

Submitted: 13.11.2013

Accepted: 28.11.2013

Żebro dwudzielne – diagnostyka z wykorzystaniem ultrasonografii. Opis przypadku

Bifid rib – usefulness of chest ultrasound. A case report

Magdalena Kryger, Wojciech Kosiak, Tomasz Batko

Pracownia Diagnostyki Ultrasonograficznej i Biopsyjnej, Klinika Pediatrii, Hematologii i Onkologii, Gdański Uniwersytet Medyczny, Gdańsk, Polska

Correspondence: Magdalena Kryger, Pracownia Diagnostyki Ultrasonograficznej i Biopsyjnej przy Klinice Pediatrii, Hematologii i Onkologii, Gdański Uniwersytet Medyczny, ul. Dębinki 7, 80-211 Gdańsk, e-mail: magdalena.kryger@gmail.com, tel.: +48 58 349 29 22

Słowa kluczowe

żebro dwudzielne,
ultrasonografia
klatki piersiowej,
anomalia rozwojowa
żeber, zespół
Gorlina-Goltza,
guz ściany klatki
piersiowej

Key words

bifid rib, chest
ultrasound, congenital
abnormality of anterior
chest wall, Gorlin-Goltz
syndrome, anterior chest
wall tumor

Streszczenie

W pracy przedstawiono możliwości wykorzystania ultrasonografii w diagnostyce anomalii rozwojowej żeber pod postacią żebra dwudzielnego. Żebro dwudzielne jest sporadycznie występującą anomalią rozwojową żeber. Manifestuje się jako guz ściany klatki piersiowej. Zmiany te wykrywane są w rutynowym badaniu fizykalnym lub na zdjęciu rentgenowskim klatki piersiowej, często wykonywanym z innego powodu. Ogólna liczba przypadków żebra dwudzielnego szacowana jest na 0,15–3,4% (średnio 2%) populacji, co odpowiada około 20% wad wrodzonych żeber. Zmiana ta najczęściej występuje jednostronnie. Przedstawione przypadki są w dostępnym piśmiennictwie pierwszymi obrazami zdwojonych żeber u dzieci w badaniu ultrasonograficznym.

Abstract

The paper presents the possibility of using ultrasonography in the diagnosis of a congenital rib anomaly in the form of bifid rib. Bifid rib is a rare congenital abnormality of anterior chest wall. It manifests as a chest "lump." Such lesions are detected during a routine physical examination or chest X-ray which is often performed for other reasons. The overall prevalence of bifid rib is estimated at 0.15% to 3.4% (mean 2%) and it accounts for approximately 20% of all congenital rib anomalies. It is usually an unilateral lesion. The cases presented herein constitute the first pediatric cases in the available literature in which bifid rib anomaly was visualized by ultrasound examination.

Poniżej przedstawiono pięć przypadków rozpoznania żebra dwudzielnego z uwzględnieniem przydatności badania ultrasonograficznego (USG) w procesie diagnostycznym.

Prezentacja przypadków

Przypadek 1.

Trzyletni chłopiec został skierowany do poradni onkologicznej z powodu zmiany zlokalizowanej w linii środkowo-obożczykowej lewej, w okolicy IV międzyżebra. Zmiana nie powodowała dolegliwości bólowych. Przeprowadzono diagnostykę laboratoryjną (tab. 1) i obrazową: badanie radiologiczne (RTG) i USG klatki piersiowej. Wynik badania RTG był prawidłowy (ryc. 1), a w badaniu USG klatki piersiowej stwierdzono zdwojenie części chrzęstnej żebra IV po stronie lewej (ryc. 2).

Przypadek 2.

Pięcioletni chłopiec został skierowany do poradni onkologicznej z powodu zmiany zlokalizowanej na przedniej ścianie klatki piersiowej po stronie lewej, w okolicy V żebra. Zmiana nie powodowała dolegliwości bólowych. Przeprowadzono diagnostykę laboratoryjną (tab. 1) i obrazową: RTG i USG klatki piersiowej. W badaniu RTG opisano zdwojenie żebra V (ryc. 3). Badaniem USG potwierdzono rozpoznanie.

Przypadek 3.

Sześciolatek został skierowany do szpitala z powodu czterech niebolesnych guzków zlokalizowanych obustronnie na przedniej ścianie klatki piersiowej w rzucie IV i V żebra. Przeprowadzono diagnostykę obrazową – USG (tab. 1), stwierdzając zdwojenie chrząstek żeber: IV (obustronnie) i V (obustronnie).



Ryc. 1. RTG klatki piersiowej – obraz prawidłowy
Fig. 1. Chest X-ray – normal image

The paper presents five cases of bifid rib with the discussion on the usefulness of the ultrasound examination (US) in the diagnostic process.

Case reports

Case 1

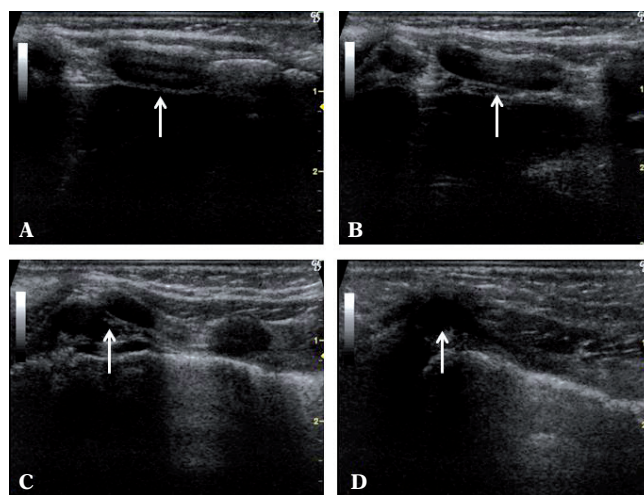
A three-year-old boy was referred to the oncological clinic due to a lesion localized in the left midclavicular line in the region of the fourth intercostal space. The lesion did not cause pain. Laboratory tests (tab. 1) and imaging examinations (chest X-ray and US) were performed. The result of the X-ray was unclear (fig. 1) and the chest US examination revealed bifurcation of the costal cartilage of the fourth left rib (fig. 2).

Case 2

A five-year-old boy was referred to the oncological clinic due to a lesion localized on the anterior chest wall on the left side in the region of the fifth rib. The lesion did not cause pain. Laboratory tests (tab. 1) and imaging examinations (chest X-ray and US) were conducted. The X-ray revealed bifurcation of the fifth rib (fig. 3). The US examination confirmed the diagnosis.

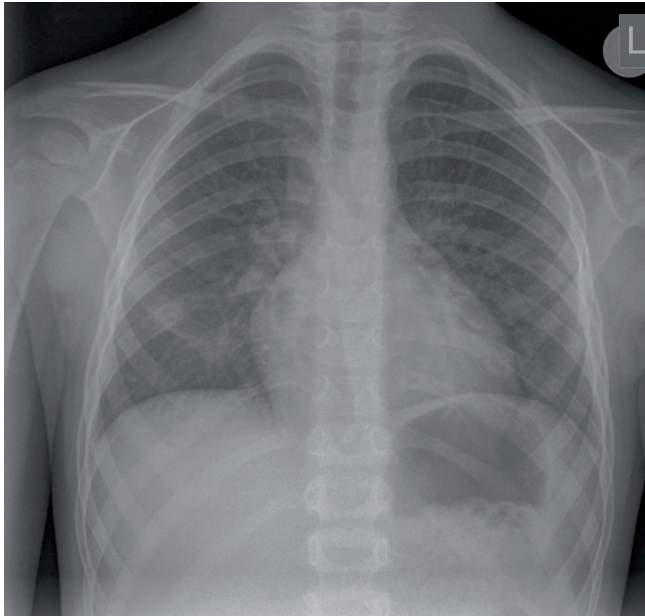
Case 3

A six-year old boy was referred to hospital due to four painless lumps localized bilaterally on the anterior chest wall in the region of the fourth and fifth ribs. The patient underwent a US examination (tab. 1) which revealed bifurcation of the costal cartilage of the fourth (bilaterally) and fifth (bilaterally) ribs.

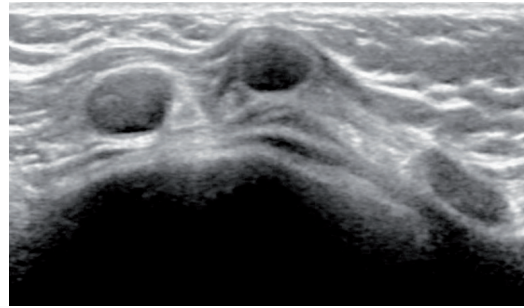


Ryc. 2. Zdwojenie części chrzęstnej żebra IV lewego (strzałki)

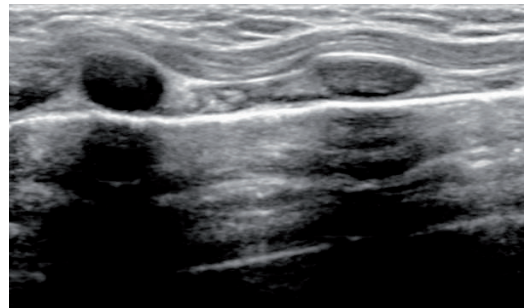
Fig. 2. Bifurcation of the costal cartilage of the fourth left rib (arrows)



Ryc. 3. RTG klatki piersiowej – zdwojenie żebra V po stronie lewej
Fig. 3. Chest X-ray – bifurcation of the fifth left rib



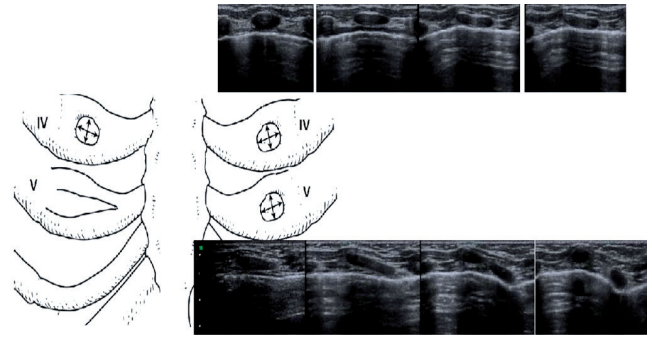
Ryc. 4. USG – zdwojenie żebra V po stronie lewej
Fig. 4. US examination – bifurcation of the fifth left rib



Ryc. 5. USG – zdwojenie żebra V po stronie lewej
Fig. 5. US examination – bifurcation of the fifth left rib



Ryc. 6. Zdwojenie części chrząstnej żebra IV i V lewego
Fig. 6. Bifurcation of the costal cartilage of the fourth and fifth left ribs



Ryc. 7. Zdwojenie części chrząstnej żebra IV i V prawego
Fig. 7. Bifurcation of the costal cartilage of the fourth and fifth right ribs

Przypadek 4.

Siedmioletni chłopiec został skierowany do Kliniki Onkologii Dziecięcej z powodu zmiany zlokalizowanej w linii przy-mostkowej prawej w okolicy IV żebra. W badaniu palpacyjnym stwierdzono twardą, niebolesną zmianę. W badaniu RTG klatki piersiowej nie zaobserwowano odchyień od normy, wykonane badanie USG klatki piersiowej wykazało zdwojenie chrząstki żebra IV.

Przypadek 5.

Czteroletni chłopiec został skierowany do Kliniki Hematologii i Onkologii Dziecięcej z powodu limfadenopatii,

Case 4

A seven-year-old boy was referred to the Pediatric Oncology Clinic due to a lesion localized in the right parasternal line in the region of the fourth rib. The palpated lesion was hard and painless. The results of the chest X-ray were unclear and the chest US examination demonstrated bifurcation of the costal cartilage of the fourth rib.

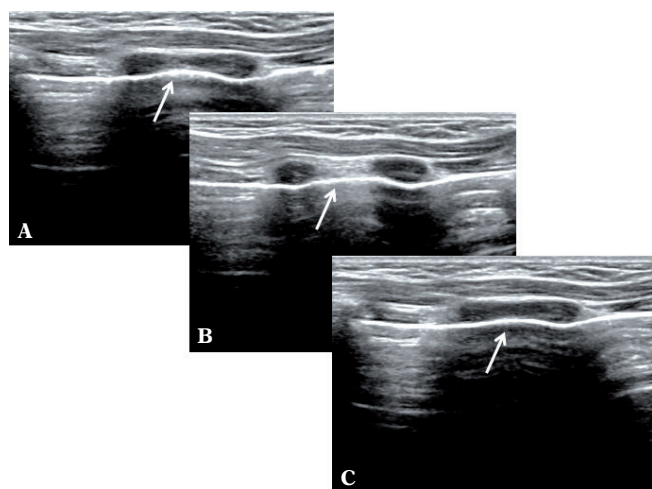
Case 5

A four-year-old boy was referred to the Pediatric Hematology and Oncology Clinic due to lymphadenopathy,

hepatomegalii i splenomegalii, w celu dalszej diagnostyki oraz wykluczenia choroby rozrostowej. Na podstawie wykonanych badań dodatkowych ustalono rozpoznanie infekcji wirusem Ebsteina-Barr. Ponadto w badaniach RTG i USG klatki piersiowej stwierdzono dwudzielność żebra V po stronie lewej (ryc. 9).

Omówienie

Przedstawione powyżej przypadki są w dostępnym piśmiennictwie pierwszymi opisami rozpoznanych w badaniu USG zdwojonych żeber u dzieci. Żebro dwudzielne



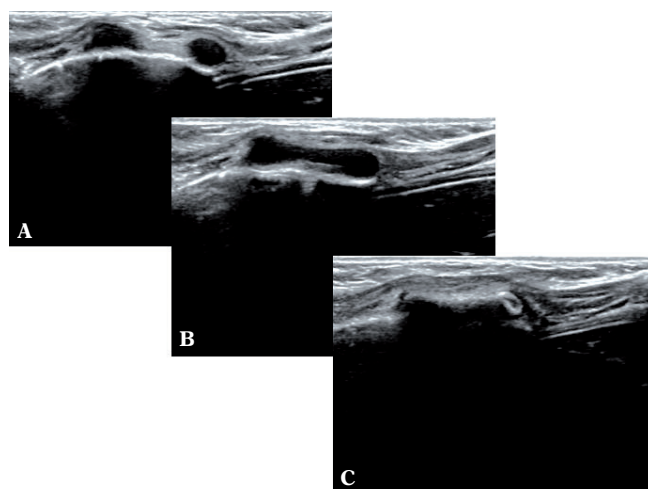
Ryc. 8. Zdwojenie chrząstki żebra IV prawego (strzałki)

Fig. 8. Bifurcation of the cartilage of the fourth right rib (arrows)

hepatomegaly and splenomegaly for further diagnosis and to rule out a proliferative disease. Based on additionally performed examinations, the diagnosis of the infection with the Epstein-Barr virus was established. Moreover, the chest X-ray and US examinations revealed bifurcation of the left fifth rib (fig. 9).

Discussion

The cases presented above are the first cases in the available literature in which bifid rib anomaly was diagnosed by chest ultrasound in children. Bifid rib is a rare



Ryc. 9. Dwudzielność żebra V po stronie lewej

Fig. 9. Bifurcation of the fifth left rib

Pacjent Patient	Badania obrazowe Imaging examinations	Badania laboratoryjne Laboratory tests
1.	RTG, USG X-ray, US	Morfologia (n), Falk (n), gospodarka wapniowo-fosforanowa (n) Complete blood count (n), ALP (n), calcium-phosphorus metabolism (n)
2.	RTG, USG X-ray, US	Morfologia (n), kreatynina (n), KM (n), eGFR (n), Na (n), K (n), LDH (n), koagulogram, Falk (n), aHCV (n), HBsAg (n) Complete blood count (n), creatinine (n), UA (n), eGFR (n), Na (n), K (n), LDH (n), coagulation profile, ALP (n), aHCV (n), HBsAg (n)
3.	USG US	(-)
4.	USG, RTG US, X-ray	(-)
5.	USG, RTG US, X-ray	Morfologia (WBC ↑, Lymph ↑), IgM EBV (+), AST (n), ALT (n), GGTP (n), LDH (n) Complete blood count (WBC ↑, Lymph ↑), IgM EBV (+), AST (n), ALT (n), GGTP (n), LDH (n)

(n) – wyniki badań w normie; **Falk** – fosfataza alkaliczna; **KM** – kwas moczowy; **eGFR** – współczynnik filtracji kłębuszkowej; **Na** – sód; **K** – potas; **LDH** – dehydrogenaza mleczanowa; **aHCV** – przeciwciała anti-HCV; **HBsAg** – antygen HBV; (-) – nie wykonano badań laboratoryjnych; **WBC ↑** – podwyższony poziom leukocytów; **Lymph ↑** – podwyższony poziom limfocytów; **IgM EBV (+)** – dodatnie przeciwciała przeciwko wirusowi Ebsteina-Barr; **AST** – aminotransferaza asparaginianowa; **ALT** – aminotransferaza alaninowa; **GGTP** – gamma-glutamylotranspeptydaza.

(n) – normal result; **ALP** – alkaline phosphatase; **UA** – uric acid; **eGFR** – estimated glomerular filtration rate; **Na** – sodium; **K** – potassium; **LDH** – lactate dehydrogenase; **aHCV** – hepatitis C antibody; **HBsAg** – hepatitis B surface antigen; (-) – laboratory tests were not performed; **WBC ↑** – elevated leukocyte level; **Lymph ↑** – elevated lymphocyte level; **IgM EBV (+)** – positive antibodies to the Epstein-Barr virus; **AST** – aspartate aminotransferase; **ALT** – alanine aminotransferase; **GGTP** – gamma-glutamyl transpeptidase.

Tab. 1. Wyniki badań laboratoryjnych z uwzględnieniem rodzaju badań obrazowych wykonanych u poszczególnych pacjentów

Tab. 1. Results of the laboratory tests and the type of imaging examinations performed in individual patients

jest sporadycznie występującą anomalią rozwojową żeber. Manifestuje się jako niebolesny guz ściany klatki piersiowej. Zmiany te wykrywane są w rutynowym badaniu fizykalnym i/lub na zdjęciu RTG klatki piersiowej, często wykonywanym z innego powodu⁽¹⁾. Ogólna liczba przypadków żebra dwudzielnego szacowana jest na około 0,15–3,4% (średnio 2%) populacji, co odpowiada około 20% wad wrodzonych żeber⁽²⁾. Przeważnie zmiana występuje jednostronnie⁽³⁾, częściej u mężczyzn⁽⁴⁾. W dotychczas opisanych przypadkach dwudzielnosc dotyczyła przede wszystkim żebra czwartego⁽¹⁾. Ta anomalia rozwojowa może występować sporadycznie w postaci izolowanej lub być związana z różnymi jednostkami chorobowymi, najczęściej z zespołem Gorlina-Goltza⁽⁵⁾. Jest to wielosystemowe zaburzenie, dotyczące głównie rasy białej. Dziedziczny się je autosomalnie dominująco⁽⁵⁾. Manifestuje się anomaliami: układu kostnego (żebro dwudzielne w 60–70% przypadków, torbiele szczęki i żuchwy) i układu nerwowego oraz zmianami skórnymi (mnogie znamiona podstawnokomórkowe, torbiele naskórkowe)^(6,7). Zespół ten występuje z częstością 1 na 600 000 żywych urodzeń⁽⁷⁾.

Badanie RTG jest pomocne w diagnostyce anomalii rozwojowych struktur kostnych klatki piersiowej. W przypadku żebra dwudzielnego pewnym ograniczeniem tej metody jest utrudniona ocena chrząstki i okolicy przymostkowej (przypadek 2. i 3.). Prezentowane przykłady pokazują, że badanie USG w porównaniu z badaniem RTG pozwala na dokładniejszą ocenę rozdziału żebra, szczególnie w okolicy przymostkowej, oraz ocenę chrząstki.

Wnioski

Badanie USG rusztowania klatki piersiowej u dzieci jest przydatne w diagnostyce guzów żeber. Dzięki dokładnej ocenie przebiegu okostnej i chrząstki żebrowej można szybko i precyzyjnie stwierdzić, czy dana zmiana jest anomalią rozwojową i jakiego rodzaju.

Konflikt interesów

Autorzy nie zgłaszają żadnych finansowych ani osobistych powiązań z innymi osobami lub organizacjami, które mogłyby negatywnie wpłynąć na treść publikacji oraz rościć sobie prawo do tej publikacji.

Piśmiennictwo/References

1. Glass RB, Norton KI, Mitre SA, Kang E: Pediatric ribs: a spectrum of abnormalities. *Radiographics* 2002; 22: 87–104.
2. Charles I, Scott J: Pectoral girdle, spine, ribs, and pelvic girdle. In: Stevenson RE, Hall JG, Goodmann RM (eds.): *Human Malformations and Related Anomalies*. Vol. 2, Oxford University Press, New York 1993: 655–697.
3. Kupeli E, Ulubay G: Bony bridge of a bifid rib. *Cleve Clin J Med* 2010; 77: 232–233.
4. Osawa T, Sasaki T, Matsumoto Y, Tsukamoto A, Onodera M, Nara E *et al.*: Bifid ribs observed in the third and the fourth ribs. *Kaibogaku Zasshi* 1998; 73: 633–635.
5. Gorlin RJ, Goltz RW: Multiple nevoid basal-cell epithelioma, jaw cysts and bifid rib. A syndrome. *N Engl J Med* 1960; 262: 908–912.
6. Crutchfield CE, Geiger J, Gorlin RJ, Ahmed I: What syndrome is this? *Pediatr Dermatol* 2000; 17: 484–486.
7. Bakaeen G, Rajab LD, Sawair FA, Hamdan MA, Dallal ND: Nevoid basal cell carcinoma syndrome: a review of the literature and a report of a case. *Int J Paediatr Dent* 2004; 14: 279–287.

congenital abnormality of the anterior chest wall. It manifests as a painless “lump” of the chest wall. A single bifid rib is most commonly a normal incidental finding discovered during a routine physical examination and/or chest radiography which is often performed for other reasons⁽¹⁾. The overall prevalence of bifid rib is estimated at approximately 0.15% to 3.4% (mean 2%) and it accounts for approximately 20% of all congenital rib anomalies⁽²⁾. It is usually unilateral⁽³⁾ and more frequently occurs in men⁽⁴⁾. The fourth rib has been reported to be the most commonly bifid⁽¹⁾. This congenital anomaly may occur sporadically as an isolated defect or may be seen in several genetic disorders such as Gorlin-Goltz syndrome⁽⁵⁾. It is a multisystem disorder that occurs predominantly in the white race. It is autosomal dominant condition⁽⁵⁾ characterized by the anomalies of the skeletal system (bifid rib in 60–70% of cases, maxillary and mandibular cysts), nervous system and skin lesions (numerous basal cell nevi, epidermoid cysts)^(6,7). The incidence of this syndrome is 1 per 600,000 live births⁽⁷⁾.

The X-ray examination is useful in the diagnosis of congenital anomalies of the rib cage. However, in the case of bifid rib, this method has certain limitations due to a more difficult assessment of the cartilage and parasternal region (case 2 and 3). The presented cases demonstrate that sonography allows for a more accurate assessment of bifid rib than the X-ray, particularly in the parasternal region. It also enables cartilage assessment.

Conclusions

The US examination of the rib cage in pediatric patients is a useful tool for diagnosis rib lesions. It enables assessment of the periosteum and costal cartilage, moreover, it gives rapid and precise answer whether the lump is a congenital anomaly and specify its type.

Conflict of interest

Authors do not report any financial or personal links with other persons or organizations, which might affect negatively the content of this publication and/or claim authorship rights to this publication.