

个案报道

胸椎骨巨细胞瘤并动脉瘤样骨囊肿 1 例报道

Giant cell tumor and secondary aneurysmal bone cyst of thoracic vertebra: a case report

谢炜星, 晋大祥, 丁金勇, 梁 德

(广州中医药大学第一附属医院脊柱骨科 510405 广州市)

doi: 10.3969/j.issn.1004-406X.2013.06.18

中图分类号: R738.1 文献标识码: B 文章编号: 1004-406X(2013)-06-0572-03

骨巨细胞瘤多发于四肢长骨骨端,发生于脊柱者少见。我院于 2011 年 2 月收治 1 例胸椎骨巨细胞瘤并动脉瘤样骨囊肿患者,报道如下。

患者男性,24 岁,因“右胸背疼痛 2 个月,加重伴行走不稳 6d”于 2011 年 2 月 21 日来我院就诊。患者入院前 2 个月无明显诱因出现右胸背部隐痛,于我院门诊就诊口服中药等治疗后,自觉症状改善不明显。入院前 6d 因胸背痛在当地医院行推拿治疗后逐渐出现双下肢麻木、乏力,行走不稳,胸部有束带感,症状持续不能缓解并逐渐加重,小便有便意但排尿迟缓,便秘。近期体重无明显减轻。查体: T4、T5 棘突叩击痛(+),双侧乳头以下皮肤感觉减退,腹壁反射消失,提睾反射消失,双下肢髂腰肌、股四头肌肌力 3 级,左踝背伸肌肌力 3 级,右踝背伸肌肌力 2 级,双膝腱及跟腱反射亢进,双侧巴氏征(+). 入院后查血常规、血沉、C-反应蛋白及肿瘤相关抗原 7 项均无异常。胸椎 MRI 示 T4 椎体稍变扁,椎体、椎弓根、横突及部分棘突见大面积异常信号,边界清,内部信号不均, T1 像呈等、低信号, T2 像及抑脂像呈混杂信号,增强扫描病变中度强化,欠均匀,肿块突入椎管内,硬膜受压,与肿块分界不清,硬膜外脂肪间隙消失(图 1,2)。胸椎 CT 示 T4 椎体右侧 2/3、右侧椎弓、横突、椎板及棘突见膨胀性骨质破坏,其内为软组织密度影,可见气泡,部分骨边缘缺损,软组织影突入椎管(图 3)。在 C 型臂 X 线引导下 T4 椎体穿刺活检,穿刺物病理检查示:送检组织多为纤维结缔组织,可见多数血腔形成,周围散在大量多核巨细胞,形成彩带征。诊断: T4 椎体骨巨细胞瘤并动脉瘤样骨囊肿。考虑肿瘤切除术中出血可能较多,于术前 1d 行 T4 椎体右侧节段动脉栓塞,以减少术中出血。

2011 年 3 月 2 日于全麻下行前后路联合 T4 椎体及附件肿瘤切除、神经减压、钛网重建植骨融合内固定术。先行后正中入路,见 T4 右侧椎板、椎弓根及棘突、横突、肋骨

明显被肿瘤破坏,椎板后方可见肿瘤膨隆生长,质如鱼肉样,包膜完整。切除 T3、T4 的棘突、T3 椎板下部及 T4 的全椎板、横突及双侧肋骨头,显露椎管,可见肿瘤突入椎管,肿瘤组织与硬脊膜粘连,压迫硬膜囊。周围反应带切除后观察肿瘤无残存。再行右胸前外侧入路,见 T4 椎体呈溶骨性破坏,与周围组织边界清楚。术中肿瘤被完全切除,并切除肿瘤边缘部分健康的骨、软组织。肿瘤组织彻底切除后送病理检查,结果显示瘤细胞呈椭圆形及纤维母细胞样,伴散在多核巨细胞形成,并见大小不一的血腔,周围见纤维囊壁样结构及多核巨细胞形成。免疫组化标记: protein 63(p63)基因表达(+). 病理诊断: T4 骨巨细胞瘤(交界性)并动脉瘤样骨囊肿(图 4~6)。

术中出血约 5000ml,术中输注浓缩红细胞悬液 20u、新鲜冰冻血浆 1200ml、冷沉淀 12u。考虑患者手术出血量多,术后转重症监护室,监测其中心静脉压偏低,考虑血容量不足,予加大补液量、扩容等处理后,患者生命体征平稳。术后第 3 天,患者转回普通病房。术后复查胸椎正侧位 X 线片示内固定位置良好(图 7)。患者术后到外院辅助直线加速器常规放疗,每次 200cGy,每周 5 次,放疗量 40Gy。术后 18 个月随访,胸背痛消失,双下肢肌力 5 级,束带感消失,大小便正常,复查 CT 示局部未见肿瘤复发,硬膜囊无受压(图 8)。

讨论 骨巨细胞瘤占原发性骨肿瘤的 4%~8%^[1], 大约 5% 的骨巨细胞瘤发生于扁骨,以骨盆最多见^[2]。椎骨之中最常发生于骶骨,骶骨以外脊柱骨巨细胞瘤约占骨巨细胞瘤的 2.9%^[3]。脊柱骨巨细胞瘤的预后较四肢骨骨巨细胞瘤的预后差,其治疗后的复发率可达 80%^[4]。

骨巨细胞瘤好发于 20~40 岁人群,局部侵袭性较强,典型的脊柱骨巨细胞瘤累及椎体,但可扩散至椎板。脊柱骨巨细胞瘤患者可出现局部疼痛或神经功能缺失。X 线表现为椎体偏心性、膨胀性、溶骨性骨质破坏,骨壳较薄,其轮廓一般光整,其内可见纤维骨嵴,构成分房状,多数椎体无硬化边缘和骨膜反应。组织学特征是单核基质细胞间均匀分布破骨细胞样多核巨细胞。但出现多核巨细胞并非骨巨细胞瘤所特有。有文献认为 p63 在骨巨细胞瘤的穿刺活

第一作者简介:男(1984-),住院医师,医学硕士,研究方向:脊柱伤病的中西医结合治疗

电话:(020)36591604 E-mail:xwx841211@163.com

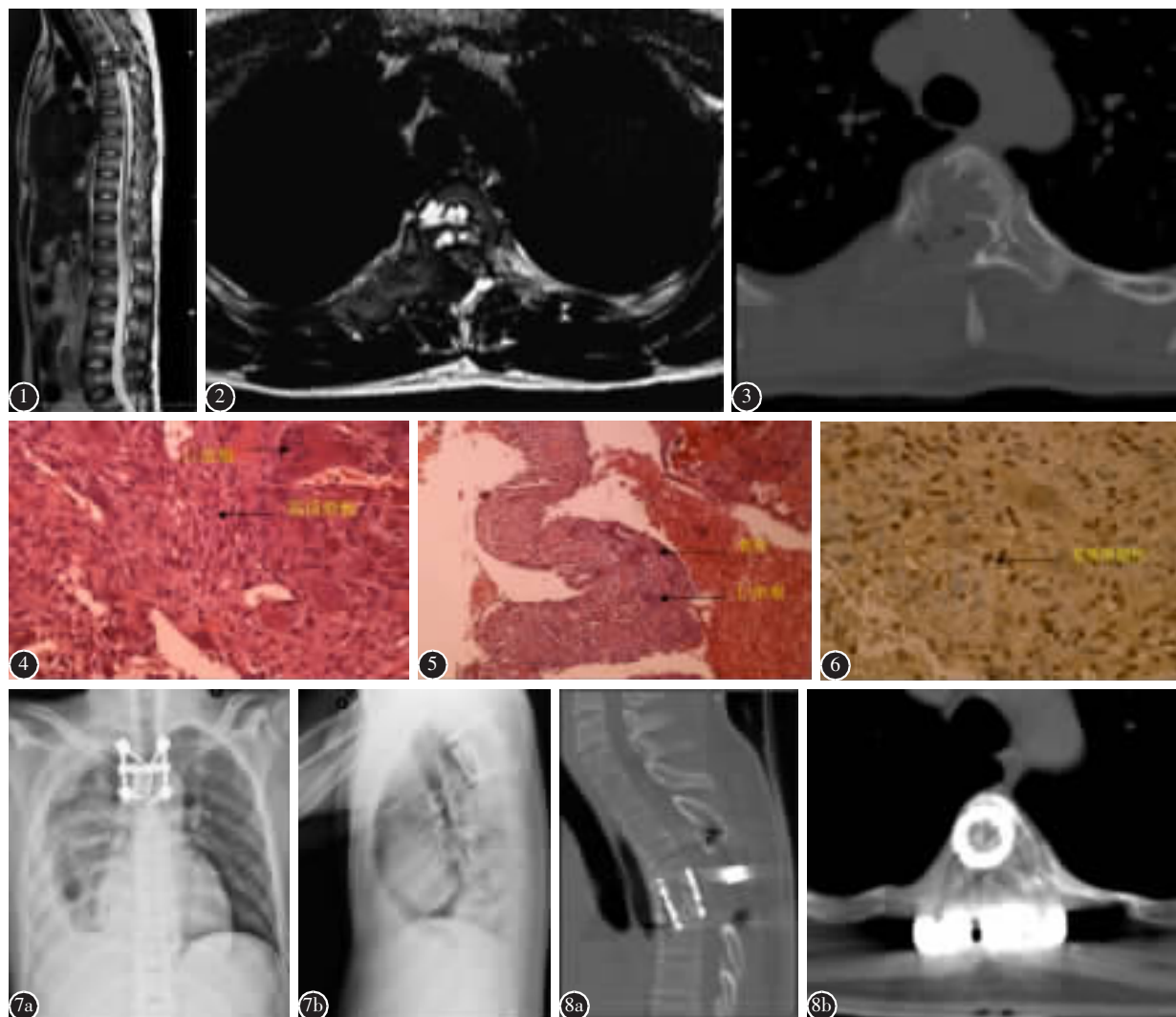


图 1 术前矢状位 MRI 增强扫描示 T4 椎体、椎弓根、部分棘突见大面积异常信号, 中等强化, 信号不均匀 **图 2** 术前 T4 轴位 MRI 增强扫描 T2 加权像示肿块呈混杂信号, 其内可见液-液平面, 肿块突入椎管内, 硬膜受压, 硬膜与肿块分界不清 **图 3** 术前轴位 CT 示 T4 椎体右侧 2/3 及右侧椎弓、横突、椎板及棘突见膨胀性骨质破坏, 其内密度不均, 多个小囊样低密度影, 边缘散在高密度影, 可见纤维骨嵴, 构成分房状 **图 4** 术中切除肿瘤病理检查可见破骨型巨细胞及基质细胞(HE 染色, $\times 200$) **图 5** 术中切除肿瘤病理检查可见动脉瘤样骨囊肿的囊壁呈飘带样(HE 染色, $\times 200$) **图 6** 术中切除肿瘤基质细胞核免疫组化 p63 蛋白表达阳性, 细胞核为棕黄色颗粒(Envision 染色, $\times 200$) **图 7** 术后复查胸椎正侧位 X 线片示内固定位置良好 **图 8** 术后 18 个月胸椎 CT 示内固定物位置良好, 局部未见肿瘤复发

Figure 1 Preoperative sagittal enhanced magnetic resonance showed abnormal signal in the T4 vertebral body, pedicle, and part of the spinous process which showed moderately enhanced and heterogeneous signal intensity **Figure 2** Preoperative axial enhanced T2-weighted imaging showed a mass with a fluid-fluid interface with mixed signals which broke into the spinal column. The dural had been pressed. Boundaries between the dural and the tumor was not clear **Figure 3** Preoperative axial CT showed expansion bone destruction in two-thirds of the right side of T4 vertebral body, the right side of the pedicle, transverse process, lamina and spinous process, uneven density within the tumor, multiple small cystic low signals, edge scattered in the high signals, visible fiber bone ridge, constitute a soap bubble like **Figure 4** The postoperative pathological examination showed: the tumor was composed of osteoclast-type giant cells and stromal cells(HE staining, $\times 200$) **Figure 5** The postoperative pathological examination showed: Aneurysmal bone cyst wall was ribbon-like(HE staining, $\times 200$) **Figure 6** The postoperative pathological examination showed: p63 expression in stromal cell nucleus. Nucleus appeared as brown particles(Envision staining, $\times 200$) **Figure 7** The postoperative thoracic spine X-ray films showed: internal fixation in good position **Figure 8** CT of 18 months postoperatively showed internal fixation in good position, and local no tumor recurrence

检和术后大体标本病理检查中具有诊断意义^[5-7],本例患者术中切除肿瘤病理检查免疫组化标记示 p63(+).

动脉瘤样骨囊肿(aneurysmal bone cyst, ABC)是一种具有复发倾向的少见良性病变,约占所有骨肿瘤的 1.4%,占原发脊柱肿瘤的 15%,最常发生于胸椎和腰椎^[8].动脉瘤样骨囊肿的病理学表现为骨内偏心性膨胀性骨病变,病灶由多个充满血性液体的囊腔组成,可分为原发性和继发性.继发性动脉瘤样骨囊肿发生在先前有病灶存在的基础上,据文献报道,骨巨细胞瘤是最常伴发动脉瘤样骨囊肿的病变,约占 39%^[9].继发性动脉瘤样骨囊肿的形成与肿瘤侵犯血管引发血管破裂或动静脉短路以及肿瘤诱发血管生成有关^[9].对于有伴随病变的动脉瘤样骨囊肿,诊断时应首先强调影响自然病程和预后的基础病灶,而不应仅诊断为继发性动脉瘤样骨囊肿.借助影像检查较容易诊断单纯骨巨细胞瘤或原发性动脉瘤样骨囊肿,但对骨巨细胞瘤继发动脉瘤样骨囊肿的影像学诊断经验尚不足.动脉瘤样骨囊肿具有鉴别诊断意义的是病灶内 CT 密度不均,常出现液-液平面征^[10].当影像学诊断考虑为骨巨细胞瘤,在 CT 或 MRI 上表现为囊实性肿块合并多发液-液平面,应考虑到并发动脉瘤样骨囊肿的可能^[9].本例患者术前 CT 可见 T4 椎体病灶呈膨胀性骨质破坏,其内密度不均,可见纤维骨嵴,构成分房状.椎体 MRI 轴位 T2 像示肿块呈混杂信号,其内可见液-液平面.

继发性动脉瘤样骨囊肿的治疗以原发病灶的治疗为重点,对于骨巨细胞瘤继发动脉瘤样骨囊肿的患者,应根据骨巨细胞瘤的恶性程度、部位、有无周围侵犯或转移等决定手术方法.脊柱骨巨细胞瘤术前常进行病灶穿刺活检,以便在切除术前取得较为明确的肿瘤诊断和恶性程度分级,指导治疗方案的制定.脊柱骨巨细胞瘤并发动脉瘤样骨囊肿通常表现为侵袭性病灶并导致脊髓受压,因此,治疗应包括肿瘤切除和脊柱稳定性重建.

Wu 等^[11]报道 11 例脊柱骨巨细胞瘤继发动脉瘤样骨囊肿患者行手术治疗,其中 4 例在术后平均 13 个月时出现局部病灶复发,总复发率达 36.4%.他们认为脊柱骨巨细胞瘤继发动脉瘤样骨囊肿有更高的局部复发趋势,因此这类患者需要更积极的手术治疗方案以达到局部肿瘤的控制.由于脊柱骨巨细胞瘤血供丰富,肿瘤周围解剖复杂,手术不易将肿瘤彻底切除,术后复发率较高,其手术治疗颇为棘手.病灶内切除术能最大限度避免神经、血管、内脏损伤的风险,但肿瘤局部复发率较高.对肿瘤进行广泛切除术能明显降低局部复发率,但会增加手术并发症的发生率.术中控制出血是完全切除肿瘤、降低复发率的重要措施,术前行血管造影栓塞术可减少术中出血.郭卫^[12]认为,如脊柱巨细胞瘤已累及椎弓根部,应行前后路联合手术,减少肿瘤残留,降低局部肿瘤复发率.术后患者是否接受放疗存在争议,其主要缺点是控制肿瘤的生长效果不佳和促进约 10%的病例肉瘤变^[2].但术后放疗仍被认为是降低

骨巨细胞瘤和动脉瘤样骨囊肿术后复发的有效方法^[13,14].本例患者术前 1d 行 T4 椎体右侧节段动脉栓塞,再行前后路联合 T4 椎体及附件肿瘤切除神经减压钛网重建植骨融合内固定术,术中肿瘤病灶行广泛性切除,术后辅助直线加速器常规放疗.术后 18 个月随访,患者胸椎局部未见肿瘤复发,胸背痛消失,神经功能恢复,疗效较好.

(致谢:本文撰写过程中,得到了广州中医药大学第一附属医院病理室匡忠生教授的大力帮助,在此表示衷心感谢!)

参考文献

1. Dahlin DC, Cupps RE, Johnson EW Jr. Giant-cell tumor: a study of 195 cases[J]. Cancer, 1970, 25(5): 1061-1070.
2. 郭卫,唐顺,燕太强,等. 切刮术治疗骶骨骨巨细胞瘤的结果评价[J]. 中国脊柱脊髓杂志, 2010, 20(8): 635-639.
3. Ozaki T, Liljenqvist U, Halm H, et al. Giant cell tumor of the spine[J]. Clin Orthop Relat Res, 2002, 401: 194-201.
4. Harrop JS, Schmidt MH, Boriani S, et al. Aggressive "Benign" primary spine neoplasms[J]. Spine, 2009, 34(22 Suppl): 39-47.
5. Lee CH, Espinosa I, Jensen KC, et al. Gene expression profiling identifies p63 as a diagnostic marker for giant cell tumor of the bone[J]. Mod Pathol, 2008, 21(5): 531-539.
6. Dickson BC, Li SQ, Wunder JS, et al. Giant cell tumor of bone express p63[J]. Mod Pathol, 2008, 21(4): 369-375.
7. 田萌萌,孙晓淇,孟淑琴. p63 蛋白在骨巨细胞瘤穿刺活检及大体标本中的表达及意义[J]. 山东医药, 2011, 51(27): 100-101.
8. Kransdorf MJ, Sweet DE. Aneurysmal bone cyst: concept, controversies, patient presentation, and imaging[J]. AJR, 1995, 164(3): 573-580.
9. 陈建宇,刘庆余,沈君,等. 骨巨细胞瘤继发动脉瘤样骨囊肿的影像诊断[J]. 中华放射学杂志, 2007, 43(12): 1309-1313.
10. 陆志华,姚伟武,杨世坝,等. 原发性及继发性动脉瘤样骨囊肿的影像学诊断[J]. 中国医学计算机成像杂志, 2008, 14(2): 144-149.
11. Wu Z, Yang X, Xiao J, et al. Aneurysmal bone cyst secondary to giant cell tumor of the mobile spine: a report of 11 cases[J]. Spine, 2011, 36(21): E1385-1390.
12. 郭卫. 脊柱原发性恶性治疗的外科治疗策略[J]. 中国脊柱脊髓杂志, 2010, 20(8): 622-623.
13. Miszczyk L, Wydmanski J, Spindel J. Efficacy of radiotherapy for giant cell tumor of bone: given either postoperatively or as sole treatment[J]. Int J Radiat Oncol Biol Phys, 2001, 49(5): 1239-1242.
14. Feigenberg SJ, Marcus RB Jr, Zlotecki RA, et al. Megavoltage radiotherapy for aneurysmal bone cysts [J]. Int J Radiat Oncol Biol Phys, 2001, 49(5): 1243-1247.

(收稿日期:2012-08-19 末次修回日期:2013-01-13)

(本文编辑 李伟霞)