

肾壮骨中药,可促进骨痂的生长,加速骨折的愈合。而本组病例不外用中药,是考虑不需要经常解开夹板换药,从而尽量减少因松开外固定夹板而发生骨折再次移位的机会和避免外用药物对皮肤有可能造成的瘙痒、水疱等局部的过敏反应。

**4.4 早期功能锻炼的意义** 早期练习足趾活动及肌肉收缩可促进局部血液循环,然后做踝关节的背伸、跖屈运动可使关节面早期模造,并防止粘连和僵硬。即便是骨折不能达解剖对位,关节面有些不平,通过其早期练功、关节模造亦可达到恢复功能的目的。这亦是本组病例中有些病例骨折断端对位不是很理想,但后期关节功能恢复较好,从而优良率较高的缘故。禁止做内、外翻动作是避免关节的损伤和骨折断端重新发生错位。

总之,以手法复位加夹板固定为主的非手术综合疗法治疗踝部骨折、脱位疗效独特,因操作简便、损伤小,是一种比较理想的治疗方法,值得临床推广使用。

#### 参考文献

- [1] Mazur JM, Schwartz E, Simon SR. Ankle arthrodesis. Long term follow-up with gait analysis[J]. J Bone Joint Surg Am, 1979, 61(7): 964-975.
- [2] 林希龙,何伟,王岩峰,等. 踝关节骨折的手术及康复治疗[J]. 中国矫形外科杂志, 2006, 14(6): 419-421.  
Lin XL, He W, Wang YF, et al. Surgical treatment of ankle joint fracture and rehabilitation[J]. Zhongguo Jiao Xing Wai Ke Za Zhi, 2006, 14(6): 419-421. Chinese.
- [3] 刘英民,朱志强,刘钰,等. 踝关节骨折的手术治疗[J]. 中国骨伤, 2007, 20(2): 80-81.  
Liu YM, Zhu ZQ, Liu Y, et al. Operative treatment for fracture of ankle[J]. Zhongguo Gu Shang/China J Orthop Trauma, 2007, 20(2): 80-81. Chinese.
- [4] 孙志斌,郭荣江,朱云海,等. 踝关节骨折脱位的治疗分析[J]. 中国骨伤, 2006, 19(3): 184.  
Sun ZB, Guo RJ, Zhu YH, et al. Study on the treatment of fracture and dislocation of ankle joint[J]. Zhongguo Gu Shang/China J Orthop Trauma, 2006, 19(3): 184. Chinese.

(收稿日期: 2011-06-29 本文编辑: 连智华)

## · 病例报告 ·

### 肩关节外型色素绒毛结节性滑膜炎 1 例

李传波, 杨晨, 冯卫, 杨长生, 张伟

(吉林大学白求恩第一医院骨科, 吉林 长春 130021)

**关键词** 滑膜炎, 色素绒毛结节性; 肩关节; 病例报告

**DOI:** 10.3969/j.issn.1003-0034.2012.01.018

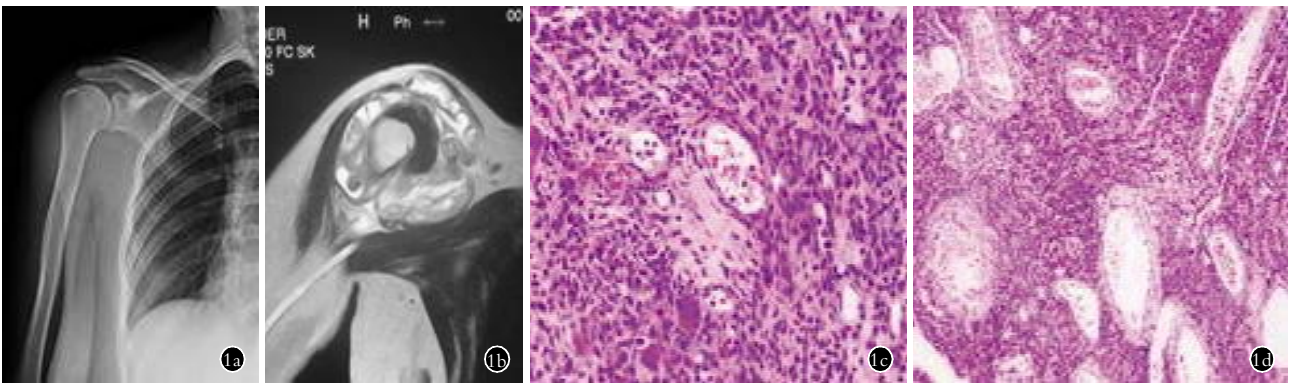
**Extra-articular pigmented villonodular synovitis of the shoulder joint; a case report** Li Chuan-bo, YANG Chen, FENG Wei, YANG Chang-sheng, ZHANG Wei. Department of Orthopaedics, the First Bethune Hospital of Jilin University, Changchun 130021, Jilin, China

**KEYWORDS** Synovitis, pigmented villonodular; Shoulder joint; Case reports

Zhongguo Gu Shang/China J Orthop Trauma, 2012, 25(1): 65-67 www.zggszz.com

患者,女,42岁,因右肩部酸痛1年余,发现肩部肿物半个月于2010年7月28日入院。自诉无明显诱因出现右肩部酸痛感,并伴有右上肢肌力下降,劳累后加重,休息后可缓解,未经系统诊治。半月前换衣服时发现右肩部较对侧肿大,于当地县医院行X线检查,骨质未见异常(图1),怀疑为“滑液囊肿”,建议行关节穿刺,患者不同意,后就诊于其他医院,行关节穿刺活检,回报为“炎性改变,未见肿瘤细胞”。并在该院给予抗炎(头孢米诺钠 3.0g 加 0.9%氯化钠注射液 100ml,每日2次静脉滴注)对症治疗1周,肿物未见缩小,肩关节疼痛、活动受限症状未见好转,遂来我院就诊。入院查体:右肩关节前方可见皮肤隆起,肩关节前方可触及一大小约 8cm×6cm 弹

性肿物,表面光滑,质地较软,压痛不明显,肿物与皮肤或其他组织似乎相连。右肩关节活动范围:前屈 70°,后伸 40°,外展 80°,内收 30°,外展上举 90°,内旋 90°,外旋 50°。右侧各手指运动正常,末梢循环良好,余肢体未见异常。MRI 检查:右肩关节胸侧面软组织内见 6.5cm×8.5cm 类圆形混杂信号,内缘较清,其内可见多个囊性结构,抑水像长 T2 信号明显减低(图2),右侧肱骨头内可见片状长 T1 长 T2 信号。患者于 2010 年 7 月 29 日在全麻下行右肩关节肿物切除活检术,术中见:肿物位于肩关节囊前外方,包膜完整,色黄,表面少量色素沉着,与周围组织无粘连。取部分肿物做快速病理,术中病理结果回报:色素绒毛结节性滑膜炎,良性。随扩大切口将肩关节囊前方肿物完整切除,切除肿物约 9cm×5cm×3.5cm。术中探查发现肩关节囊于喙肩韧带之间有一约 5cm×5cm×2cm



**图 1** 女性患者, 42 岁, 右肩关节外型色素绒毛结节性滑膜炎 **1a.**右肩关节正位 X 线片, 未见骨质破坏和骨膜反应 **1b.**MRI 提示类圆形混杂信号, 内缘较清, 其内可见多个囊性结构, 抑水像长 T2 信号明显减低 **1c.**在光镜下(HE×40)病理切片上可以看出: 滑膜充血水肿, 绒毛状, 在正常细胞间含有吞噬含铁血黄素的巨噬细胞 **1d.**增生细胞吞噬了类脂质成为泡沫状细胞, 散在或成团出现, 偶见增生的细胞融合成多核巨细胞

**Fig. 1** A 42 year-old female patient with extra-articular pigmented villonodular synovitis of the right shoulder joint **1a.**On the right shoulder plain film, no cortical bone destruction and periosteal reaction was found **1b.** MRI showed mixed signals, which looked like a circle, the inner of circle was clear. The structure of multiple sac can be seen in it, suppression long T2 signal of which significantly decrease **1c.**Pathological slide showed the synovialis was hyperemic and hydropic with villous, macrophages devoured hemosiderin among normal cells **1d.** Some hyperemic cells devoured the lipid to become foam cells, scattered or clouds appear, occasionally, hydropic cells fusion into multinucleated giant cells

肿物, 黄褐色, 覆有包膜, 将肿物完整切除。切除肿物一并送做病理。术后病理: 肉眼所见滑膜弥漫性增厚, 呈棕黄色或铁锈色, 表面有大量各种形态的绒毛和结节, 切面可呈海绵样; 镜下所见滑膜组织增生肥厚充血, 部分呈绒毛状及乳头状增生, 毛细血管丰富及含铁血黄素沉着(图 3), 有些增生细胞吞噬了类脂质成为泡沫状细胞, 可散在或成团出现, 偶见增生的细胞融合成多核巨细胞(图 4)。病理诊断为右肩关节外型色素绒毛结节性滑膜炎(腱鞘巨细胞瘤, 弥漫型)。

**讨论**

色素绒毛结节性滑膜炎的定义、发病情况及分型: 色素绒毛结节性滑膜炎(pigmented villonodular synovitis, PVNS)是一种侵袭关节、黏液滑囊和腱鞘组织的良性增生性伴色素沉着性病变。本病为一种少见的关节疾患, Myers 等<sup>[1]</sup>报道本病的发病率约为 0.0018%, 好发部位多见于负重而易受伤的下肢关节, 如膝、髋关节, 而发病在上肢尤其是发生在肩关节则罕见, 国内外仅有少量报道。根据其病理形态可分为弥漫绒毛型和局限结节型两种。组织侵袭可发生于滑囊和腱鞘, 分别称为色素沉着绒毛结节性滑囊炎和局限性结节性腱鞘炎。Oppenkowski 等<sup>[2]</sup>将其分为 3 种类型: 局限型 PVNS(L-PVNS)、弥漫型 PVNS(D-PVNS)和 PVTS, PVTS 也称为腱鞘巨细胞瘤(GCTTS)。而发生于关节腔以外的腔隙实为罕见, 极易引起误诊。该病起病较为隐匿, 常以关节的轻微肿胀起始, 继而可有疼痛、运动障碍、以致关节强直为特点, 关节肿胀到强直常需数年时间<sup>[3]</sup>。上述本例的特点即为肩关节外型, 此型病变对关节囊及关节面破坏小。

病理及影像学诊断: 本病的病理改变, 则表现为绒毛表面为增生的滑膜细胞, 绒毛中心是高度扩张的毛细血管和少数纤维细胞, 其结节为密集成堆的滑膜细胞。国内学者<sup>[4]</sup>认为在滑膜细胞中间必须夹杂有吞噬含铁血黄素的多核细胞和吞噬类脂质的泡沫细胞, 才能作出本病的诊断。在国外也把活组织病理学检查作为诊断 PVNS 的金标准。

影像学检查包括 X 线、CT、高频超声(US)及 MRI 扫描。因 X 线及高频超声检查不能对病变部位内部结构清晰显像,

敏感性及检出率较低, 缺乏早期诊断价值, 但在有骨质侵袭及破坏的晚期病例中 X 线检查又可能成为一种必要的首选检查。CT 检查能显像关节囊内结节样或团块样组织影, 可以与对侧正常关节作出比较, 虽不能明确病变的性质, 但行 CT 引导下软组织穿刺活检可以作为重要的临床综合检测手段, 国外有文献报道尤其对于本病的诊断具有创伤小、准确率高的优势<sup>[5]</sup>。李律宇等<sup>[6]</sup>认为 MRI 具有很高的软组织分辨率及可任意方向成像的能力, 因而具有很高的早期无创诊断价值。MRI 表现为关节滑膜广泛弥漫性不规则增厚并有结节状、绒毛状增生, 在 T1WI 上呈等低信号, T2WI 上呈等高信号; 由于顺磁性的含铁血黄素可引起病变组织 T2 弛豫时间明显缩短, 导致病变在 T1WI、T2WI 上均为明显的低信号, 增生的滑膜组织内可见 T1WI 和 T2WI 均为低信号的含铁血黄素沉着, 故 Barile 等<sup>[7]</sup>也认为是诊断 PVNS 的可靠依据。

手术及术后放射治疗: 本病的治疗以彻底切除病变滑膜组织为主<sup>[8]</sup>, 但是 Berger 等<sup>[9]</sup>报道复发率有时可高达 56%。对于因各种原因难以彻底切除及术后多次复发或具有再复发高危因素的病例, 术后宜辅以放射治疗, 可以减少复发。随着关节镜的普及应用, 目前众多学者开始探讨应用关节镜治疗弥漫型 PVNS, 弥漫型 PVNS 常累及关节外, 关节外病变的处理将影响最终疗效。因此, 关节镜下滑膜全切除术适于关节内病变, 对于关节外病变, 则需结合必要的切开手术切除, 才能确保手术疗效。关节外和关节内病变有可能相互影响, 早期治疗关节内疾患有可能避免关节外疾患的发生, 减少手术难度和复发的可能性<sup>[10]</sup>。但如果病变组织侵蚀关节软骨面形成赘肉样粘连时应将受累骨质一并切除, 并行关节成形术以保留关节功能。华贤章等<sup>[11]</sup>认为由于该病不会自愈, 以防病程长破坏骨关节, 应手术彻底切除。手术中还应注意将潜行于肌腱及韧带间的结节肿块、绒毛伪足或蒂清除彻底, 以防复发。Martin 等<sup>[12]</sup>认为如骨质蚕蚀严重, 必要时可行人工关节置换术。虽然手术行滑膜切除越彻底越好, 但是需要考虑的是, 一旦行全关节滑膜切除术, 病灶复发和继发性骨性关节炎是术后的两大主要并发症, 所以滑膜彻底切除的远期疗效还有待进一步评

价。

立体定向放疗是现在多数学者及放射医师所认可的,它是经 CT 定位,由电子计算机设计治疗计划的一种新兴放疗方式。第四军医大学将普通放疗和立体定向放疗的优劣加以对比研究,结果显示采用立体定向放疗治疗后患者的肢体活动明显较普通常规放疗后的患者灵便,肌肉僵硬程度也较轻。原因在于可在治疗中避开大血管及神经等重要部位,最大程度的减少了放疗后对患侧肢体活动及循环造成的影响。国外多篇文献报道<sup>[13-16]</sup>也多推崇立体定向放疗的治疗效果,认为此种定位放疗技术是一种行之有效的术后辅助治疗手段,对于初发和复发患者绝大多数都能得到局部较好的控制和满意的治疗。

远期转归及未来研究方向:PVNS 一般不会恶变,但是 Breimer 等<sup>[17]</sup>报告过因多次手术复发而恶性变的病例,近些年非常罕见的恶性退变也有报道<sup>[18-19]</sup>。但由于该病的发病率较低,随机化研究显然是不可行的,因此一种标准化的治疗策略还有待于进一步明确制定。今后的研究方向:弥漫型 PVNS 复发相关因素、PVNS 侵袭性的发病原理以及该疾病一级预防和基因治疗的前瞻性研究<sup>[20]</sup>。以使广大医务工作者对该病的诊断和治疗有一个全面深入的了解,更好的指导临床工作。

#### 参考文献

- [1] Myers BW, Masi AT. Pigmented villonodular synovitis and tenosynovitis; a clinical epidemiologic study of 166 cases and literature review[J]. *Medicine (Baltimore)*, 1980, 59(3): 223-238.
- [2] Oppenkowski R, Seegenschmiedt MH. Pigmented villonodular synovitis. In: Seegenschmiedt MH, Makoski HB, Trott K-R, Brady LW, editors. *Radiotherapy for non-malignant disorders. Contemporary concepts and clinical results* [M]. Berlin Heidelberg, New York: Springer, 2008: 383-395.
- [3] Bessette PR, Cooley PA, Johnson RP, et al. Gadolinium-enhanced MRI of pigmented villonodular synovitis of the knee[J]. *J Comput Assist Tomogr*, 1992, 16(6): 992-994.
- [4] 陆裕朴, 胥少汀, 葛宝丰, 等. 实用骨科学[M]. 北京: 人民军医出版社, 1998: 1516-1519.  
Lu YP, Xu ST, Ge BF, et al. *Orthopaedics and Traumatology* [M]. Beijing: People's Military Medical Press, 1998: 1516-1519. Chinese.
- [5] Lin J, Jacobson JA, Jamadar DA, et al. Pigmented villonodular synovitis and related lesions; the spectrum of imaging findings[J]. *AJR Am J Roentgenol*, 1999, 172(1): 191-197.
- [6] 李律宇, 郭磊, 张俊, 等. 膝关节色素沉着绒毛结节性滑膜炎的早中期诊治[J]. *中国骨伤*, 2007, 20(1): 772-773.  
Li LY, Guo L, Zhang J, et al. Diagnosis and treatment of pigmented villonodular synovitis of knee joint in early metaphase[J]. *Zhongguo Gu Shang/China J Orthop Trauma*, 2007, 20(1): 772-773. Chinese.
- [7] Barile A, Sabatini M, Iannesi F, et al. Pigmented villonodular synovitis (PVNS) of the knee joint; magnetic resonance imaging (MRI) using standard and dynamic paramagnetic contrast media. Report of 52 cases surgically and histologically controlled[J]. *Radiol Med*, 2004, 107(4): 356-366.
- [8] Zvijac JE, Lau AC, Hechtman KS, et al. Arthroscopic treatment of pigmented villonodular synovitis of the knee[J]. *Arthroscopy* 1999, 15(6): 613-617.
- [9] Berger B, Ganswindt U, Bamberg M, et al. External beam radiotherapy as postoperative treatment of diffuse pigmented villonodular synovitis[J]. *Int J Radiat Oncol Biol Phys*, 2007, 67(4): 1130-1134.
- [10] 赵金钟. 膝关节弥漫性色素沉着绒毛结节性滑膜炎的关节镜治疗[J]. *中华骨科杂志*, 2004, 24(3): 162-166.  
Zhao JZ. The arthroscopic treatment of diffuse-type pigmented villonodular synovitis of the Knee[J]. *Zhonghua Gu Ke Za Zhi*, 2004, 24(3): 162-166. Chinese.
- [11] 华贤章, 周维才. 踝关节色素沉着绒毛结节性滑膜炎 5 例[J]. *中国骨伤*, 2010, 23(12): 957-958.  
Hua XZ, Zhou WC. Pigmented villonodular synovitis of ankle joint; a report of 5 cases[J]. *Zhongguo Gu Shang/China J Orthop Trauma*, 2010, 23(12): 957-958. Chinese.
- [12] Martin RC 2nd, Osborne DL, Edwards MJ, et al. Giant cell tumor of tendon sheath, tenosynovial giant cell tumor, and pigmented villonodular synovitis; defining the presentation, surgical therapy and recurrence[J]. *Oncol Rep*, 2000, 7(2): 413-419.
- [13] Kat S, Kutz R, Elbracht T, et al. Radiosynovectomy in pigmented villonodular synovitis[J]. *Nuklearmedizin*, 2000, 39(7): 209-213.
- [14] Shabat S, Kollender Y, Merimsky O, et al. The use of surgery and yttrium 90 in the management of extensive and diffuse pigmented villonodular synovitis of large joints[J]. *Rheumatology (Oxford)*, 2002, 41(10): 1113-1118.
- [15] Kresnik E, Mikosch P, Gallowitsch HJ, et al. Clinical outcome of radiosynoviorthesis; a meta-analysis including 2 190 treated joints [J]. *Nucl Med Commun*, 2002, 23(7): 683-688.
- [16] Ward WG Sr, Boles CA, Ball JD, et al. Diffuse pigmented villonodular synovitis; preliminary results with intralesional resection and p32 synoviorthesis[J]. *Clin Orthop Relat Res*, 2007, 454: 186-191.
- [17] Breimer CW, Freiburger RH. Bone lesions associated with villonodular synovitis[J]. *Am J Roentgenol Radium Ther Nucl Med*, 1958, 79(4): 618-629.
- [18] Bertoni F, Unni KK, Beabout JW, et al. Malignant giant cell tumor of the tendon sheaths and Joints (malignant PVS)[J]. *Am J Surg Pathol*, 1997, 21(2): 153-163.
- [19] Kalil RK, Unni KK. Malignancy in pigmented villonodular synovitis[J]. *Skeletal Radiol*, 1998, 27(7): 392-395.
- [20] Himanshu Sharma, M.J. Jane, R. Reid. Pigmented villonodular synovitis; diagnostic pitfalls and management strategy[J]. *Current Orthopaedics*, 2005, 19: 215-222.

(收稿日期: 2010-08-11 本文编辑: 王宏)