

椎管内结核瘤致下肢不全瘫 1 例报道及文献回顾

A case of incomplete paralysis of lower limbs caused by intraspinal tuberculoma and literature review

胡巍然,施新革,王红强,朱宇,宋月鹏,高延征

(河南省人民医院脊柱脊髓外科 450000 郑州市)

doi: 10.3969/j.issn.1004-406X.2020.05.15

中图分类号: R529.2

文献标识码: B

文章编号: 1004-406X(2020)-05-0477-04

脊柱结核的发病率居全身骨关节结核的首位,其中椎体结核占大多数。结核菌侵蚀椎体骨质,早期会引起患者出现腰背部疼痛,随着病情进展,出现脊柱失稳、脊柱畸形、椎旁脓肿,严重者出现脊髓压迫症状。少数结核菌会直接侵入椎管,在椎管内持续感染,形成炎性结核瘤,常常在不伴有明显脊柱失稳的情况下引起神经压迫^[1]。然而,目前文献中对此类病例报道较少,且缺乏临床处理策略的共识。我院收治了 1 例椎管内结核瘤致下肢不全瘫患者,报道如下。

患者男性,22 岁,以“腰背部疼痛半年,加重伴下肢无力 1 个月”于 2018 年 9 月 7 日入院,患者 2 个月前因“腰椎结核”于外院行腰椎前路结核病灶清除术,术中见腰大肌肿胀,椎旁脓肿,纵行切开囊壁后,引流脓液并清洗脓腔。显露病变椎体,清除干酪样坏死物质,窦道内放置异烟肼及利福平。术后患者持续腰背部疼痛,近 1 个月出现下肢无力,门诊再次以“腰椎结核”收入院。专科查体:腰椎棘突旁压痛、叩击痛,左大腿前侧皮肤感觉功能减退。双侧直腿抬高试验 40°(+). 右下肢髂腰肌肌力 4 级,股四头肌肌力 4 级,胫前肌肌力 4 级,踝长伸肌肌力 4 级,腓肠肌肌力 4 级;左下肢髂腰肌肌力 2+级,股四头肌肌力 2+级,胫前肌肌力 4 级,踝长伸肌肌力 4 级,腓肠肌肌力 4 级。入院后完善相关检查,MRI 提示:T12~L4 椎管内结核感染可能(图 1)。ECT 提示:腰椎信号凝聚,考虑感染(图 2)。术前 T-spot 试验阴性,布鲁氏菌凝集实验阴性。结合查体及术前各项辅助检查诊断为:(1)脊柱感染,结核可能性大;(2)脊髓损伤并不全瘫。科室经术前讨论认为:患者既往结核病史诊断明确,我院影像学检查考虑结核感染可能性大,现患者已出现下肢肌力下降,有明确手术指征。

患者于 2018 年 9 月 18 日全麻下行腰椎后路减压病灶清除术,超声骨刀切除 T11~L4 椎板,见 T12~L4 节段硬膜搏动差,硬膜张力高,硬膜外覆盖炎症瘢痕组织。显微镜下切开硬膜,见椎管内充盈灰褐色鱼肉样组织(图 3),探查见占位组织与圆锥马尾神经粘连严重,小心分离圆锥及马尾神经,探查见脊髓神经无明显受压后缝合硬膜。术后病理提示:大量急慢性炎性细胞,组织细胞聚集伴出血坏死,结合结核分枝杆菌脱氧核糖核酸(tuberculosis deoxyribonucleic acid,TB-DNA)检测考虑结核分枝杆菌感染(图 4)。分子病理结果提示:样本中结核分枝杆菌核酸检测结果为阳性(CT 值=34.98<37)。免疫组化结果提示,-A3;CD163(+),CD20(灶状+),CD3(+),CD34(脉管+),CD86(+),CK(AE1/AE3)(-),Ki167(约 30%+),CR(-),D2-40(散在+)。特殊染色结果显示:抗酸(-)。术后予规律四联抗结核用药(异烟肼、利福平、乙胺丁醇、吡嗪酰胺),辅助以康复治疗。术后患者即诉疼痛较前明显缓解。6 个月后患者返院复查左下肢髂腰肌肌力恢复至 3+级,股四头肌肌力 3+级,胫前肌肌力 4 级,踝长伸肌肌力 4 级,腓肠肌肌力 4 级。复查 MRI 提示:腰椎后路椎管减压+椎管内病损切除术后改变,T12~L1 椎管内软组织影,椎管硬膜囊增宽,考虑术后改变;双侧腰大肌及髂腰肌脓肿范围较前明显缩小(图 5)。

讨论 本病例是 1 例罕见的椎管内结核瘤占位病例。患者既往有明确的结核感染病史,初次手术治疗后出现腰背部疼痛加剧,口服抗结核药治疗无效,近来出现下肢肌力下降,有明确神经损伤症状。经腰椎后路减压病灶清除术辅以四联抗结核治疗,患者半年后复查,肌力明显改善。

椎管内结核瘤是指椎管内的结核性肉芽肿,不包括椎体骨质破坏或结核性冷脓肿压迫脊髓等病。椎管内结核瘤往往好发于胸椎,有统计数据约占 55%^[2]。Delance 等^[3]研究发现,椎管内结核瘤好发于儿童及免疫力较差的人群,如合并自身免疫疾病的患者以及需接受免疫抑制剂治疗的患者。

患者临床常表现出低热、盗汗及消瘦等结核病典型

基金项目:河南省科技创新杰出人才项目(154200510027);河南省科技攻关项目(162102310018)

第一作者简介:男(1991-),医学博士,主治医师,研究方向:脊柱畸形及脊柱数字化智能化手术工具的研发

电话:(0371)65580715 E-mail:1250491642@qq.com

通讯作者:高延征 E-mail:doctorgao63@163.com

症状,部分患者无肺部感染,体温也可正常。相关区域疼痛常常是首发症状,重症患者出现肌力下降,相对应感觉平面及支配区域感觉功能减退或消失。部分患者出现四肢瘫痪及大小便失禁。椎管内结核瘤在临床上往往难以鉴别,临床表现上常与椎管内肿瘤类似,但仍可总结其特点:(1)大部分患者既往有肺结核病史或有疫区接触史;(2)部分患者有明显肺结核、全身中毒的症状;(3)椎管内结核瘤更好发于青少年,而且往往病情进展迅速;(4)由于椎管内脊髓神经受压,而且病情进展迅速^[4-8]。Echt 等^[9]报道了 1 例 65 岁的老年男性因胸椎占位入院,影像学提示硬膜外哑铃状占位累及椎管、神经孔和椎旁区,占位中心提示囊性病损,椎弓根及椎体受到侵蚀。手术切除占位,术后病理提示为干酪样肉芽肿。Chandramouleeswaran 等^[10]报道了 1 例 30 岁的青年男性,该患者因发热及四肢肌力下降收入医院,MRI 提示为 C4~T8 髓内病变合并骨质破坏,穿刺活检提示为结核感染。中国的 Zheng 等^[11]报道了 1 例出现亚急性下肢神经功能损伤的女性患者,MRI 提示椎管内结核瘤占位合并巨大的椎旁脓肿,行 L1~L5 椎板切除,随后广泛

切除椎管内和椎旁病变。病理诊断明确后行抗结核治疗。患者术后 24h 出现肌力恢复,2 周后肌力恢复至 4 级。

MRI 被认为是检测脊髓病变的最敏感的方法,MRI 可以准确定位病灶,显示病灶大小和数量,提示是否出现变性及坏死。在结核瘤形成的早期,MRI 图像上往往显示为均质增强,表现为良性肿瘤的许多特征,如周围存在包膜、生长速度缓慢,发展为坏死甚至囊性变。在结核瘤晚期,当结核瘤中心出现干酪样坏死时,MRI 图像往往会提示出环形强化^[10]。椎管内结核瘤患者往往需要做全脊柱及头颅 MRI,明确是否存在多发病灶及颅内结核感染的情况。Goel 等^[7]认为 MRI 作为重要的辅助检查工具,病变在 T1 加权像上表现为低信号至等信号,在 T2 加权像上表现为低信号伴或不伴中心性高信号,通常表现为周边强化,但需与脑囊虫病、淋巴瘤或转移瘤相鉴别。Lalla 等^[13]同样推荐 MRI 是诊断脊髓病理的首选诊断方法。髓内结核球边界清楚,单发或多发,结节状或环状强化,常伴有明显的脊髓水肿和肿胀。脊柱结核通常也可以在身体其他部位有结节病灶,这对脊柱结核的诊断有很大帮助。Lalla 等^[14]同

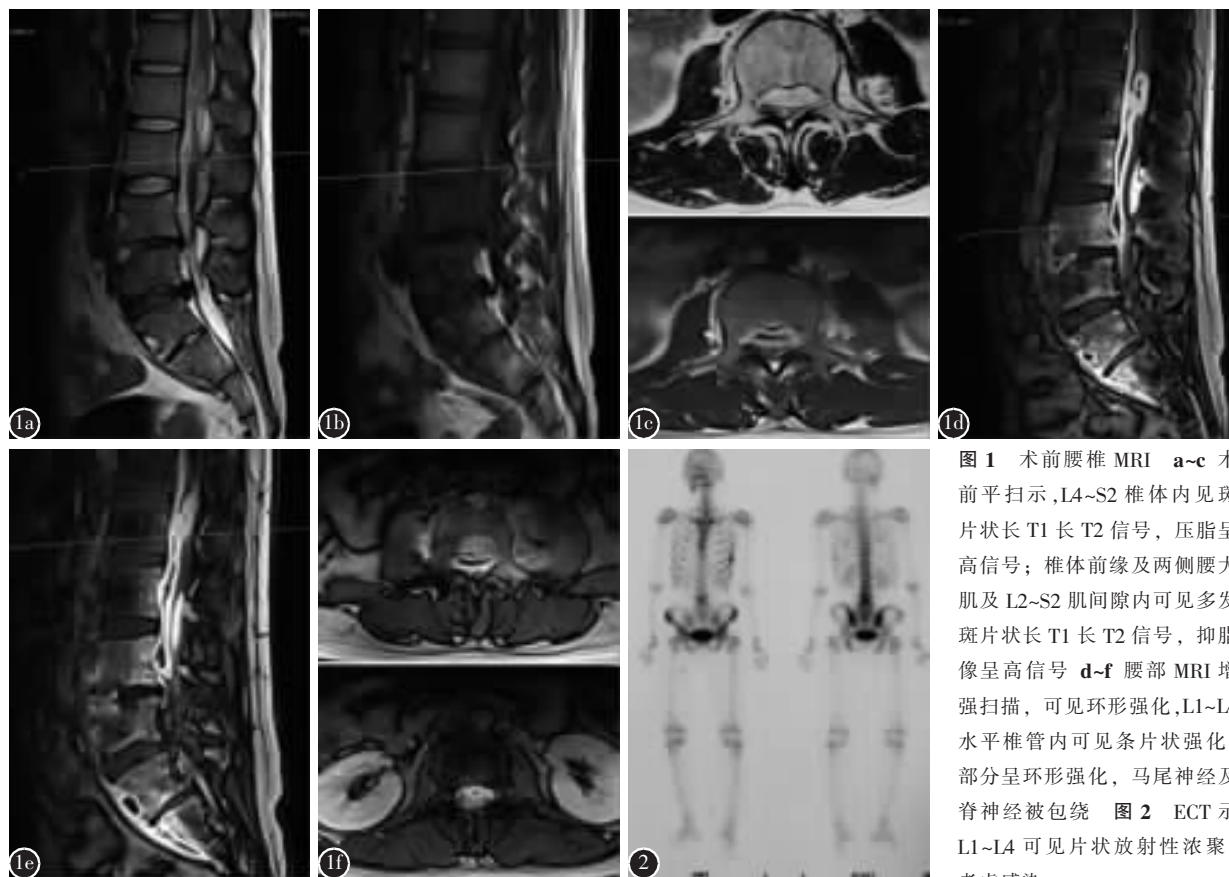


图 1 术前腰椎 MRI a~c 术前平扫示,L4~S2 椎体内见斑片状长 T1 长 T2 信号,压脂呈高信号;椎体前缘及两侧腰大肌及 L2~S2 肌间隙内可见多发斑片状长 T1 长 T2 信号,抑脂像呈高信号 d~f 腰部 MRI 增强扫描,可见环形强化,L1~L4 水平椎管内可见条片状强化,部分呈环形强化,马尾神经及脊神经被包绕 图 2 ECT 示 L1~L4 可见片状放射性浓聚,考虑感染

Figure 1 Preoperative MRI a~c Preoperative plain scans. Patchy long T1 and long T2 signals were observed in L4~S2 vertebra, with high pressure and lipid signals. Multiple patchy long T1 and long T2 signals can be seen in the anterior edge of the vertebral body and the bilateral psoas major and the muscle space, the lipid pressure is high d~f Enhanced scans, showing ring enhancement, L1~L4 horizontal lamellar enhancement in the spinal canal, part of which showed ring enhancement, and cauda equina nerve and spinal nerve were wrapped **Figure 2** ECT suggested L1~L4 spinal segments were wrapped around by surrendflaky radioactive concentration, which is diagnosed as infection

时强调了冠状面 STIR 序列(MRI 抑脂像)的重要性,STIR 序列可以更好的识别脊柱旁病灶的聚集。

部分研究报告及病例报道指出椎管内结核瘤有可能

继发或伴发颅内结核感染,或者出现由高位脊髓向下蔓延,结核杆菌可能出现由上向下沿椎管播散,因此在诊疗过程中需完善全脊柱 MRI 全面排查结核病灶。Goel 等^[7]报

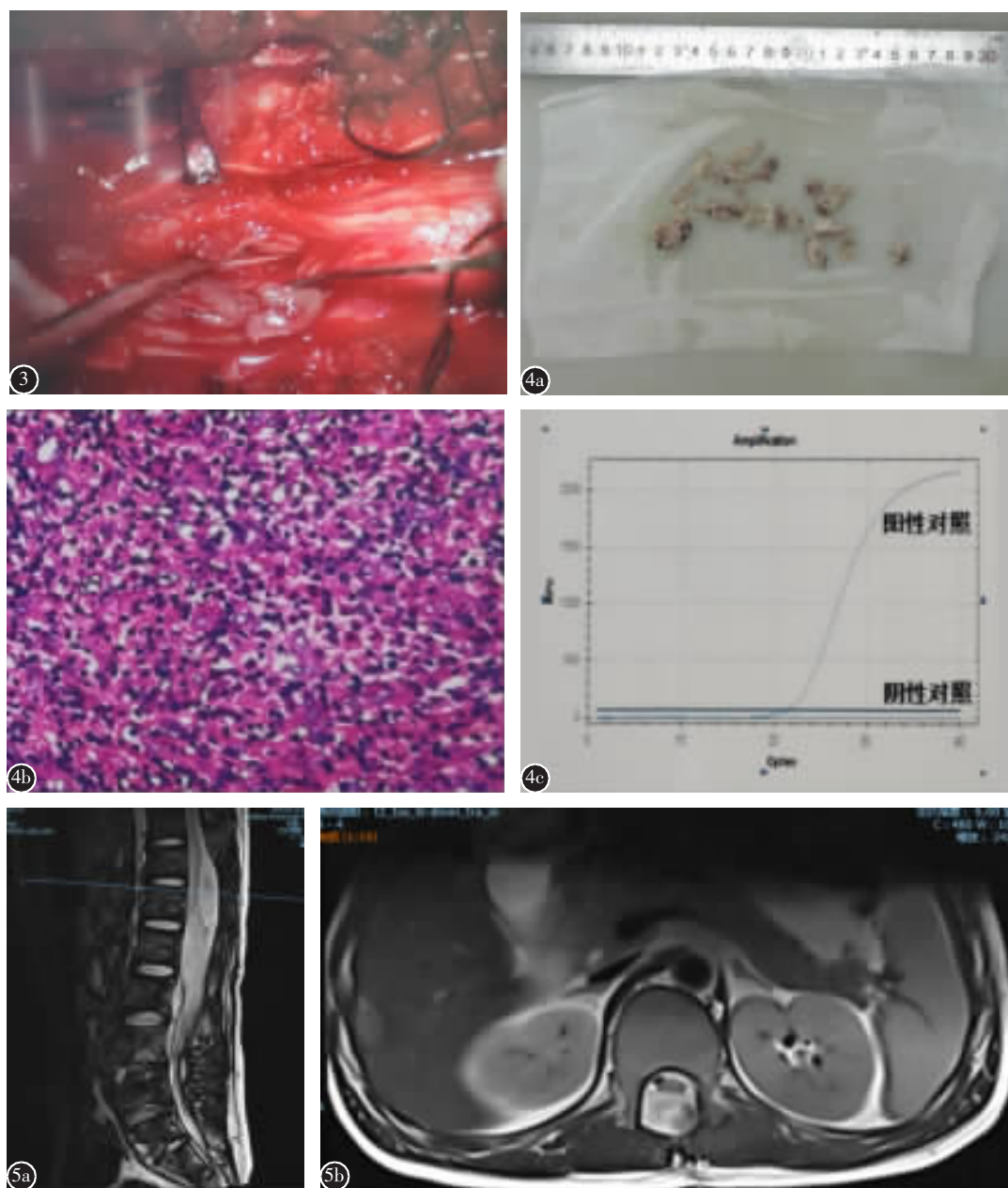


图 3 术中大体照,将结核瘤与周围组织仔细分离 图 4 对手术取出组织病理检查 a 手术取出病理大体照 b 光镜下 HE 染色,可见大量急性慢性炎症细胞,组织细胞聚集伴出血坏死 c 结核分子病理结果:TB-DNA(PCR)阳性 图 5 术后半年复查 MRI a 矢状面平扫示,T10~L3 部分椎体附件缺如,T12~L3 水平椎管内见斑片状长 T1 长 T2 信号,马尾神经及脊髓被包绕 b 横断面平扫示,椎体前缘及腰大肌周围肌间隙见长 T1 长 T2 信号

Figure 3 General view photo during the operation, separate the tuberculoma from the surrounding tissue carefully **Figure 4** Postoperative pathology **a** Showed the general postoperative pathology **b** Suggest a large number of acute and chronic inflammatory cells with tissue cell aggregation and hemorrhage and necrosis **c** Showed the molecular pathology of tuberculosis. Molecular pathology results suggested that TB-DNA (PCR) was positive **Figure 5** MRI examination half a year after the surgery **a** Showed plain sagittal scanning, partial vertebral appendages of T10~L3 are missing, long T1 and long T2 signals were patchy in the spinal canal at the spinal level of T12~L3, and cauda equina nerve and spinal cord are wrapped **b** Showed a horizontal scan in axial view. Long T1 and long T2 signals were observed in the anterior edge of the vertebral body and the intermuscular space around the psoas major

道了 1 例 18 岁印度女孩因下肢肌力进行性下降以及伴发尿频、流泪的症状入院治疗, MRI 提示 T1~T3 水平存在环形强化占位, 颅内额叶存在占位并伴周围水肿。结合脑脊液穿刺: 中性粒细胞增多, 蛋白含量升高, 结合菌素试验阳性, 患者最终诊断为颅内结核伴椎管内结核瘤。Lu 等^[10]同样指出, 脊髓髓内结核瘤多由血源性播散或脑脊液感染引起, 少数为脊柱结核局部播散所致。椎管内结核瘤占有中枢神经系统结核病例的 2%, 椎管内结核瘤与脑内结核球的比例约为 1:42, 患者需行 MRI 或 CT 检查寻找肺结核病或肺外结核感染的可能。

椎管内结核瘤的治疗原则是手术联合规范抗结核治疗。诊断明确后应当尽早手术, 术式以椎板切除减压术为主, 在不损伤神经的前提下, 尽量完整剥离结核瘤。若病灶黏连严重, 可考虑术前先行抗结核治疗。病灶清除及减压手术可以避免椎体因侵蚀导致脊柱后凸畸形, 及时解除脊髓神经压迫, 缓解疼痛。Ju 等^[12]通过对颈椎椎管内结核瘤的治疗, 总结其治疗经验认为: 髓内结核瘤采用显微手术切除。结合内科和外科治疗, 可以获得了良好的临床效果。颈髓内结核瘤应立即切除, 以尽快消除对神经的影响。Goel 等^[7]认为椎管内结核瘤在治疗上与颅内结核相似, 多数患者经内科抗结核治疗后症状会有较好的缓解, 但存在严重神经压迫及神经功能进行性恶化的患者推荐行外科手术。与此同时, 其术后迟发型并发症及疾病转归情况仍然值得关注, 部分学者认为极少数患者术后仍会出现结核瘤播散甚至出现脊髓空洞。Gul 等^[13]报道 1 例胸腰椎结核瘤患者, 经占位切除部分减压术后, 6 个月复查 MRI 提示脊髓空洞出现在远离手术部位的 T1~T9 节段, 远离手术部位, 患者再次行脊髓空洞-腹膜分流术。

通过此病例结合文献复习启示我们: (1) 结核感染不仅存在于椎体及椎旁组织, 也发生于椎管内硬膜下, 尤其是当患者出现下肢肌力进行性下降; (2) 术前仔细阅片有助发现异常, 椎管内结核瘤往往同椎管内肿瘤表现类似, 需与神经鞘瘤等相鉴别; (3) 椎管内结核病人术前需行全脊柱及头颅 MRI 检查, 全面筛查结核灶, 不除外出发病灶及颅内结核并向向下蔓延的情况; (4) 当考虑内硬膜下有结核占位, 术中需神经外科等多学科辅助治疗。

参考文献

1. Khanna K, Sabharwal S. Spinal tuberculosis: a comprehensive review for the modern spine surgeon[J]. Spine J, 2019, 19(11): 1858-1870.
2. Muthukumar N, Venkatesh G, Senthilbabu S, et al. Surgery for intramedullary tuberculoma of the spinal cord: report of 2 cases[J]. Surg Neurol, 2006, 66(1): 69-74.
3. Delance AR, Safae M, Oh MC, et al. Tuberculoma of the central nervous system [J]. J Clin Neurosci, 2013, 20(10): 1333-1341.
4. Chandramouleeswaran V, Philo HP, Balasubramaniam D, et al. A lengthy primary intramedullary tuberculoma of the spinal cord extending from C4 to D8: a case report [J]. Indian J Tuberc, 2017, 64(1): 50-53.
5. Ninomiya A, Saito A, Ishida T, et al. A surgical case of cerebellar tuberculoma caused by a paradoxical reaction while on therapy for tuberculosis spondylitis [J]. Surg Neurol Int, 2019, 10: 162.
6. Suryaprabha AAA, Susilawathi NM, Nirvana IW. Central nervous system tuberculoma complicated with spinal arachnoiditis in immunocompetent patient [J]. Open Access Maced J Med Sci, 2019, 7(12): 2002-2005.
7. Goel A, Sharma S, Jain P, et al. Concurrent intramedullary and intracerebral tuberculoma[J]. Indian J Pediatr, 2016, 83(2): 187-188.
8. Zheng X, Wu X. Diagnosis and management of intraspinal tuberculoma with giant paraspinal abscesses[J]. World Neurosurg, 2019, 127: 481-484.
9. Echt M, Holland R, Gelfand Y, et al. Extradural dumbbell-shaped tuberculoma masquerading as nerve sheath tumor: case report and review of literature [J]. World Neurosurg, 2019, 131: 47-51.
10. Lu M. Imaging diagnosis of spinal intramedullary tuberculoma: case reports and literature review[J]. J Spinal Cord Med, 2016, 33(2): 159-162.
11. Lalla R, Singh MK, Patil TB, et al. MRI of the spinal tuberculoma, paravertebral tubercular abscess and pulmonary tuberculosis[J]. BMJ Case Rep, 2013, 2013: ber2013201098.
12. Ju H, Guo D, Chen F. Intramedullary cervical tuberculoma: a case report with note on surgical management[J]. Int Surg, 2015, 100(1): 133-136.
13. Gul S, Celebi G, Kalayci M, et al. Syringomyelia and intradural extramedullary tuberculoma of the spinal cord as late complication of tuberculous meningitis [J]. Turk Neurosurg, 2010, 20(4): 561-565.

(收稿日期: 2019-12-03 末次修回日期: 2020-03-15)

(本文编辑 姜雅浩)