120kV, 320mA, 层厚 10mm, 并行三维重建(层厚 0.625mm)。利用 Volume Viewer 后处理软件将胸廓 CT 三维重建后的图像进行处理,测量患者左右两侧所有肋骨的长度。具体方法:在重建图像上确定肋骨头末端及其肋软骨连接处,再用上述软件将选择的肋骨拉直,计算肋骨长度的绝对值(图 1)。所有患者脊

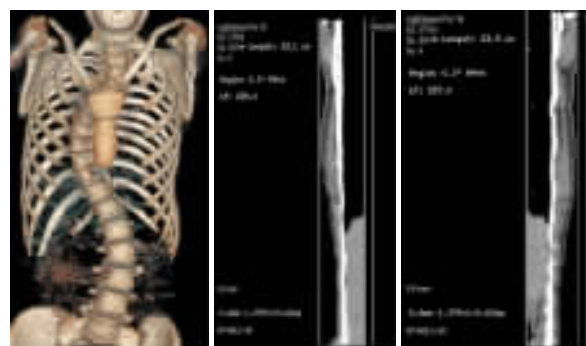


图 1 患者女, 13 岁, AIS, 胸右弯, Cobb 角 45° , 行 CT 三维重建后利用 Volume Viewer 软件处理后测量凸侧第 8 肋长度为 23.1cm, 凹侧长度为 23.9cm

Figure 1 3D reconstruction of thoracic curve in a 13-year-old, right thoracic AIS patient with Cobb angle of 45° . Curve reformat of the apical rib on the convex side. The length measured on the reformatted image was 23.1cm. Similar measurement of the apical rib on the concave side, the rib length was 23.9cm

柱均分为非侧凸区(上端椎以上无侧凸的椎体)、顶椎区(顶椎及其上下各一椎体)和上下端椎区。剃刀背畸形的测量使用脊柱侧凸测量计(Scoliometer),测量时患者前屈位,将脊柱侧凸测量计置于剃刀背畸形最严重处,读出畸形角度。凹凸侧肋骨的不对称性(laterality)定义为:凹凸侧肋骨长度差/(两侧肋骨长度之和/2)×100%。

1.3 统计学方法

采用 SPSS 13.0 统计软件进行统计学分析。凸侧与凹侧肋骨长度的差异采用配对资料 *t* 检验。两组患者顶椎区凹凸侧肋骨长度差值(凹侧减去凸侧)比较采用两组间独立样本资料 *t* 检验,肋骨不对称性与 Cobb 角及剃刀背畸形角之间的相关性采用 Pearson 相关分析。 $P<0.05$ 为差异有统计学意义。

2 结果

SSCM 和 AIS 患者顶椎区及上下端椎凸凹侧肋骨长度见表 1。两组顶椎区均存在两侧肋骨长度不对称,其中 SSCM 组中顶椎及其上下各一椎体凹侧肋骨分别比凸侧平均长 0.7cm、0.6cm、0.7cm,差异均具有显著性($P<0.05$);AIS 组中顶椎及其上下各一椎体凹侧肋骨分别比凸侧平均长 0.8cm、0.6cm、0.7cm,差异均具有显著性($P<0.05$);两组上下端椎两侧肋骨长度均无显著性差异($P>0.05$)。SSCM 患者非侧凸区两侧肋骨长度见表 2,差异无显著性($P>0.05$)。SSCM 组患者平均 RH 为 $12.7^{\circ}\pm 4.0^{\circ}$,AIS 组患者平均 RH 为 $11.9^{\circ}\pm 3.5^{\circ}$ 。两组 Cobb 角与凹凸侧肋骨的不对称性均呈显著性正相关(AIS 组, $r=0.463$ $P=0.003$;SSCM 组, $r=0.562$, $P=0.001$,图 2),凹凸侧肋骨的不对称性与 RH 亦呈显著性相关(SSCM 组; $r=0.373$, $P=0.01$;AIS 组; $r=0.328$, $P=0.02$,图 3)。

3 讨论

不同病因学的脊柱侧凸畸形多伴发椎旁甚至更远解剖部位骨骼肌肉系统的不对称或发育的不对称性,但这方面的研究多集中在 AIS,关于其他病因学脊柱侧凸的不对称性文献报道较少。就 AIS 而言,生长发育的不对称性被认为是原发性的改变,即潜在的病因,但争议颇多。Fidler 等^[9]发现 AIS 患者凸侧椎旁肌的肌距较短,I 型肌纤维占优势。Burwell 等^[7]的研究发现 AIS 患者凹侧髂

表 1 SSCM 和 AIS 患者顶椎区及上下端椎凸凹侧肋骨长度 ($\bar{x}\pm s$, cm)

Table 1 Rib length of upper end vertebrae, lower end vertebrae and apical vertebral region in the SSCM group and AIS group, respectively

	凸侧肋骨长度 Convex rib length	凹侧肋骨长度 Concave rib length
AIS组(n=58) AIS group		
上端椎 Upper end vertebra	27.6±2.2	27.5±2.3
顶椎上一椎体 Apex-1	26.3±2.2	26.9±2.5 ^①
顶椎 Apex vertebra	24.5±3.1	25.3±3.0 ^①
顶椎下一椎体 Apex+1	21.6±4.1	22.3±4.2 ^①
下端椎 Lower end vertebrae	21.4±2.5	21.5±2.4
SSCM组(n=38) SSCM group		
上端椎 Upper end vertebra	23.9±3.7	23.9±3.9
顶椎上一椎体 Apex-1	23.4±2.7	24.0±2.5 ^①
顶椎 Apex vertebra	22.3±3.4	23.0±3.5 ^①
顶椎下一椎体 Apex+1	21.1±4.3	21.8±4.2 ^①
下端椎 Lower end vertebrae	21.6±4.5	21.8±4.8

注:①与同组同部位凸侧比较 $P<0.05$

Note: ①Compared with convex side in the same group $P<0.05$

表 2 SSCM 患者非侧凸区两侧肋骨长度 ($\bar{x}\pm s$, cm)

Table 2 Rib lengths and laterality between two sides in the none-curve region of SSCM patients

	凸侧 Convex side	凹侧 Concave side	不对称性(%) Laterality
第 1 肋 First rib	10.3±2	10.3±2	-0.64±2.79
第 2 肋 Second rib	19.5±1.7	19.6±1.8	0.40±2.21
第 3 肋 Third rib	24.3±1.8	24.4±1.7	0.14±2.08
第 4 肋 Fourth rib	26.5±1.8	26.6±1.9	0.72±2.03
第 5 肋 Fifth rib	27.7±1.8	27.8±2.1	0.48±2.11

骨的高度与腰弯的程度呈正相关,且两上肢长度的不对称与 Cobb 角和顶椎的旋转有显著相关性,间接说明了 AIS 患者可能存在两侧神经肌肉发育不协调,他们推测这种不等长与凹侧椎弓根软骨结合部过度生长、两侧肋骨不对称存在相同的机制^[8]。部分学者将这些骨骼肌肉系统的不对称性改变解释为脊柱侧凸的继发现象,因为研究

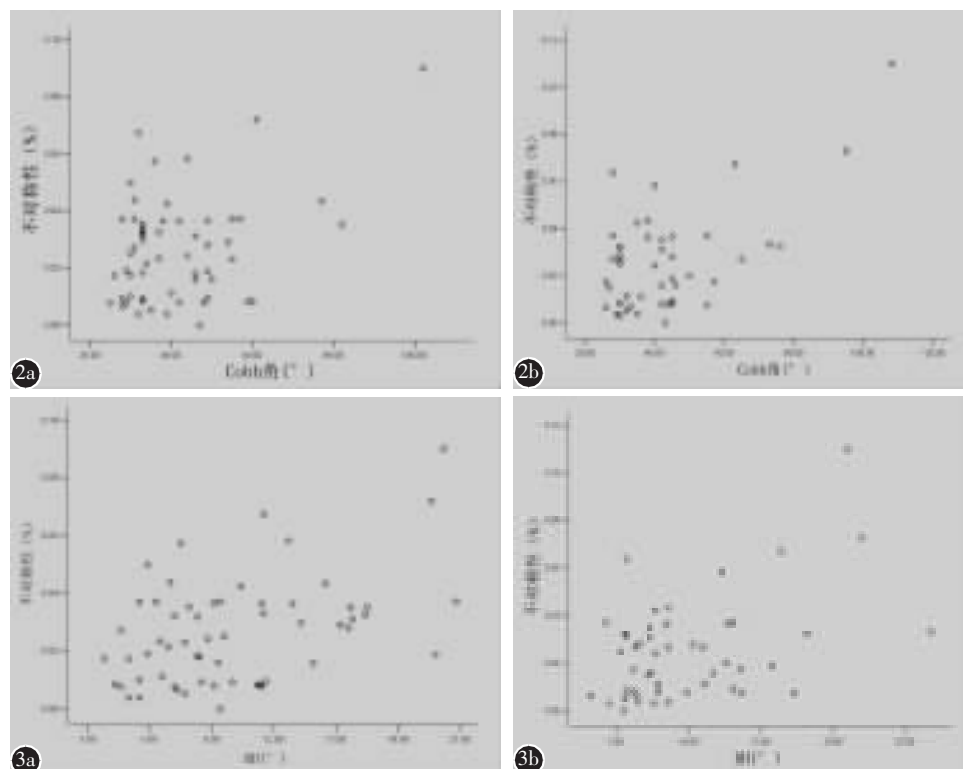


图 2 a SSCM 组患者 Cobb 角和肋骨不对称性之间的相关性($r=0.562, P=0.001$) b AIS 组 Cobb 角和肋骨不对称性之间的相关性($r=0.463, P=0.003$) 图 3 a SSCM 组 RH 角和肋骨不对称性之间的相关性($r=0.373, P=0.01$) b AIS 组 RH 角和肋骨不对称性之间的相关性($r=0.328, P=0.02$)

Figure 2 The scatter diagram illustrating the relationship between Cobb angle and laterality(a SSCM: $r=0.562, P=0.001$; b AIS: $r=0.463, P=0.003$) **Figure 3** The scatter diagram illustrating the relationship between RH and Laterality(a SSCM: $r=0.373, P=0.01$; b AIS: $r=0.328, P=0.02$)

发现 AIS 与先天性脊柱侧凸患者存在类似的两侧椎旁肌影像学上的差异及骨盆旋转。但考虑到先天性脊柱侧凸患者存在骨骼的发育缺陷, 本研究选取存在类似骨骼畸形特征而无骨骼发育缺陷的 Chiari 畸形患者, 并以 AIS 患者作为参照, 研究其凹凸侧肋骨的不对称性, 为原发性或继发性学说提供更多的参考。

既往研究表明, 脊柱的稳定性是依靠两侧肋骨传导等量的负重而维持的。Kasai 等^[9]发现正常人两侧肋骨长度无显著性差异, 所以不对称的脊柱可能导致不对称的生物力学环境。另外动物实验证实一侧肋骨切除后可诱导脊柱侧凸^[10]; 因肺结核或肋骨肿瘤而行肋骨切除术后脊柱侧凸的发生率较高^[11-13]。表明肋骨对于脊柱的稳定性起着至关重要的作用, 两侧肋骨承受的应力不平衡将打破胸廓和脊柱的生物力学平衡, 诱发或加重脊柱侧凸。Normelli 等^[14]在尸体上的测量证实凹侧顶椎及其上下各一椎体肋骨的长度平均比凸侧长

6mm, 但由于其选择的侧凸组患者 Cobb 角偏小, 病例数较少, 未能得出统计学差异。Kasai 等^[9]应用 CT 三维重建的方法获得 T7~T12 肋骨的长度, 发现正常人两侧长度差异不显著, 脊柱侧凸胸右弯患者中 T11、T12 左侧肋骨平均长于右侧 20mm, 差异具有显著性, 但其在研究设计中未考虑顶椎的位置对肋骨的影响。我们认为顶椎区两侧肋骨的异常与脊柱生物力学变化关系最大, 此处两侧不对称应最显著, 在本研究中给予单独考虑。另外, 由于 T11、T12 属于浮肋, 本身可能存在着正常的变异, 对脊柱及胸廓的生物力学影响也较小, 此差异可能与脊柱的稳定关系不大。

本研究发现, SSCM 组及 AIS 组患者顶椎区两侧肋骨均存在不对称, 且肋骨不对称性与 Cobb 角大小及剃刀背畸形大小呈显著性正相关, 而上下端椎和非侧凸区两侧肋骨长度无显著性差异。这一结果与邱勇等^[5]报道的 Lenke 1 型 AIS 患者顶椎区两侧肋骨长度存在不对称且程度与 Cobb

角大小呈正相关一致, 但与 Normelli 等^[14]、Kasai 等^[9]报道的结果不尽相同。由于继发于 Chiari 畸形的脊柱侧凸病因相对较明确, 主要是脊髓内反射异常、本体感觉传导通路损害、姿势平衡功能障碍, 或脊髓空洞对支配躯干肌特别是椎旁肌的脊髓前角及锥体束损害而引起椎旁肌的不平衡^[15], 不存在原发性的生长发育不对称因素; 本研究证实这两种不同病因学的脊柱侧凸存在类似的凹凸侧肋骨不对称性特征, 因此我们认为脊柱侧凸患者顶椎两侧肋骨长度的差异可能为继发性改变, 这种继发性改变可能是异常的生物力学因素(应力改变)导致的, 即当脊柱发生侧凸后这种生物力学平衡被破坏, 两侧肋骨将承受不同的应力, 基于 Huetter-volkman 定律, 其肋-软骨连接区域的生长可能受到影响, 导致两侧不对称生长, 形成长度的不对称性。本研究证实这种不对称性与 Cobb 角大小呈正相关。Cobb 角越大, 剃刀背畸形愈明显, 因此肋骨长度差异不对称性与剃刀背畸形也必然存在相关性, 这一点在本研究中获得了证实。我们推测发病越早, 骨骺发育越不成熟, 这种不对称性改变越明显。本研究中亦发现非侧凸区两侧肋骨长度无显著性差异, 这在维持非侧凸区胸廓正常形态及胸椎的稳定中起着重要作用。

总之, 本研究证实了肋骨的不对称性不仅存在于 AIS 患者中, 亦存在于继发于 Chiari 畸形的脊柱侧凸患者中, 并且随着 Cobb 角和 RH 角等的增大而增大, 表明肋骨的不对称性为继发性改变的可能性大, 且可能普遍存在于不同病因学的脊柱侧凸患者中。本研究的局限性在于其横断面研究的特性, 不能完全排除脊柱侧凸发病前是否存在肋骨的不对称性。未来研究可行纵向随访研究, 确认肋骨不对称性越大是否越易发展为顶椎区还是顶椎区易造就更不对称的肋骨。另一方面则是纳入更多不同病因学的无明显骨骼畸形的脊柱侧凸以证实肋骨不对称的继发学说。

4 参考文献

1. Kotwicki T, Zielinska-Kasubowska I, Szulc A, et al. Simple technique to evaluate thorax asymmetry in scoliosis: clinical usefulness to assess deformity and mobility [J]. Stud Health Technol Inform, 2010, 158: 24-28.
2. Shimode M, Ryouji A, Kozo N. Asymmetry of premotor time in the back muscles of adolescent idiopathic scoliosis [J]. Spine, 2003, 28(22): 2535-2539.
3. Goldberg CJ, Moore DP, Fogarty EE, et al. The relationship between minor asymmetry and early idiopathic scoliosis [J]. Stud Health Technol Inform, 2002, 88: 17-19.
4. Burwell RG, Dangerfield PH, Freeman BJ, et al. Etiologic theories of idiopathic scoliosis: the breaking of bilateral symmetry in relation to left-right asymmetry of internal organs, right thoracic adolescent idiopathic scoliosis(AIS) and vertebrate evolution [J]. Stud Health Technol Inform, 2006, 123: 385-390.
5. 邱勇, 孙光权, 朱泽章, 等. Lenke I 型青少年特发性脊柱侧凸患者两侧肋骨长度的差异性研究 [J]. 中国骨肿瘤骨病, 2007, 7(2): 67-70.
6. Fidler MW, Jowett RL. Muscle imbalance in the aetiology of scoliosis[J]. J Bone Joint Surg Br, 1976, 58(2): 200-201.
7. Burwell RG, Freeman BJ, Dangerfield PH, et al. Etiologic theories of idiopathic scoliosis: enantiomorph disorder concept of bilateral symmetry, physeally-created growth conflicts and possible prevention [J]. Stud Health Technol Inform, 2006, 123: 391-397.
8. Burwell RG, Aujla RK, Kirby AS, et al. Leg-arm length ratios correlate with severity of apical vertebral rotation in girls after school screening for adolescent idiopathic scoliosis (AIS): a dynamic pathomechanism in the initiation of the deformity[J]. Stud Health Technol Inform, 2008, 140: 189-193.
9. Kasai Y, Takegami K, Uchida A. Length of the ribs in patients with idiopathic scoliosis [J]. Arch Orthop Trauma Surg, 2002, 122(3): 161-162.
10. Langenskiöld, Michelsson JE. Experimental progressive scoliosis in the rabbit [J]. J Bone Joint Surg Br, 1961, 43-B: 116-120.
11. Loynes RD. Scoliosis after thoracoplasty[J]. J Bone Joint Surg Br, 1972, 54(3): 484-498.
12. Durning RP, Scoles PV, Fox OD. Scoliosis after thoracotomy in tracheoesophageal fistula patients: a follow-up study[J]. J Bone Joint Surg Am, 1980, 62(7): 1156-1159.
13. DeRosa GP. Progressive scoliosis following chest wall resection in children[J]. Spine, 1985, 10(7): 618-622.
14. Normelli H, Sevastik J, Akrivos J. The length and ash weight of the ribs of normal and scoliotic persons[J]. Spine, 1985, 10(6): 590-592.
15. Eule JM, Erickson MA, O'Brien MF, et al. Chiari I malformation associated with syringomyelia and scoliosis: a twenty-year review of surgical and nonsurgical treatment in a pediatric population[J]. Spine, 2002, 27(13): 1451-1455.

(收稿日期: 2012-04-19 修回日期: 2012-06-07)

(英文编审 孙浩林/贾丹彤)

(本文编辑 卢庆霞)