

原发性髌骨动脉瘤样骨囊肿 1 例

陈骞, 陈果, 李毓灵, 陈路

(川北医学院附属医院骨科, 四川 南充 637000)

关键词 髌骨; 骨囊肿, 动脉瘤样; 病例报告

中图分类号: R681.8

DOI: 10.3969/j.issn.1003-0034.2019.01.018

开放科学(资源服务)标识码(OSID):



A case report of primary aneurysmal bone cyst of patella CHEN Qian, CHEN Guo, LI Yu-ling, and CHEN Lu. Department of Orthopaedics, the Affiliated Hospital of North Sichuan Medical College, Nanchong 637000, Sichuan, China

KEYWORDS Patella; Bone cysts, aneurysmal; Case reports

患者,男,22岁。因左膝部隐痛4月余,于2016年11月入院。患者4个月前无明显诱因自觉左膝部疼痛,疼痛呈持续性隐痛,不伴左膝关节肿胀、功能障碍。期间患者未予重视,自行服用塞来昔布止痛,院外未特殊处理,疼痛无缓解,为求进一步治疗来我院。患者既往体健,无特殊病史。查体:左膝部未见畸形,前外侧有压痛。骨擦音及骨擦感阴性,轴向叩击痛阴性,无感觉减退,髌、膝活动未见受限,双下肢肌力无明显减退,大腿、小腿、足循环良好。术前X线片示:左髌骨可见不规则骨质密度减低区,边界较清,骨小梁稀疏,周围骨皮质变薄。左膝关节间隙未见异常,关节面骨质光滑,骨质未见异常密度影(图1a,1b),考虑骨肿瘤样病变。术前CT(图1c,1d)示左膝髌骨内可见囊状,轻度膨胀性骨质破坏,其最大层面大小约2.7cm×1.8cm,平均CT值约57HU,密度均匀,骨皮质吸收、变薄,未见骨膜反应,邻近软组织内未见异常密度影;余左膝关节各骨形态、密度未见异常。左膝关节未见积液征象,左膝周围软组织未见异常。左膝髌骨囊状骨质破坏,考虑骨囊肿可能性大。MRI(图1e,1f)示左侧髌骨内可见囊实性异常信号影,以囊性成份为主,边界交清,范围1.6cm×2.6cm×2.8cm,T1WI呈低信号,T2WI呈稍高、高信号,其内可见液-液平面,增强扫描其实性成分及分隔呈明显强化。邻近髌骨骨质信号无异常改变。余左膝关节组成骨骨质形态、信号未见异常。左膝关节对合关系良好,左膝关节腔内及髌上囊内可见少许液体信号影充填。左侧髌骨内病灶,考虑多为良性肿瘤性病变或肿瘤样病变。根据患者病史体征,结合影像学资料,术前诊断考虑为左髌骨骨肿瘤 骨囊肿?行

左髌骨骨囊肿刮除、取髌骨植骨、髌韧带重建术。全麻满意后,患者取仰卧位,常规消毒铺巾,止血带止血。取髌前入路,作横切口,逐层切开皮肤、皮下组织及筋膜,将髌韧带外侧横行切开,显露髌骨外侧,于髌骨外侧开窗1cm×2cm大小,其内为约2cm×3cm×1cm不规则空腔,有淡黄色液体流出,刮除少量纤维软组织送病检。反复刮囊腔内壁,生理盐水反复冲洗囊腔,电刀烧灼囊腔内壁,于同侧髌前作小切口,剃取部分髌骨松质骨,修剪后植入骨缺损处,彻底冲洗切口、松止血带止血,修复缝合髌韧带,逐层缝合切口,无菌敷料包扎,术毕。术后送检左髌骨病变组织考虑为动脉瘤样骨囊肿(图1g)。术后X线片(图1h,1i)示左髌骨可见斑片状骨质密度减低区,边界较清,骨小梁稀疏,局部骨质密度不均。左膝关节间隙未见异常,关节面骨质光滑,骨质未见异常密度影,左髌骨骨肿瘤术后状态。术后随访半年患者肿瘤无复发。

讨论

(1)发病机制:虽然发病机制尚不明确,但目前认为动脉瘤样骨囊肿可能是由于局部循环紊乱导致静脉压力增高产生的局部出血所致,大体标本上动脉瘤样骨囊肿为腔隙性病变,血液充满各个分隔区。病变被一薄层骨环绕,骨上有隆起的骨膜覆盖;镜下形态为被细胞基质分隔开的出血组织和多孔空间,各分隔的内膜由扁平的成纤维细胞和组织细胞组成,也可出现充满含铁血黄素的巨噬细胞、慢性炎症细胞和多核细胞^[1]。发生于髌骨的骨肿瘤是少见的,原发于髌骨的骨肿瘤仅占到所有骨肿瘤的0.12%^[1]。发生于髌骨的动脉瘤样骨囊肿是罕见的,可分为原发性和继发性2种,继发性动脉瘤样骨囊肿常继发于如骨巨细胞瘤、成软骨细胞瘤、成骨细胞瘤、血管瘤等预先存在的骨病变或创伤之后。约30%

通讯作者:陈路 E-mail:564488106@qq.com

Corresponding author:CHEN Lu E-mail:564488106@qq.com



图 1 患者,男,22 岁,左髌骨动脉瘤样骨囊肿 1a,1b. 术前 X 线片示左髌骨可见不规则骨质密度减低区,边界较清,骨小梁稀疏,周围骨皮质变薄 1c,1d. 术前 CT 示左膝髌骨内可见囊状、轻度膨胀性骨质破坏 1e,1f. 术前 MRI 示左侧髌骨内可见囊实性异常信号影,以囊性成伤为主,边界较清;T1WI 呈低信号,T2WI 呈稍高、高信号,其内可见液-液平面 1g. 病理活检组织示动脉瘤样骨囊肿(HE×200) 1h,1i. 术后 1 周 X 线片示左髌骨植骨状态 1j. 术后 6 个月 CT 示肿瘤无复发,植骨融合可

Fig.1 Male, 22 years old, aneurysmal bone cyst of left patella 1a,1b. Preoperative X-ray showed irregular bone descending densification area with border clear, bony trabeculae was sparse, and around cortical turned thinning 1c,1d. Preoperative CT of left patella showed cystic, mild swelling of bone destruction 1e,1f. Preoperative MRI of left patella showed cystic abnormal signal and mainly was cystic, and border was clear; T1WI signal was low, T2WI expressed slightly higher, high signal, which could be seen liquid-liquid level 1g. Results of biopsy showed aneurysmal bone cyst (HE×200) 1h,1i. Postoperative X-ray of left patella at 1 week showed bone graft of patella 1j. Postoperative CT of left patella at 6 months showed no recurrence of tumor, and bone graft fusion was well

~50%的动脉瘤样骨囊肿均为继发性改变^[2],出现在原发性骨损伤和反应性骨生长中的血管便易导致血液动力学的改变,被认为与这种继发改变有着密切关系^[2]。此外,肿瘤组织的染色体变异也被认为与该疾病的发生有着密切关系^[2]。在继发性动脉瘤样骨囊肿中骨巨细胞瘤是最常见的原发骨病变。

(2)临床表现及诊断:髌骨动脉瘤样骨囊肿的患者大多有一个长期的膝关节疼痛病史,部分患者就诊时伴有膝关节肿胀或功能障碍,轻微的股四头肌萎缩也被发现于部分患者。髌骨动脉瘤样骨囊肿被意外发现大都是因为疾病在进展过程中出现的并发症所致,尤其是髌骨病理性骨折。X线检查可见髌骨膨胀性溶骨性改变,骨皮质变薄,如肥皂泡样,当疾病逐渐进展,可观察到钙化斑点的出现。CT对于病灶内部及周边结构以及病变范围的显示比X线更清楚,可以更清楚地显示一个骨皮质的不连续。CT可见髌骨内的多囊性、膨胀性骨质破坏,骨壳完整,形态光滑或呈波浪状^[1]。对于该疾病的诊断,MRI是极为重要的影像学评估手段。在MRI图像上动脉瘤样骨囊肿表现出一个膨胀性、多分隔囊性的改变。同时也能对囊腔内的液液平面进行识别,并对原发性或继发性进行区分。MRI对于动脉瘤样骨囊肿的诊断更多是依赖血红蛋白退变的阶段在T1、T2上表现出不同的信号强度来完成的,通常囊内的液体在T2表现出高信号,而在T1序列表现为低信号。T2序列通常能更好地显示液体内容和平面,在T1能更好地对骨皮质进行评估。尽管影像学检查尤其是MRI液液平面的出现为疾病的诊断提供了帮助,但对疾病最终做出明确的诊断现今仍依赖组织的病理学检查。毛细血管扩张性骨肉瘤其影像学特征包括MRI与动脉瘤骨囊肿极其相似容易误诊。除此之外,髌骨中较常见的骨巨细胞瘤和成软骨细胞瘤也是容易误诊的疾病,需加以警惕^[3]。本例患者X线片及CT表现与单纯性骨囊肿极为相似,很难鉴别;尽管患者MRI检查显示骨质破坏区出现液液平面为疾病的诊断提供了影像学支持,但因髌骨动脉瘤样骨囊肿极为少见,单纯性骨囊肿也可在骨质破坏区出现液液平面,导致该例疾病在初步诊断上出现了偏差。翻阅文献并结合本例患者,MRI出现的液液平面及病变内的分隔常提示动脉瘤样骨囊肿,单纯性骨囊肿内无纤维间隔。

(3)治疗方式:动脉瘤样骨囊肿的治疗方式取决

于囊肿的阶段,通常都采取肿瘤刮除加植骨的手术方式^[4]。目前也有极少数自愈或在取活组织检查术后发生自愈的病例报道^[5]。如果手术治疗将导致巨大的创伤,单次或多次选择性的血管栓塞术被推荐用于此时的治疗^[3]。尽管髌骨切除术在早期的文献中被推荐使用^[1],但目前已不建议在尝试髌骨重建之前被直接使用^[4]。石炭酸和冷冻疗法等辅助治疗手段的使用可减少囊肿的复发,但同时增加了髌骨的坏死情况^[3]。囊肿刮除加松质骨植骨的手术方式常可获得一个极好的治疗结果。目前尚未有髌骨骨囊肿刮除、植骨治疗后复发或转移的文献报道。不过,已有关于发生于其他部位的动脉瘤样骨囊肿术后复发的报道^[3]。研究发现年龄、性别、囊肿位置及细胞成分在复发中起着重要作用^[5]。术后复发是动脉瘤样骨囊肿最主要的并发症,因此需密切注意复发的发生。本例患者也采取了肿瘤刮出、松质骨植骨的治疗方式。随访半年未见肿瘤复发、转移。

(4)本例体会:本例患者因X线片和CT都考虑单纯性骨囊肿,由于缺乏相关的诊治经验,忽略了MRI出现的分隔现象,术前诊断上更倾向于单纯性骨囊肿。术后复发是该疾病最主要的并发症,笔者采取了肿瘤刮除、自体松质骨植骨的治疗方式,目前随访半年无肿瘤复发。为了减少术后复发率,也有推荐肿瘤扩大刮除、骨移植替代物植骨(或骨水泥填充)治疗。通过该病例,在临床工作中要对已出现的临床症状及影像学特征多加思考,不容忽视,才能提高疾病的术前诊断率,从而采取恰当的手术方案来治疗本病。

参考文献

- [1] Plaikner M, Gruber H, Henninger B, et al. Pathological fracture of the patella due to an atypical located aneurysmal bone cyst: verification by means of ultrasound-guided biopsy[J]. Arch Orthop Trauma Surg, 2016, 136(3): 315-319.
- [2] 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 (Phila Pa 1976), 2011, 36(21): 1385-1390.
- [3] Hao Y, Wang L, Yan M, et al. Soft tissue aneurysmal bone cyst in a 10-year-old girl[J]. Oncol Lett, 2012, 3(3): 545-548.
- [4] Louaste J, Amhajji L, Chkoura M, et al. Patellar pathologic fracture secondary to aneurysmal bone cyst. A case report[J]. Rev Chir Orthop Reparatrice Appar Mot, 2008, 94(6): 599-603.
- [5] Docquier PL, Delloye C, Galant C. Histology can be predictive of the clinical course of a primary aneurysmal bone cyst[J]. Arch Orthop Trauma Surg, 2010, 130(4): 481-487.

(收稿日期:2018-05-10 本文编辑:李宜)