

临床论著

青少年 Chiari 畸形 I 型合并脊髓空洞患者
颈椎管矢状面锥度研究

朱卫国, 朱泽章, 邱 勇, 沙士甫, 刘 臻, 谢丁丁, 江 龙, 闫 煌

(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:分析青少年 Chiari 畸形 I 型 (Chiari malformation type I, CM I) 合并脊髓空洞患者颈椎管矢状面锥度大小。**方法:**2007 年 10 月~2013 年 10 月在我科入院治疗且以胸椎侧凸为主首诊的青少年 CM I 合并脊髓空洞患者共 61 例,男 28 例,女 33 例,年龄 10~18 岁,平均 13.7 ± 2.1 岁,胸椎侧凸 Cobb 角 $42^\circ \sim 78^\circ$,平均 $51.5^\circ \pm 16.5^\circ$;以胸椎侧凸为主的 AIS 患者共 75 例,男 35 例,女 40 例,年龄 11~18 岁,平均 14.8 ± 1.8 岁,胸椎侧凸 Cobb 角 $40^\circ \sim 69^\circ$,平均 $47.4^\circ \pm 15.3^\circ$ 。选取正常青少年志愿者 60 例作为正常对照组,男 28 例,女 32 例,年龄 11~18 岁,平均 15.6 ± 2.6 岁。3 组研究对象年龄与性别分布、CM I 组与 AIS 组胸椎侧凸 Cobb 角均无统计学差异 ($P > 0.05$)。在 MR T2 加权像正中矢状位扫描层面上测量颈椎管前后径,绘制散点图及趋势线,趋势线的斜率计为 C1~C7 椎管矢状面锥度。应用方差分析,比较 3 组研究对象颈椎管矢状面锥度的大小,并分析不同年龄分组 (≤ 14 岁与 > 14 岁)和性别分组间颈椎管矢状面锥度的差异。**结果:**CM I 组、AIS 组和正常对照组颈椎管平均矢状面锥度分别为 -0.58 ± 0.42 mm/节段 ($-1.38 \sim -0.98$ mm/节段), -0.28 ± 0.15 mm/节段 ($-0.02 \sim -0.70$ mm/节段)和 -0.29 ± 0.28 mm/节段 ($-0.79 \sim -0.33$ mm/节段),CM I 组颈椎管矢状面锥度显著大于 AIS 组 ($P < 0.05$)和正常对照组 ($P < 0.05$),而 AIS 组与正常对照组比较无统计学差异 ($P > 0.05$)。3 组颈椎管矢状面锥度在年龄、性别分组间均无统计学差异 ($P > 0.05$)。**结论:**与 AIS 患者和正常青少年相比,青少年 CM I 合并脊髓空洞患者具有较大的颈椎管矢状面锥度,表明其颈椎管矢状面发育存在异常。

【关键词】 Chiari 畸形;锥度;椎管前后径;脊髓空洞症

doi: 10.3969/j.issn.1004-406X.2014.09.02

中图分类号:R682.1 文献标识码:A 文章编号:1004-406X(2014)-09-0774-05

Sagittal taper ratio of cervical spinal canal in adolescents with Chiari malformation and syringomyelia/
ZHU Weiguo, ZHU Zezhang, QIU Yong, et al//Chinese Journal of Spine and Spinal Cord, 2014, 24(9):
774-778

【Abstract】 Objectives: To assess the sagittal taper ratio of cervical spinal canal in adolescents with Chiari malformation type I (CM I) with syringomyelia as comparing to age- and gender-matched controls. **Methods:** From October 2007 to October 2013, 61 adolescents (28 males and 33 females) with thoracic scoliosis and CM I with syringomyelia, whose average age was 13.7 ± 2.1 (10-18) years and average Cobb angle was $51.5^\circ \pm 16.5^\circ$ ($42^\circ \sim 78^\circ$) and 75 adolescents (35 males and 40 females) with idiopathic thoracic scoliosis (AIS), whose average age was 14.8 ± 1.8 (11-18) years and average Cobb angle was $47.4^\circ \pm 15.3^\circ$ ($40^\circ \sim 69^\circ$) in our department were recruited respectively. 60 normal adolescents (28 males and 32 females) were recruited as the control group, whose average age was 15.6 ± 2.6 (11-18) years. No significant differences of the age and gender were observed among the three groups ($P > 0.05$). The Cobb angle did not differ significantly between CM I group and AIS group ($P > 0.05$). Anteroposterior diameter of the spinal canal was measured at each cervical level on midsagittal T2-weighted MR images, and a linear trend line was fit by least-square regression to calculate the taper ratio. With the ANOVA test, taper ratios were compared among the three groups and further evaluated with respect to age (≤ 14 years and > 14 years) and gender. **Results:** Taper ratio averaged $(-0.58) \pm 0.42$ mm/level [$(-1.38) \sim (-0.98)$ mm/level] in the adolescents with CM I, $(-0.28) \pm 0.15$ mm/level [$(-0.02) \sim (-0.70)$ mm/lev-

第一作者简介:男(1989-),硕士研究生,研究方向:脊柱外科

电话:(025)83106666 E-mail:zwgspine@163.com

通讯作者:朱泽章 E-mail:zhuzezhang@126.com

el] in the patients with AIS, and $(-0.29) \pm 0.28 \text{ mm/level}$ [$(-0.79) - 0.33 \text{ mm/level}$] in the normal adolescents. Taper ratio of CM I group was significantly steeper than that of the AIS group ($P < 0.05$) and normal group ($P < 0.05$). However, taper ratios did not differ significantly between AIS group and normal group ($P > 0.05$). No significant difference in taper ratio was noted between males and females, or between younger (≤ 14 years) and older subjects (> 14 years) ($P > 0.05$). **Conclusions:** Adolescents with CM I and syringomyelia have more severely tapered cervical spinal canals than AIS and normal adolescents, suggesting that patients with CMI may have abnormal development of the cervical spinal canal.

[Key words] Chiari malformation; Taper ratio; Anteroposterior diameter; Syringomyelia

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

Chiari 畸形 I 型 (Chiari malformation type I, CM I) 临床定义为小脑扁桃体下缘超过枕骨大孔 5mm, 一般认为由胚胎期中胚层节枕骨部发育不良导致枕骨发育迟缓后颅窝拥挤所致^[1-3]。CM I 患者中 20%~85% 可合并脊髓空洞, CM I 导致脊髓空洞的具体发病机制仍不明确^[4,5]。最近, Hirano 等^[6]发现 CM I 患者颈椎管矢状面锥度显著高于正常人群, 因此他们推测此种颈椎管的形态学发育异常可引起脑脊液 (cerebrospinal fluid, CSF) 流速增大和压力减小, 在脊髓空洞的发病机制中有重要作用。然而, 上述研究病例数较少 (12 例) 且年龄跨度较大 (4~58 岁), 其结论尚有待进一步研究证实。本研究以青少年 CM I 合并脊髓空洞患者为研究对象, 通过与年龄、性别匹配的青少年特发性脊柱侧凸 (AIS) 患者及正常青少年对比, 探讨青少年 CM I 合并脊髓空洞患者颈椎管矢状面发育是否存在异常。

1 资料与方法

1.1 研究对象

经本院伦理委员会批准, 2007 年 10 月~2013 年 10 月在我科入院手术治疗的 CM I 患者和 AIS 患者被纳入本研究。所有患者被分为两组。CM I 组入选标准: (1) 年龄 10~18 岁; (2) 经 MRI 检查证实存在 CM I 和脊髓空洞, 且脊髓空洞位于颈段脊髓; (3) 以胸椎侧凸为首诊且侧凸上端椎在 T1 以下。排除伴脑积水、先天性脊柱畸形、颅底凹陷症、颈椎后凸及侧凸畸形病例。共 61 例, 男 28 例, 女 33 例。AIS 组入选标准: (1) 年龄 10~18 岁; (2) 以胸椎侧凸为主且侧凸上端椎在 T1 以下。临床检查神经系统均未见异常, 全脊柱 MRI 检查排除神经系统可能存在的病变。共 75 例, 男 35 例, 女 40 例。

同时将年龄 10~18 岁的正常青少年志愿者纳入正常对照组, 进行对比分析。前屈试验排除脊柱侧凸, 病理征体检未见异常。共 60 例, 男 28 例, 女 32 例。

CM I 组、AIS 组及正常对照组的年龄分别为 13.7 ± 2.1 (10~18) 岁、 14.8 ± 1.8 (11~18) 岁和 15.6 ± 2.6 (11~18) 岁, CM I 组与 AIS 组患者的胸椎侧凸 Cobb 角分别为 $51.5^\circ \pm 16.5^\circ$ ($42^\circ \sim 78^\circ$) 和 $47.4^\circ \pm 15.3^\circ$ ($40^\circ \sim 69^\circ$)。

1.2 影像学测量

在 CM I 患者和 AIS 患者术前站立位全脊柱正位 X 线片上测量胸椎侧凸 Cobb 角, 即胸椎侧凸上、下端椎之间的 Cobb 角。

CM I 患者、AIS 患者术前和正常青少年均采用 1.5T 飞利浦 MRI 成像仪 (Gyrosan Intera; Philips Medical Systems, Best, The Netherlands) 行颈椎薄层 (层厚 3mm) 平扫, 并通过 PACS 系统 (中国 FirstTech 公司) 和 Excel 软件进行测量和分析。方法如下^[6]: (1) 颈椎管前后径。在 MR T2 加权像正中矢状位扫描层面上, 过颈椎椎体后缘中点作椎管的垂线 (C1 为前弓后缘中点), 其与椎管前后缘交点间的距离即为该颈椎节段椎管的前后径 (图 1)。(2) 椎管锥度。将每例研究对象 C1 至 C7 节段的椎管前后径输入 Excel 表格, 绘制散点图及二元回归方程趋势线, 该趋势线的斜率计为椎管锥度 (图 2)。锥度负值表示椎管前后径整体趋势从 C1 到 C7 逐渐减小, 锥度正值表示椎管前后径整体趋势从 C1 到 C7 逐渐增大, 锥度为 0 表示椎管前后径整体趋势从 C1 到 C7 保持不变。

1.3 统计分析

采用 SPSS 19.0 软件进行统计学分析, 计量资料代入正、负号计算并采用 $\bar{x} \pm s$ 表示。3 组间年龄、性别分布的比较采用单因素方差分析, CM I

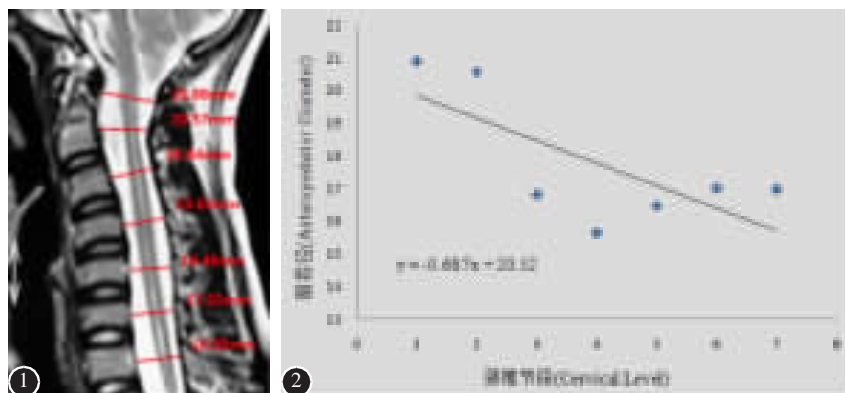


图1 颈椎 MRI T2 加权像正中矢状位扫描图像,红色线段为过颈椎椎体后缘中点垂直于椎管的垂线,其与蛛网膜下腔前后缘交点间的距离即为该颈椎节段椎管前后径

图2 以图1中 CM I 伴脊髓空洞患者各颈椎水平椎管前后径绘制的散点图,斜线为该散点图的趋势线,其斜率即该患者颈椎管矢状面锥度(-0.687mm/节段)

anteroposterior diameter of the spinal canal which was measured on T2-weighted MR images for each cervical level at the midpoint of the vertebral body, along a line perpendicular to the spinal axis extending from the anterior to the posterior edge of the subarachnoid space. Figure 2 Plot of diameters of the cervical spinal canal for the patient with CM I with syringomyelia in Figure 1 and the fitting of a trend line. The slope was -0.687mm/level

组、AIS 组胸椎侧凸角的比较采用独立样本 t 检验;同时用单向方差分析检验 3 组间颈椎管矢状面锥度的差异。将 3 组研究对象按照年龄分为高龄组(>14 岁)和低龄组(≤ 14 岁),用独立样本 t 检验分析 3 组中不同年龄组间、不同性别组间颈椎管矢状面锥度的差异。 $P < 0.05$ 为差异有统计学意义。

2 结果

3 组间年龄、性别分布均无统计学差异 ($P > 0.05$)。CM I 组与 AIS 组患者的胸椎侧凸 Cobb 角差异无统计学意义 ($P > 0.05$)。

3 组的颈椎管前后径 C1~C7 的变化趋势如图 3 和表 1 所示,均表现为 C4 节段椎管前后径最小。从表 1 和图 3 中还可以看出,在 C1~C7 的任意节段, AIS 患者与正常青少年均非常接近。而 CM I 组则明显不同,表现为 C1~C7 每个节段椎管前后径均显著大于 AIS 组和正常对照组,且均有统计学差异 ($P < 0.05$)。

CM I 组颈椎管平均矢状面锥度为 $-0.58 \pm 0.42\text{mm/节段}$ ($-1.38 \sim 0.98\text{mm/节段}$), AIS 组为 $-0.28 \pm 0.15\text{mm/节段}$ ($-0.02 \sim -0.70\text{mm/节段}$), CM I 组颈椎管矢状面锥度显著大于 AIS 组 ($P < 0.05$);同样, CM I 组颈椎管矢状面锥度明显大于正常对照组 [$-0.29 \pm 0.28\text{mm/节段}$, ($-0.79 \sim 0.33\text{mm/节段}$), $P < 0.05$];而 AIS 组与正常对照组比较无统计学差异 ($P > 0.05$)。

将 3 组研究对象按照年龄分为低龄组 (≤ 14 岁)和高龄组 (> 14 岁)。CM I 组颈椎管矢状面锥

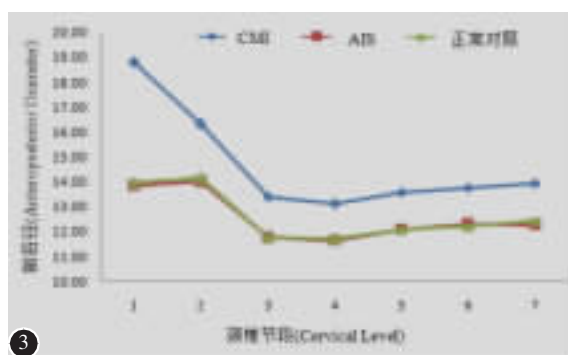


图3 3 组研究对象颈椎各节段的椎管前后径

Figure 3 The average anteroposterior diameters of cervical spinal canal for the 3 groups

表 1 3 组研究对象颈椎各节段的平均椎管前后径(mm)

Table 1 The average anteroposterior diameters of cervical spinal canal for the 3 groups

颈椎 Cervical	CM I 组 CM I group	AIS 组 AIS group	正常对照 Normal group
C1	18.8±2.39	13.85±1.14 ^①	13.98±1.48 ^①
C2	16.31±2.33	14.01±1.06 ^①	14.15±0.85 ^①
C3	13.40±1.96	11.75±1.00 ^①	11.78±0.85 ^①
C4	13.10±0.84	11.65±1.00 ^①	11.71±0.84 ^①
C5	13.59±2.01	12.14±0.97 ^①	12.09±1.17 ^①
C6	13.76±2.10	12.35±0.72 ^①	12.22±1.36 ^①
C7	13.94±2.20	12.27±0.97 ^①	12.46±1.18 ^①

注:①与 CM I 组比较 $P < 0.05$

Note: ①Compared with CM I group, $P < 0.05$

度在低龄组与高龄组间无统计学差异 ($P > 0.05$),在男性与女性间亦无统计学差异 ($P > 0.05$); AIS 组和正常对照组颈椎管矢状面锥度在年龄和性别分组中同样均无统计学差异 ($P > 0.05$, 表 2)。

表 2 不同年龄、性别的颈椎管矢状面锥度 (mm)
Table 2 The comparison of taper ratio between age and gender subgroup

	CM I 组 CM I group	AIS 组 AIS group	正常对照组 Normal group
年龄 Age			
≤14 岁 ≤14 years	-0.57±0.44 (n=36)	-0.30±0.16 (n=30)	-0.21±0.19 (n=23)
>14 岁 >14 years	-0.60±0.32 (n=25)	-0.27±0.21 (n=45)	-0.31±0.24 (n=37)
性别 Gender			
男 Male	-0.59±0.41 (n=28)	-0.23±0.11 (n=35)	-0.29±0.25 (n=28)
女 Female	-0.57±0.35 (n=33)	-0.29±0.16 (n=40)	-0.29±0.28 (n=32)

3 讨论

3.1 CM I 伴发脊髓空洞的发病机制

CM I 伴发脊髓空洞的发病机制目前仍不明确。Gardner^[7]认为枕骨大孔区畸形和小脑扁桃体下疝所致的 CSF 循环受阻,下行 CSF 的“水锤效应”冲击脊髓中央管形成脊髓空洞。Williams^[8]的理论则认为枕骨大孔区受阻导致的枕大池与颈椎管内蛛网膜下腔间 CSF 的“抽吸作用”和“泼溅效应”促进脊髓空洞发展。目前普遍认为后颅窝结构拥挤和小脑扁桃体下疝导致的 CSF 流体动力学改变是引起脊髓空洞形成的主要原因。但以上理论均未考虑到颈椎管矢状面形态在脊髓空洞形成中可能发挥的作用。最近,CM I 患者颈椎管解剖异常开始引起关注。Hirano 等^[9]回顾性研究了 12 例 CM I 合并脊髓空洞患者的颈椎管矢状面形态,发现这部分患者颈椎管矢状面锥度比正常人(-0.6mm/节段与-0.2mm/节段)。因此他们推测较大的颈椎管矢状面锥度可能增加了颈椎 CSF 流速和压力梯度,从而最终促进脊髓空洞的形成。Hirano 等^[9]的研究第一次尝试探讨颈椎管解剖在脊髓空洞发病机制中的作用,这一发现有助于更好地理解脊髓空洞形成的病理生理机制。然而,Hirano 等^[9]的研究病例数较少且年龄跨度较大,该发现有待进一步研究证实。

3.2 CM I 患者的颈椎管矢状面锥度

考虑到 CM I 患者中年龄与颈椎管矢状面锥度间的相关性^[9],本研究将研究对象均限定于青少年。CM I 组颈椎管平均矢状面锥度为-0.58±0.42mm/节段,显著大于正常对照组,与文献^[9]的研

究结果一致。此外,为了排除脊柱侧凸对颈椎管脑脊液循环的潜在影响,本研究同时纳入性别、年龄匹配的胸椎侧凸为主的 AIS 患者进行对比分析。经过严格筛选,排除颈椎过屈过伸及侧凸的病例。在胸椎侧凸度数匹配的情况下,CM I 组颈椎管矢状面锥度显著大于 AIS 组($P<0.05$),而 AIS 组和正常对照组间无统计学差异,从而证实了 CM I 合并脊髓空洞患者颈椎管矢状面发育存在异常的猜测。我们认为较大的椎管锥度会增加 CSF 的流速,根据流体动力学原理^[9],CM I 患者蛛网膜下腔内高速流动的 CSF 压力较小。由于 CM I 颅颈交界区梗阻导致 CSF 的“水锤效应”^[8],使中央管内 CSF 压力增大,加之管内 CSF 流动相对缓慢,加剧了蛛网膜下腔与中央管内 CSF 的压力差,又因脊髓具有一定的可塑性,当中央管内外压力差达到一定程度便促进脊髓空洞的形成或进一步扩大。而脊髓空洞是否形成以及空洞的大小则取决于中央管内外压力差的大小。CM I 导致脊髓空洞的形成是多因素的,后颅窝容积较小和小脑扁桃体下疝造成的颅颈交界区梗阻是主要原因。根据本研究结果,我们推测颈椎管矢状面形态异常可能与 CM I 脊髓空洞的发生发展有关,当然这需要进一步的研究和流体动力学实验证实。

值得注意的是,CM I 组各节段颈椎管前后径明显大于 AIS 组和正常对照组(表 1,图 3),考虑可能与脊髓空洞和椎管间的相互作用有关。Holtzer^[9]报道脊髓直径在生长发育早期,可对椎管骨性结构发育造成影响。因此脊髓空洞的存在增大了脊髓的直径,进而影响颈椎管的形态发育。此外,3 组颈椎管前后径在 C4 节段最小,即颈椎管在 C4 节段最狭窄(表 1,图 3),与既往发现 CM I 患者 CSF 的最高流速从枕骨大孔到 C4 节段逐渐增加的结果^[10]一致。

3.3 CM I 患者颈椎管矢状面锥度在年龄、性别分组间的比较

对于性别与颈椎管矢状面锥度的关系,Tatarek^[11]曾报道健康成人的性别与上颈椎管矢状面锥度具有相关性,但本研究 CM I 组、AIS 组和正常对照组颈椎管矢状面锥度在性别间均无统计学差异。在 Hirano 等^[9]的研究中,年龄是影响 CM I 患者颈椎管矢状面锥度的重要因素,年龄增加 1 岁锥度就减小 0.03mm/节段。然而在本研究中,3 组组内低龄组与高龄组颈椎管矢状面锥度

无统计学差异,这可能与研究对象年龄区间较小有关。

综上所述,CM I 合并脊髓空洞患者颈椎管矢状面锥度显著高于年龄、性别匹配的 AIS 患者和正常青少年,提示其颈椎管矢状面解剖存在异常。本研究的不足之处是没有采用颈椎管横断面面积评估颈椎管解剖。在探讨颈椎管矢状面异常与脊髓空洞是否有关方面,纳入不伴有脊髓空洞的 CM I 患者进行对比分析将更具逻辑性。CM I 患者颈椎管矢状面锥度与小脑扁桃体下疝程度、后颅窝线性容积的相关性有待进一步研究。

4 参考文献

1. Marin-Padilla M, Marin-Padilla TM. Morphogenesis of experimentally induced Arnold-Chiari malformation [J]. *Neurol Sci*, 1981, 50(1): 29-55.
2. Nishikawa M, Sakamoto H, Hakuba A, et al. Pathogenesis of Chiari malformation: a morphometric study of the posterior cranial fossa[J]. *J Neurosurg*, 1997, 86(1): 40-47.
3. Cheng JS, Nash J, Meyer GA. Chiari type I malformation revisited: diagnosis and treatment[J]. *Neurologist*, 2002, 8(6): 357-362.
4. 郭俭, 刘宗惠. Arnold-Chiari 畸形合并脊髓空洞症发病机理的临床研究[J]. *中华神经外科杂志*, 1999, 15(5): 278-281.
5. Rusbridge C, Greitz D, Iskandar BJ. Syringomyelia: current concepts in pathogenesis, diagnosis, and treatment[J]. *J Vet Intern Med*, 2006, 20(3): 469-479.
6. Hirano M, Haughton V, Munoz del Rio A. Tapering of the cervical spinal canal in patients with Chiari I malformations [J]. *AJNR Am J Neuroradiol*, 2012, 33(7): 1326-1330.
7. Gardner WJ. Hydrodynamic mechanism of syringomyelia: its relationship to myelocoele [J]. *J Neurol Neurosurg Psychiatry*, 1965, 28(3): 247-259.
8. Williams B. The distending force in the production of communicating syringomyelia[J]. *Lancet*, 1969, 294(7613): 189-193.
9. Holtzer O. An experimental analysis of development of spinal column[J]. *J Exp Zool*, 1953, 123(2): 335-369.
10. Linge SO, Haughton V, Lovgren AE, et al. CSF flow dynamics at the craniovertebral junction studied with an idealized model of the subarachnoid space and computational flow analysis [J]. *AJNR Am J Neuroradiol*, 2010, 31(1): 185-192.
11. Tatarok N. Variation in the human cervical neural canal[J]. *Spine J*, 2005, 5(6): 623-631.

(收稿日期:2014-04-03 末次修回日期:2014-07-10)

(英文编审 蒋欣/贾丹彤)

(本文编辑 李伟霞)

消息

广东省康复医学会脊柱脊髓专业委员会及相关学组成立

2014年3月22日,广东省康复医学会脊柱脊髓专业委员会成立大会暨第一届学术年会在广州市颐和山庄国际会议中心隆重召开。会议选举靳安民为首任主任委员,郑召民、戎利民、江建明、昌耘冰、马向阳及陈博来为副主任委员。侯树勋、刘忠军、吕国华、海涌、杨惠林、马远征、刘晓光、冯世庆、张永刚等到会祝贺并作了精彩报告。

2014年7月26日,广东省脊柱脊髓专业委员会又成立颈椎学组、脊柱畸形学组、微创学组、腰椎学组和青年委员会,昌耘冰、马向阳、郑召民、戎利民、闵少雄分别任组长和主委。会议邀请陈仲强、袁文、邱勇、吕国华、张文智、周跃等到会祝贺并作了精彩报告。

专委会于2014年9月6日成立了脊柱脊髓损伤和护理两个学组,江建明和冯岚分别任组长。