

· 病例报告 ·

特发性指(趾)肢端骨质溶解症 2 例

郑汉朋¹, 项剑瑜², 邱乾德²

(1. 浙江省乐清市人民医院, 浙江 乐清 325600;

2. 浙江省温州市第三人民医院, 浙江 温州 325000)

关键词 肢端骨质溶解 指

特发性肢端骨质溶解症是一种罕见的骨骼疾病, 为特发性溶骨症的一种少见类型, 国内外文献上仅见个案报道^[1-5]。1996—2005 年, 笔者收治了 2 例特发性指(趾)肢端骨质溶解症患者, 现报告如下。

患者, 女, 16 岁。双手破溃并缺损 4 年。患者自 13 岁月经初潮起无诱因出现双手肿痛, 继而出现软组织溃烂, 流黄色液体, 但疼痛不剧烈, 经抗炎对症治疗后溃烂面愈合, 每年多次复发。查体: 双手指远端溃烂, 呈鼠咬状, 有黄色脓痂, 指端缩短变形, 手指关节僵硬, 双手感觉稍迟钝。实验室检查: 骨碱性磷酸酶 $205 \text{ U} \cdot \text{L}^{-1}$; 血常规、大便常规和尿常规均无异常; 类风湿因子呈阴性; 肝、肾功能, 空腹血糖和血清电解质均正常; 血脂检查无异常; 甲状腺功能和甲状旁腺素水平均正常; 腹部 B 超检查显示无异常。双手 X 线片示: 双手第 1 至第 4 指骨末节骨完全吸收、消失, 其中左手第 1 指骨残端呈“杯口状”, 双手第 2 至第 4 指骨残端呈“平截状”(图 1)。全身其他骨骼均未见异常。

患者, 女, 32 岁。双手肿胀、破溃并缺损 17 年。患者 15 岁时无诱因出现双手肿痛, 皮肤增厚、变粗, 逐渐出现溃烂, 流黄色液体, 轻度疼痛, 经抗炎对症治疗后溃烂面无明显好转。查体: 双手肿胀, 指端溃烂, 指端缩短变形, 手指关节僵硬, 双手肢端感觉减退。实验室检查: 骨碱性磷酸酶 $180 \text{ U} \cdot \text{L}^{-1}$, 血常规、大便常规和尿常规均无异常; 类风湿因子呈阴性; 肝、肾功能, 空腹血糖和血清电解质均正常; 血脂检查无异常, 甲状腺功能和甲状旁腺素水平均正常; 腹部 B 超检查显示无异常。双手 X 线片示: 右手第 1、第 2、第 4、第 5 指骨末节远端及左手第 1 至第 3 指骨末节远端骨质溶解吸收缺如, 残端呈“平截状”(图 2)。全身其他骨骼均未见异常。



图 1 患者, 女, 16 岁, 特发性指(趾)肢端骨质溶解症



图 2 患者, 女, 32 岁, 特发性指(趾)肢端骨质溶解症

讨 论

特发性肢端骨质溶解症的发病机制迄今尚不明确, 以骨质不明原因吸收、破坏为特点, 最终可致畸形和骨关节功能障碍。近 20 年国内文献上报道的特发性骨质溶解症绝大多数是大块骨质溶解症, 而真正属于特发性肢端骨质溶解症的病例较少见。McKusick 等^[1]根据特发性骨质溶解症所累及的骨骼部位不同, 将其分为特发性肢端溶骨症和特发性多中心溶骨症, 前者又分为指(趾)型和跗腕骨型。该病有家族聚集性, 为常染色体显性遗传, 但基本上还多是散发病例。黄宝生等^[2]报道的 3 例患者为同胞三姐妹, 有明显家族聚集性; 张文艳等^[3]报道的 1 例患者及本组 2 例患者均为散发病例, 证明了该病不仅具有家族聚集性的特点还具有散发性的特点。

特发性指(趾)肢端骨质溶解症主要表现为手足骨进行性骨质吸收,多起始于指(趾)骨远端,无骨膜反应及骨质增生^[2]。该病具有以下特点:①多见于儿童和青少年,男性多于女性^[2]。但笔者所收治的 2 例患者及文献[2-3]中所报道的患者均为女性,并且这些患者均在月经初潮起开始发病。②发病缓慢,病史长,症状轻微。指(趾)端软组织肿胀、溃烂、增粗、变短,呈“杵状”,轻度或无明显疼痛,感觉减退或消失。③该病仅累及双手或双足,或同时累及双手和双足,以指(趾)端骨质溶解缺如为特征。④X 线表现为斜形骨质溶解,呈“笔尖状”,或横形骨质溶解,使指(趾)远端呈“平截状”或“杯口状”。⑤在没有严重的继发性感染的前提下,特发性指(趾)端骨质溶解后,指(趾)端均不会出现骨膜增生、死骨、溶解边缘骨质硬化与骨质脱钙,也不会累及关节面。

参考文献

- [1] McKusick VA, Scott CI. A nomenclature for constitutional disorders of bone[J]. J Bone Joint Surg Am, 1971, 53(5): 978-986.
- [2] 黄宝生, 李继霞, 李毅, 等. 特发性肢端骨质溶解症三例[J]. 中华放射学杂志, 2008, 42(9): 993-994.
- [3] 张文艳, 李强, 陈艳, 等. 特发性指(趾)肢端骨质溶解症 1 例[J]. 中华妇幼临床医学杂志: 电子版, 2010, 6(4): 303-304.
- [4] Harzy T, Benbouazza K, Lazrak N, et al. Idiopathic phalangeal acroosteolysis: a case report[J]. Joint Bone Spine, 2003, 70(2): 146-148.
- [5] Costa MM, Santos H, Santos MJ, et al. Idiopathic multicentric osteolysis: a rare disease mimicking juvenile chronic arthritis[J]. Clin Rheumatol, 1996, 15(1): 97-98.

(2011-10-28 收稿 2011-12-02 修回)

· 作者须知 ·

论文中对数据进行统计学处理时需要注意的问题

1 对基线资料进行统计学分析 搜集资料应严格遵守随机抽样设计, 保证样本从同质的总体中随机抽取, 除了对比因素外, 其他可能影响结果的因素应尽可能齐同或基本接近, 以保证组间的齐同可比性。因此, 应对样本的基线资料进行统计学分析, 以证明组间的齐同可比性。

2 选择正确的统计检验方法 研究目的不同、设计方法不同、资料类型不同, 选用的统计检验方法则不同。例如: 2 组计量资料的比较应采用 t 检验; 而多组 (≥ 3 组) 计量资料的比较应采用方差分析 (即 F 检验), 如果组间差异有统计学意义, 想了解差异存在于哪两组之间, 再进一步做 q 检验或 LSD- t 检验。许多作者对多组计量资料进行比较时采用两两组间 t 检验的方法是错误的。又如: 等级资料的比较应采用 Ridit 分析或秩和检验或行平均得分差检验。许多作者对等级资料进行比较时采用卡方检验的方法是错误的。

3 假设检验的推断结论不能绝对化 假设检验的结论是一种概率性的推断, 无论是拒绝 H_0 还是不拒绝 H_0 , 都有可能发生错误 (I 型错误和 II 型错误)。因此, 假设检验的推断结论不能绝对化。

4 P 值的大小并不表示实际差别的大小 研究结论包括统计结论和专业结论两部分。统计结论只说明有无统计学意义, 而不能说明专业上的差异大小。 P 值的大小不能说明实际效果的“显著”或“不显著”。统计结果的解释和表达, 应说对比组之间的差异有 (或无) 统计学意义, 而不能说对比组之间有 (或无) 显著的差异。 $P \leq 0.01$ 比 $P \leq 0.05$ 更有理由拒绝 H_0 , 并不表示 $P \leq 0.01$ 时比 $P \leq 0.05$ 时实际差异更大。只有将统计结论和专业知识有机地结合起来, 才能得出恰如其分的研究结论。若统计结论与专业结论一致, 则最终结论也一致; 若统计结论与专业结论不一致, 则最终结论需根据专业知识而定。判断被试因素的有效性时, 要求在统计学上和专业上都有意义。

5 假设检验的结果表达 P 值传统采用 0.05 和 0.01 这 2 个界值, 现在提倡给出 P 的具体数值和检验统计量的具体数值 (小数点后保留 3 位有效数字), 主要理由是: ①以前未推广统计软件之前, 需要通过查表估计 P 值, 现在使用统计软件会自动给出具体的 P 值和检验统计量的具体值 (t 值、 F 值、 χ^2 值等)。②方便根据具体情况判断问题。例如 $P = 0.051$ 与 $P = 0.049$ 都是小概率, 不能简单地断定 $P = 0.051$ 无统计学意义而 $P = 0.049$ 有统计学意义。③便于对同类研究结果进行综合分析。

6 统计学符号的使用 统计学符号的使用应按照 GB3358—82《统计名词及符号》的规定, 具体可参阅本刊投稿须知中的有关要求。