

· 病例报告 ·

左臀部软骨样脂肪瘤 1 例

黄超¹, 郭文来¹, 尤荻², 徐洪亮³, 李红¹, 李锐¹, 朱哲¹

(1. 吉林大学第二医院手足修复与重建外科, 吉林 长春 130022; 2. 吉林大学中日联谊医院, 吉林 长春 130033; 3. 舒兰市第二人民医院, 吉林 舒兰 132602)

关键词 软骨样脂肪瘤; 病例报道; 鉴别诊断; 手术治疗

DOI: 10.3969/j.issn.1003-0034.2018.06.015

Chondroid lipoma: a case report of the left buttock HUANG Chao, GUO Wen-lai, YOU Di, XU Hong-liang, LI Hong, LI Rui, and ZHU Zhe. Department of Hand-Foot Surgery and Reparation-Reconstruction Surgery, the Second Hospital of Jilin University, Changchun 130022, Jilin, China

KEYWORDS Chondroid lipoma; Case report; Differential diagnosis; Surgical treatment

Zhongguo Gu Shang/China J Orthop Trauma, 2018, 31(6):562-564 www.zggszz.com

患者,男,56岁,因偶发左臀部肿物2周于2017年8月28日入院。患者2周前偶发左臀部肿物,1周前就诊于当地医院行彩超见:左臀部肌层探及低回声,大小30 mm×24 mm,形态规则,边界欠清,其内回声不均匀;CDFI:未见明显血流信号。为求进一步诊治,来我院治疗。既往胃溃疡史10年,9年前因上消化道出血就诊于当地医院,否认高血压、糖尿病、冠心病,否认乙肝、结核等传染病,否认药物、食物过敏史。入院查体:左臀部肌层可触及一35 mm×30 mm类圆形肿物,与表面皮肤无粘连,质韧,无波动感,无明显活动度,表面皮肤完整,按压时向膝关节周围放射性疼痛。超声见:左臀部探及86 mm×47 mm×34 mm稍强回声光团,界限欠清,形态欠规则,内部回声不均匀(图1a)。超声引导下穿刺病理见:左臀部穿刺组织内有脂肪组织,脂肪细胞分化成熟,部分区域脂肪细胞大小不一,似有脂肪母细胞,局部见软骨及骨组织,分化成熟,病变不能除外非典型脂肪瘤样肿物,伴有软骨及骨化生,建议全切后分析。MRI见:左臀大肌内一长径约70 mm的稍短T1长T2信号,压脂T2WI病变局部呈低信号,局部呈高信号(图1b),肿瘤毗邻坐骨神经(图1c)。CT见:左臀大肌可见团块状低密度影,约48 mm×28 mm,CT值约为-80 HU,其内可见结节状软组织密度影及点状高密度影。SPECT/CT见:左股骨近端区放射性浓聚影;左侧臀大肌内见椭圆形低密度影,CT值约为-86 HU,横断面最大截面面积约52 mm×28 mm,可见分隔,其内局部见不规则软组织密度级高密度改

变,最高CT值约166 HU,高密度影伴放射性摄取增强。术前诊断:左臀部肿物(性质待查)。完善检查后,腰硬联合下行肿物切除术,术中见肿物在肌肉深部,约105 mm×100 mm×40 mm,与周围组织无明显粘连,活动度尚可,完整切除。包膜完整,剥开包膜见肿物呈分叶状,黄色,质略韧(图1d)。冰冻切片见:(左臀部)送检组织内见有较多软骨组织,伴有骨化,周围纤维脂肪组织增生,细胞无明显异型性。石蜡切片见:脂肪源性肿瘤,伴有软骨及骨化生,累及横纹肌组织,未见确切的异型间质细胞及脂肪母细胞,形态考虑为肌内脂肪瘤伴有软骨及骨化生(图1e)。病理诊断考虑为软骨样脂肪瘤(chondroid lipoma, CL)。术后未给予辅助治疗,4个月随访时患者恢复良好,局部未见肿物复发和转移。

讨论

(1)流行病学特征。软骨样脂肪瘤是一种罕见的良性脂肪细胞肿瘤,最早见于1993年Meis和Enzinger^[1]的20例病例报道中,至今无大宗病例报道,诊疗缺乏统一规范。CL好发于中青年,发病年龄范围广(14~75岁),平均年龄40岁,女性多见^[2-3]。多见于四肢近端皮下、浅筋膜及深部纤维结缔组织和骨骼肌内,也可累及躯干和头颈部^[4-5]。主要表现为软组织内无痛性缓慢增长的包块,也有报道可伴随压痛^[6-9]。本例患者为中老年男性,肿物见于左臀部肌层,与既往文献一致。按压时呈现向膝关节周围电击样放射痛,考虑为肿瘤位于肌层深部,按压时刺激下方坐骨神经引起(图1c)。

(2)影像学特征。影像学检查是CL诊断的重要依据。MRI表现为“脂环征”^[4,10],即中心部分软组织在T1加权(T1W)图像上显示低信号,T2加权

通讯作者:朱哲 E-mail: zhuzhe1983@126.com
Corresponding author: ZHU Zhe E-mail: zhuzhe1983@126.com

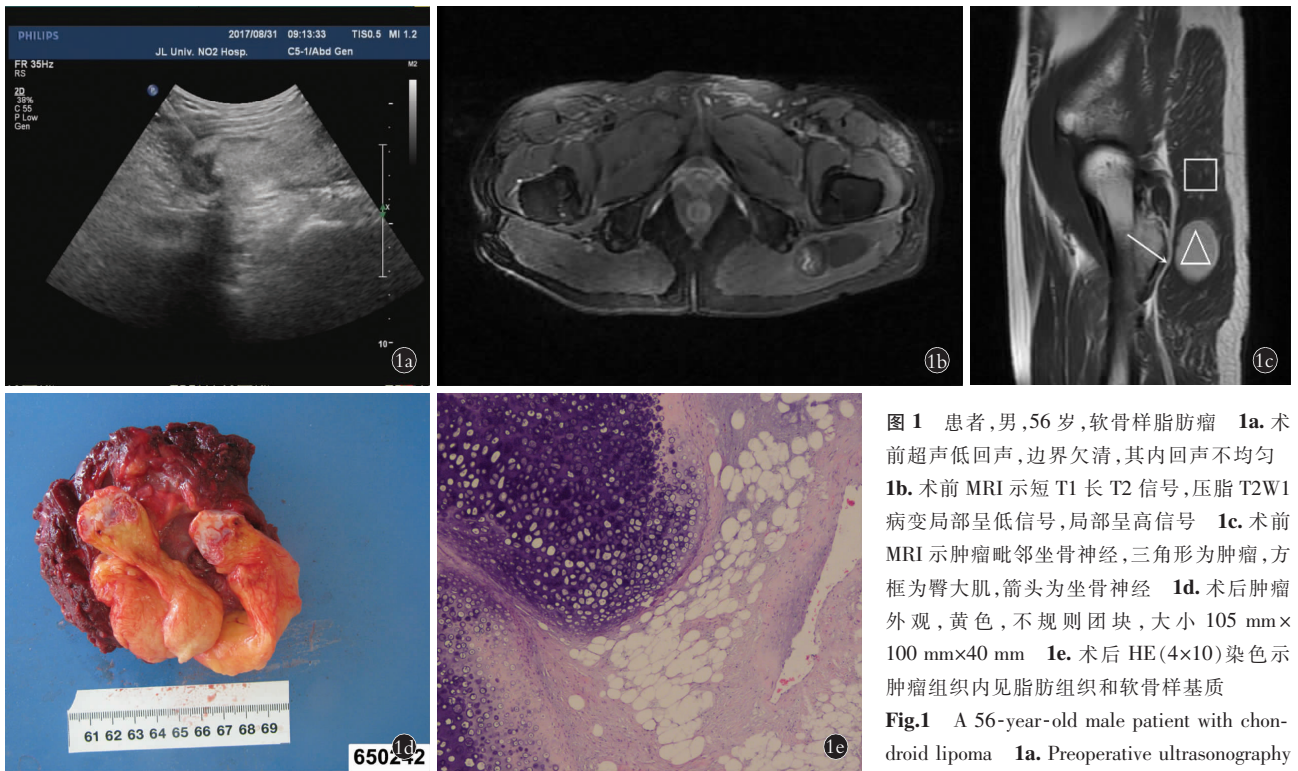


图 1 患者,男,56 岁,软骨样脂肪瘤 **1a.** 术前超声低回声,边界欠清,其内回声不均匀 **1b.** 术前 MRI 示短 T1 长 T2 信号,压脂 T2W1 病变局部呈低信号,局部呈高信号 **1c.** 术前 MRI 示肿瘤毗邻坐骨神经,三角形为肿瘤,方框为臀大肌,箭头为坐骨神经 **1d.** 术后肿瘤外观,黄色,不规则团块,大小 105 mm×100 mm×40 mm **1e.** 术后 HE(4×10)染色示肿瘤组织内见脂肪组织和软骨样基质

Fig.1 A 56-year-old male patient with chondroid lipoma **1a.** Preoperative ultrasonography showed hypoechoic with unclear boundary and uneven internal echo **1b.** Preoperative MRI showed short T1 long T2 signal, while the lipid T2W1 lesion showed low signal and high signal locally **1c.** Preoperative MRI showed tumor adjacent to sciatic nerve, triangle as tumor, box as gluteus maximus, and arrowhead as sciatic nerve **1d.** The appearance of the tumor was yellow and irregular, 105 mm×100 mm×40 mm after operation **1e.** Postoperative HE (4×10) staining showed adipose tissue and cartilage like matrix in tumor tissues

uneven internal echo **1b.** Preoperative MRI showed short T1 long T2 signal, while the lipid T2W1 lesion showed low signal and high signal locally **1c.** Preoperative MRI showed tumor adjacent to sciatic nerve, triangle as tumor, box as gluteus maximus, and arrowhead as sciatic nerve **1d.** The appearance of the tumor was yellow and irregular, 105 mm×100 mm×40 mm after operation **1e.** Postoperative HE (4×10) staining showed adipose tissue and cartilage like matrix in tumor tissues

(T2W)图像上显示高信号,后者与肌肉信号强度相当,表现为早期环形、弧形增强模式和静脉注射钆剂后的强化;肿块的周围部分脂肪组织在 T1W 和 T2W 图像上与肌肉的信号强度相比显示出高信号强度,并且在 T2W 脂肪饱和图像上显示不均匀的脂肪饱和。SPECT/CT 中 CL 表现为 18F-FDG 高亲和力^[10]。本例中 MRI 表现与报道一致,SPECT/CT 表现为 99mTc-MDP 高亲和力,与既往报道相似。既往超声在 CL 的诊断中未受到重视,本例患者超声表现为稍强回声光团,可能是因为含有软骨组织;形态欠规则,多为软骨形态不规则和分布不均所致;CDFI 未见明显血流信号,提示肿物系良性肿瘤。

(3)组织病理学特征。病理仍是诊断 CL 的金标准。光镜见大量成熟脂肪细胞,脂肪母细胞和黏液透明样软骨基质。肉眼呈包膜包裹,界清,呈分叶状,巢状,岛状和片状肿块,切面呈黄色或淡黄色,个别呈白色,珠光灰色或红棕色^[1-2]。肿块质地因上述 3 种主要成分比例不同而软硬不一。免疫组化多表现 S-100、Vimentin、KP1 和 CD68 阳性,EMA、SMA、MSA、HMB45 和 GFAP 阴性,细胞核增值指数多<1%,Ki-67 呈极低阳性率^[1-2,11-12]。本例肉眼表现和光镜所见符合 CL 诊断,未行进一步免疫组化检查。

还可通过 RT-PCR 方法检测 C11orf95-MKL2 融合基因来诊断 CL,细胞遗传学显示一致的 t(11; 16)(q13; p13) 易位,产生融合基因 C11orf95-MKL2,对于病变是特异的。C11orf95-MKL2 融合基因可以诊断该肿瘤^[13-14]。

(4)鉴别诊断。CL 因影像及病理学的特异性常需与下列恶性肿瘤进行鉴别:①骨外黏液性软骨肉瘤:多见于 30~70 岁,好发于下肢深部软组织内,表现为缓慢增大的软组织肿物,平均直径 7 cm,可伴有局部疼痛,近关节处肿物可致活动受限^[11]。瘤细胞镜下形态较为一致,核深染或呈空泡状,可见核分裂象,胞浆内少含空泡,间质为多少不等的黏液样基质,常见出血、坏死,肿瘤内多无成熟脂肪组织。免疫组化可表达 EMC 阳性^[15]。细胞遗传学具有相对特异的染色体易位 t(9;22),并导致位于 22q12 上的 EWS 基因与位于 9q22-31 上的 CHN(也称 TEC)基因产生融合,后者可通过 RT-PCR 方法检测^[10,16-17]。治疗上需要行根治性切除,术后存在反复的局部复发和转移。②黏液性脂肪肉瘤:多见于 30~50 岁,好发于下肢深部软组织内,呈无痛性界限清楚的多结节性肿物。大体呈分叶状,镜下由圆形、卵圆形和短梭形的原始间叶细胞、大小不等的印戒样脂肪母细

胞、分支状的毛细胞血管网和富含酸性黏多糖的黏液样基质组成,其血管呈特征性的“鸡爪样”,可见不同阶段的脂肪母细胞。术后常发生复发和转移,需行辅助治疗^[2]。

(5)治疗和预后。CL 治疗以手术切除为主,术后无须行辅助治疗,愈后良好,除 1 例局部复发外^[14],无明显复发和转移。本例仅给予完整切除,现随访 4 个月,功能良好,神经症状消失,局部未见肿物复发和转移。

总之,CL 是一种罕见的特殊良性脂肪细胞肿瘤,常需与骨外黏液性软骨肉瘤和黏液性脂肪肉瘤等其他脂肪和软骨肿瘤相鉴别。MRI,SPECT/CT 和病理学检查具有重要诊断意义。笔者认为辅以穿刺活检,超声也可以诊断 CL,但超声的早期诊断价值有待进一步证实。治疗以手术切除为主,术后无须辅助治疗,愈后良好。目前,CL 的诊疗仍未形成规范,有待临床工作进一步总结。

参考文献

[1] Meis JM,Enzinger FM. Chondroid lipoma. A unique tumor simulating liposarcoma and myxoid chondrosarcoma[J]. Am J Surg Pathol, 1993,17(11):1103-1112.

[2] 成元华,郭立新,杨光华,等. 软骨样脂肪瘤 1 例报道及文献复习[J]. 临床与实验病理学杂志,2006,22(4):461-464.
CHENG YH, GUO LX, YANG GH, et al. Chondroid lipoma: a case report and review[J]. Lin Chuang Yu Shi Yan Bing Li Xue Za Zhi, 2006,22(4):461-464. Chinese.

[3] 张尧,吕浩,李雪垠,等. 软骨样脂肪瘤 1 例[J]. 中国骨伤,2016,29(9):863-865.
ZHANG Y, LYU H, LI XY, et al. Chondroid lipoma: a case report [J]. Zhongguo Gu Shang/China J Orthop Trauma, 2016,29(9): 863-865. Chinese.

[4] Kapse SS,S U,Javalgi AP. Chondroid lipoma in left thigh-a rare case report[J]. J Clin Diagn Res, 2017,11(8):ED17-ED18.

[5] Alyousef M,Al Nemer A. Chondroid lipoma associated with osteoclast-like multinucleated giant cells-a case report[J]. APMIS, 2017, 125(5):506-508.

[6] Yildiz AE,Aydingöz Ü,Sökmenstier C,et al. Intramuscular chondroid lipoma:magnetic resonance imaging diagnosis by ‘fat ring sign’[J]. Balkan Med J, 2015,32(1):107-110.

[7] 陈慧,罗建国. 软骨样脂肪瘤 1 例[J]. 临床放射学杂志,2014,33(12):1958-1958.
CHEN H, LUO JG. Chondroid lipoma: a case report[J]. Lin Chuang Fang She Xue Za Zhi, 2014,33(12): 1958-1958. Chinese.

[8] 张兰凤,肖学文,叶薇,等. 软骨样脂肪瘤 1 例[J]. 临床与实验病理学杂志,2014,30(12):1437-1438.
ZHANG LF, XIAO XW, YE W. Chondroid lipoma: a case report[J]. Lin Chuang Yu Shi Yan Bing Li Xue Za Zhi, 2014,30(12): 1437-1438. Chinese.

[9] 陈雪,石怀银. 软骨样脂肪瘤 1 例[J]. 诊断病理学杂志,2012,19(1):73-73.
CHEN X, SHI HY. Chondroid lipoma : a case report[J]. Zhen Duan Bing Li Xue Za Zhi, 2012,19(1):73-73. Chinese.

[10] Escobar E,Nguyen BD,Colvin OC. PET/CT and MRI of chondroid lipoma of the deltoid muscle[J]. Clin Nucl Med, 2014,39(11): 984-987.

[11] Meis-kindblom JM,Bergh P,Gunterberg B,et al. Extraskelatal myxoid chondrosarcoma:a reappraisal of its morphologic spectrum and prognostic factors based on 117 cases[J]. Am J Surg Pathol, 1999,23(6):636-650.

[12] Antonescu CR,Argani P,Erlanson RA,et al. Skeletal and extraskelatal myxoid chondrosarcoma; a comparative clinicopathologic, ultrastructural, and molecular study[J]. Cancer, 1998,83(8): 1504-1521.

[13] Huang D,Sumegi J,Dal Cin P,et al. C11orf 95-MKL2 is the resulting fusion oncogene of t(11;16)(q13;p13) in chondroid lipoma[J]. Genes Chromosomes Cancer, 2010,49(9):810-818.

[14] Flucke U,Tops BB,de Saint Aubain Somerhausen N,et al. Presence of C11orf 95-MKL2 fusion is a consistent finding in chondroid lipomas; a study of eight cases[J]. Histopathology, 2013,62(6):925-930.

[15] Oliveira AM,Sebo TJ,McGrory JE,et al. Extraskelatal myxoid chondrosarcoma: a clinicopathologic, immunohistochemical, and ploidy analysis of 23 cases[J]. Mod Pathol, 2000,13(8):900-908.

[16] Gisselsson D,Domanski HA,Höglund M,et al. Unique cytological features and chromosome aberrations in chondroid lipoma: a case report based on fine-needle aspiration cytology, histopathology, electron microscopy, chromosome banding, and molecular cytogenetics[J]. Am J Surg Pathol, 1999,23(10):1300-1304.

[17] Ballaux F,Debiec-Rychter M,De Wever I,et al. Chondroid lipoma is characterized by t(11;16)(q13;p12-13)[J]. Virchows Arch, 2004,444(2):208-210.

(收稿日期:2018-03-01 本文编辑:李宜)