

· 病例报告 ·

臀大肌弥漫型腱鞘巨细胞瘤 1 例

陈龙, 吕龙龙, 吕浩, 黄琦, 徐声鸣, 牛丰

(吉林大学第一医院脊柱外科, 吉林 长春 130021)

关键词 弥漫型腱鞘巨细胞瘤; 臀大肌; 病例报告

DOI: 10.3969/j.issn.1003-0034.2018.04.014

Diffuse-type tenosynovial giant cell tumor of the gluteus maximus muscle: a case report CHEN Long, LYU Long-long, LYU Hao, HUANG Qi, XU Sheng-ming, and NIU Feng. Department of Spinal Surgery, the First Hospital of Jilin University, Changchun 130021, Jilin, China

KEYWORDS Diffuse-type tenosynovial giant cell tumor; Gluteus maximus muscle; Case reports

Zhongguo Gu Shang/China J Orthop Trauma, 2018, 31(4): 373-375 www.zggszz.com

患者,男,62岁,因发现左臀部肿物30余年于2017年8月19日入院。入院查体:左臀部较对侧明显膨隆,左臀部下方可见一斜行长约10cm的瘢痕,无红肿及窦道形成,局部皮肤正常,皮温略高,可触及一大约18cm×30cm×13cm的囊实性肿物,表面质软,无压痛,活动度可,髋关节活动正常。辅助检查:术前骨盆X线片(图1a)未报明显骨质异常。臀部彩超:可见囊性包块,其内可见少量分隔,探头挤压可见细弱光电波动,其周边可见1个15cm×13cm×14cm的实性包块,其内未见明显血流,提示左臀部混合型占位。双髋关节MRI(图1b,1c)示左侧臀部软组织内见团块状高低混杂异常信号影,与臀大肌关系密切,大小约13.4cm×8.7cm×14.9cm, T1WI呈低及稍高信号, T2WI呈低、等及稍高信号,病变周围见不规则囊状长T1、T2信号影,其内可见分隔,病变与左侧髋关节骨质及髂骨分界尚清晰。患者入院后行常规检查、男性肿瘤标志物及全身骨显像检查,检查结果无明显异常。既往史:患者40年前左臀部利器刺伤史,于当地医院手术治疗(具体不详),自述清创缝合后愈合良好,术后无感染、红肿及窦道形成。

患者入院后第2天行B超引导下左臀部穿刺置管术,引出暗红色血性液体约1500ml,取穿刺液送检,穿刺液血培养、结核菌涂片及一般细菌真菌培养均未有明显异常。入院后第3天局麻下行左髂动脉造影显示左侧髂内动脉显著增粗,分支增多、紊乱,且血管分支受肿物挤压呈包绕征象,左侧臀上臀下动脉为主要病变供血血管,遂行左臀上下动脉血管栓

塞术。入院后第4天患者在全麻下行左臀部肿瘤扩大切除术。全麻生效后,沿原穿刺管引出暗红色血性液体约1800ml,此时可触及左臀部实性肿物,取左臀部弧形切口,逐层广泛分离皮肤、皮下脂肪、浅筋膜至臀大肌,术中见臀大肌纤维挛缩变薄,探查肿物位于臀大肌深面,不规则团块状,大小约13cm×7cm×15cm。肿物底部邻近坐骨神经,包膜完整,可见肿物分叶,有囊腔分隔,因肿物巨大,逐层切开肿物包膜,包膜内可见大量铁锈色液体及坏死组织,质韧(图1e)。分离保护坐骨神经后将肿物广范围游离解剖和去除其肿物下界深达坐骨大切迹,术中完整切除肿物(图1d),用碘伏和生理盐水反复冲洗,逐层缝合,留置引流管。术后将肿物送检病理。术后病理回报:结节样肿物1枚,体积14cm×14cm×10cm,表面不光滑,切面弥漫出血、坏死样,周边见1个破裂囊腔,直径约12cm,内壁淡褐色,尚光滑,未见内容。HE染色:肿瘤组织内可见肿瘤出血梗死及胆固醇结晶(图1f)。免疫组化:ki-67(<10%)。病理诊断为腱鞘巨细胞瘤(弥漫型)。术后患者恢复良好,术后3个月随访见左臀部肿物切口愈合良好,肿物无复发,无感觉及运动功能障碍。

讨论

腱鞘巨细胞瘤可以分为局限型腱鞘巨细胞瘤和弥漫型腱鞘巨细胞瘤(diffuse-type tenosynovial giant cell tumor, D-TGCT)两种类型。按生长部位又可以分为关节内型和关节外型,关节内型弥漫腱鞘巨细胞瘤又称为色素沉着绒毛结节性滑膜炎(pigmented villonodular synovitis, PVNS); 关节外型是一个缓慢增长且拥有很好预后的病变,通常可以完整切除。该肿瘤是局部侵袭性的,良性的,33%~50%会复发,但是多发转移到其他器官比较罕见^[1-2]。D-TGCT病因

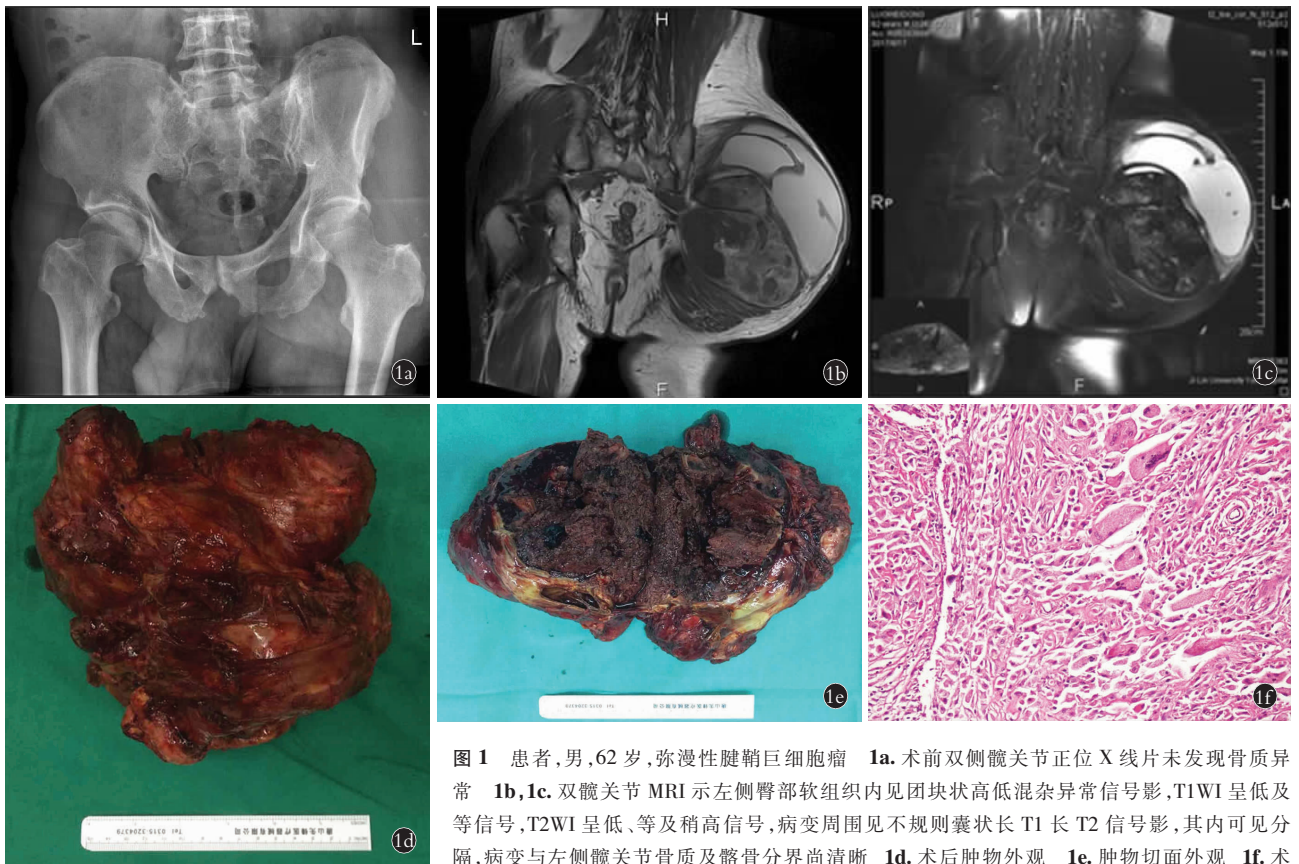


图 1 患者,男,62 岁,弥漫性腱鞘巨细胞瘤 **1a**. 术前双侧髋关节正位 X 线片未发现骨质异常 **1b,1c**. 双髋关节 MRI 示左侧臀部软组织内见团块状高低混杂异常信号影,T1WI 呈低及等信号,T2WI 呈低、等及稍高信号,病变周围见不规则囊状长 T1 长 T2 信号影,其内可见分隔,病变与左侧髋关节骨质及髌骨分界尚清晰 **1d**. 术后肿物外观 **1e**. 肿物切面外观 **1f**. 术后 HE 染色($\times 200$)可见肿瘤出血梗死及胆固醇结晶

Fig.1 A 62-year-old male patient with diffuse-type tenosynovial giant cell tumor **1a**. No abnormal bone mass was found by preoperative bilateral hip AP X-ray **1b,1c**. Bilateral hip MRI showed heterogeneous mixed signals of the soft tissue in the left gluteal region. The lesion displayed isointense and hypointense signals on T1WI, isointense and hypointense signals mixed with mild hyperintensity on T2WI. The irregular long T1 and long T2 signals were found around the lesion, and separation can be seen within the lesion. The demarcation of the iliac bone, and of the left hip joint with lesion is still clear **1d**. Appearance of the sample after operation **1e**. Appearance of the sample by sectioning **1f**. Postoperative HE staining ($\times 200$) showed hemorrhagic infarction and cholesterol crystallization of the tumor

不明,常见于 20~50 岁,女性多于男性。起源于腱鞘及滑囊的滑膜细胞,是滑膜样单个核细胞破坏样增生,组织学特性与色素沉着绒毛结节性滑膜炎相同,表现为沿肌腱向关节外生长,并累及小区域滑膜,缺乏清晰边界,呈膨胀性和浸润性生长^[3]。术前诊断困难,临床及影像学检查缺乏特异性。D-TGCT 主要累及膝、踝、髌等负重关节,肌内型肿瘤国内外仅报道了几例。肌内型肿瘤可以影响任何肌肉,但大多数位于下肢,包括臀部、大腿和小腿^[1],这与本例情况相一致。而 Yun 等^[4]报道了 1 例上肢三角肌内的 D-TGCT。尽管肌内 D-TGCT 很少见,但重要的是要知道它们可以渗透到周围软组织并具有高复发率^[2],需要完全手术切除和定期随访。

(1)鉴别诊断。PVNS:好发于膝、髌等关节,主要表现为关节肿胀和轻微疼痛,关节活动轻度受限。局部检查可触及肿胀的关节,有压痛。关节穿刺可抽出血性或棕褐色液体。X 线平片可见病变关节弥漫性

或局限性肿胀,周围可见结节阴影,后期关节间隙变窄,病变多弥漫,累及关节内外组织,与周围组织分界不清,难以手术完整切除。但本例病变孤立存在于臀大肌内,瘤体巨大,且未与关节腔相通,无骨质受累,与周围组织分界尚清,根据病变形态、位置特点以资鉴别。

滑膜肉瘤:好发于四肢,多见于大关节,也可发生于肌腱和筋膜上。滑膜肉瘤生长迅速,具有恶性肿瘤特点。早期通常表现为深部无痛性肿物,后期肿瘤逐渐增大可出现疼痛。其 X 线或 CT 有价值的影像学改变是肿瘤邻近骨质可有骨质破坏、受压骨吸收等改变,表现为邻近关节的不规则、结节状软组织肿块,病灶内可有钙化或骨化。由于肿瘤内出血,通常在 T2 WI 具有不均匀的信号强度,这点容易与本病相混淆,但滑膜肉瘤特征性 MRI 表现为团块内多可见液-液水平及软组织钙化^[5]。本例 X 线平片及核磁多表现为软组织肿块,无钙化表现。结合病史、临

床表现及影像学特点可与本病鉴别。

肌间血管瘤：骨骼肌间血管瘤是指原发于骨骼肌的血管瘤。呈浸润性生长，常局限于单块肌肉，部分患者以肿块伴有疼痛为主诉表现，最常见于四肢及躯干^[6]。其病灶位置深，侵袭范围广，临床特征不易观察。影像学检查对本病诊断意义较大，彩色超声检查可见典型肌间血管瘤内部常有蜂窝样结构或混合型回声，MRI 敏感性更高，可清晰显示肿物大小和范围。本例患者超声及血管造影提示肿块血流丰富，故容易误诊为血管瘤。而本例患者病变处血流丰富可能与肿块本身伴随出血、坏死有关。结合肿物病变位置、形态特点及影像学特点与本例病变鉴别有一定难度，以病理结果为准。

(2) 治疗方案的选择。D-GCTS 属于局部侵袭性较弱的非转移性肿瘤，大多是生长缓慢、无痛的良性肿瘤，目前首选的治疗方法是手术切除，以期最大限度保留肢体功能。本例患者虽瘤体巨大，但边界尚清，且全身骨显像及肺部 CT 排除肿瘤远处转移可能，故 I 期行左臀部肿瘤扩大切除术。肿物及切缘均送检病理，术中快速病理排除了恶性肿瘤的诊断。目前对于软组织肉瘤应该采用的阴性切缘并没有严格的定义，但有关资料表明对于局限侵袭性较弱的低度恶性肿瘤，肿瘤外 >1 cm 的阴性手术切缘或切缘含有完整的深筋膜均可达到根治效果，可以不进行术后放疗^[4]。另一项报告表明，肌内型复发率低于其他类型，因为肌内肿物较累及关节的肿物更容易完全切除^[7]。腱鞘巨细胞瘤的化学及生物学治疗效果尚不明确，缺乏临床大样本的随访数据支持。局部放疗多针对弥漫性生长的侵袭性 D-GCTS、手术无法完整切除、肿瘤累及范围较广切除后有可能复发或切除后复发的患者^[8-9]。本例术中未见明确恶性表现，臀部肿物得到完整切除，切缘 >1 cm，遂术后未辅以放疗。但由于肌内型 D-TGCT 比较罕见，远期临床结果仍然不清楚，有赖于进一步随访观察。

综上所述，D-TGCT 病因不明，主要累及膝、踝、髌等负重关节，鲜有单纯累及肌肉的报道^[10]。单纯累

及臀大肌部位的 D-TGCT，单基于影像学检查的诊断具有挑战性，其诊断主要依赖病理学检查。本病例采用左臀部肿瘤扩大切除术，考虑肿瘤局部侵袭性较弱，术后未予进一步处理。患者术后 3 个月来院复查未发现肿瘤复发的情况。

参考文献

- [1] Somerhausen NS, Fletcher CD. Diffuse-type giant cell tumor: clinicopathologic and immunohistochemical analysis of 50 cases with extraarticular disease[J]. *Am J Surg Pathol*, 2000, 24(4): 479-492.
- [2] Lucas DR. Tenosynovial giant cell tumor: case report and review[J]. *Arch Pathol Lab Med*, 2012, 136(8): 901-906.
- [3] Lee YJ, Kang Y, Jung J, et al. Intramuscular tenosynovial giant cell tumor, diffuse-type[J]. *J Pathol Transl Med*, 2016, 50(4): 306-308.
- [4] Yun SJ, Hwang SY, Jin W, et al. Intramuscular diffuse-type tenosynovial giant cell tumor of the deltoid muscle in a child[J]. *Skeletal Radiol*, 2014, 43(8): 1179-1183.
- [5] 杨文江, 夏同敬, 连业钦. 滑膜肉瘤的影像学诊断及鉴别诊断[J]. *医学影像学杂志*, 2010, 20(1): 115-118.
YANG WJ, XIA TJ, LIAN YQ. Synovial sarcoma imaging diagnosis and differential diagnosis[J]. *Yi Xue Ying Xiang Xue Za Zhi* 2010, 20(1): 115-118. Chinese.
- [6] 徐义春, 王其友, 蔡道章, 等. 肌间血管瘤的手术治疗与误诊分析[J]. *临床医学工程*, 2009, 16(10): 7-9.
XU YC, WANG QY, CAI DZ, et al. Surgical treatment and misdiagnosis of intramuscular hemangioma[J]. *Lin Chuang Yi Xue Gong Cheng*, 2009, 16(10): 7-9. Chinese.
- [7] 刘佳勇, 方志伟. 2011 版《美国综合癌症网络软组织肉瘤临床实践指南》解读[J]. *中华骨科杂志*, 2011, 31(6): 726-728.
LIU JY, FANG ZW. The interpretation of 2011 edition "American comprehensive cancer network soft tissue sarcoma clinical practice guideline"[J]. *Zhonghua Gu Ke Za Zhi*, 2011, 31(6): 726-728. Chinese.
- [8] van der Heijden L, Gibbons CL, Dijkstra PD, et al. The management of diffuse-type giant cell tumour (pigmented villonodular synovitis) and giant cell tumour of tendon sheath (nodular tenosynovitis)[J]. *J Bone Joint Surg Br*, 2012, 94(7): 882-888.
- [9] Horoschak M, Tran PT, Bachireddy D, et al. External beam radiation therapy enhances local control in pigmented villonodular synovitis[J]. *Int J Radiat Oncol Biol Phys*, 2009, 75(1): 183-187.

(收稿日期: 2017-12-05 本文编辑: 李宜)