

关节镜手术治疗小儿骨骺动脉瘤样骨囊肿 1 例

辛大森 高书明* 程 才 孙洪江 王 路

(沧州市中心医院骨一科, 沧州 061000)

文献标识: D 文章编号: 1009-6604(2020)05-0478-03

doi: 10.3969/j.issn.1009-6604.2020.05.025

动脉瘤样骨囊肿(aneurysmal bone cyst, ABC)是一种良性肿瘤样病变,好发于长骨的干骺端,发生于小儿胫骨近端骨骺内者较少见。我科 2016 年 5 月收治 1 例小儿胫骨近端骨骺内 ABC,采用关节镜手术治疗,取得了良好效果,现报道如下。

1 临床资料

男,12 岁,学生。入院前 7 个月跑步时左膝扭伤后出现左膝关节疼痛,当时未就诊,症状一直未消失。入院前 1 周无明显诱因出现症状加重,左膝伸直位疼痛加重,屈曲后可缓解,逐渐出现患肢跛行。膝关节 MRI 示左胫骨近端骨骺内异常信号,门诊查体后以“左胫骨近端肿物”收入我科。入院查体:左胫骨近端压痛,局部无皮肤破溃及出血,局部皮温无明显升高,左膝关节伸直位疼痛不适,左膝侧方应力试验阴性,左膝抽屈试验阴性,左膝半月板研磨试验阴性,双侧足背动脉可触及搏动,双侧生理反射正常存在,双侧病理征均未引出。左膝关节 X 线:左胫骨骨骺处可见一膨胀性密度减低影,骨皮质变薄,其内密度不均,且见少量骨嵴(图 1A)。左膝关节 CT:左胫骨近端骨骺内可见不规则膨胀生长软组织肿物影,边界清晰周围骨质变薄,边缘可见多发骨嵴,测量肿瘤大小 5 cm × 5 cm × 3 cm(图 1B、C)。左膝关节 MRI:左胫骨近端骨骺内异常信号伴周围骨髓水肿,软骨源性肿瘤不排除,半月板及前后叉韧带未见明显异常(图 1D)。CT 引导下局部穿刺活检病理:左胫骨骨骺 ABC(图 2A)。术前诊断:左胫骨骨骺内 ABC。

完善术前检查,排除手术禁忌后,关节镜下行左胫骨近端骨骺内 ABC 刮除+高频电刀囊壁灭活+同种异体骨植骨术。仰卧位,椎管内麻醉。左下肢术区常规消毒铺巾,于胫骨近端前内侧做一长约

1.5 cm 切口,切开皮肤至骨质,选择肿物行开窗术,克氏针围绕开窗处钻孔,窄骨刀行骨皮质开窗,大小约 1.5 cm × 1.5 cm。置入膝关节镜,打开光源及摄像,探查病灶见胫骨内少许纤维样囊壁组织,囊腔内可见囊腔分隔,充满血液。在关节镜监视下,关节镜刨刀将视野范围内全部囊腔肿瘤组织刨除干净并吸引排出,用大小不等的刮勺在关节镜可视下深度清理囊壁,特别是刮除囊壁骨性分隔内残留的肿瘤组织。关节镜探查见囊腔及囊壁各角落内肿瘤组织已全部刮除,病灶清理干净,无残留,最后用 90°关节镜高频电刀头灭活囊腔壁,大量生理盐水冲洗关节腔,将同种异体骨(松质骨小块,北京鑫康辰医学科技发展有限公司)打压植入囊腔内,开窗骨皮质回植,缝合关节镜入路,加压包扎(图 3)。术后将刮除的囊腔、囊壁肿瘤组织送病理,诊断:ABC(图 2B)。术后第 3 个月、1 和 3 年复查 X 线片,左胫骨骨囊肿缺损填充良好(图 4),患者正常生活,行走无异常,无复发。

2 讨论

ABC 是一种由血液填充的多房性囊腔组成的具有破坏性、膨胀性的良性病变,1942 年首次报道^[1],好发于青少年,10~20 岁多见,30 岁以上者少见,女性略多于男性。ABC 好发于长骨干骺端,也可侵及骨干、扁骨、短管状骨、脊柱^[2]。本例发生于小儿未闭合的胫骨骨骺内,比较罕见。

ABC 可以分为原发性和继发性,继发性 ABC 约占有 ABC 的 1/3,多继发于骨肿瘤性病变,如单纯骨囊肿、巨骨细胞瘤、成软骨细胞瘤等。原发性 ABC 发病机制尚不清楚,与局部创伤有关^[3]。本例患者发病前有局部外伤史,不能排除此外伤因素导致,也从一定程度上支持此种假说的可能。ABC 与

* 通讯作者, E-mail: keyandaren@sina.com

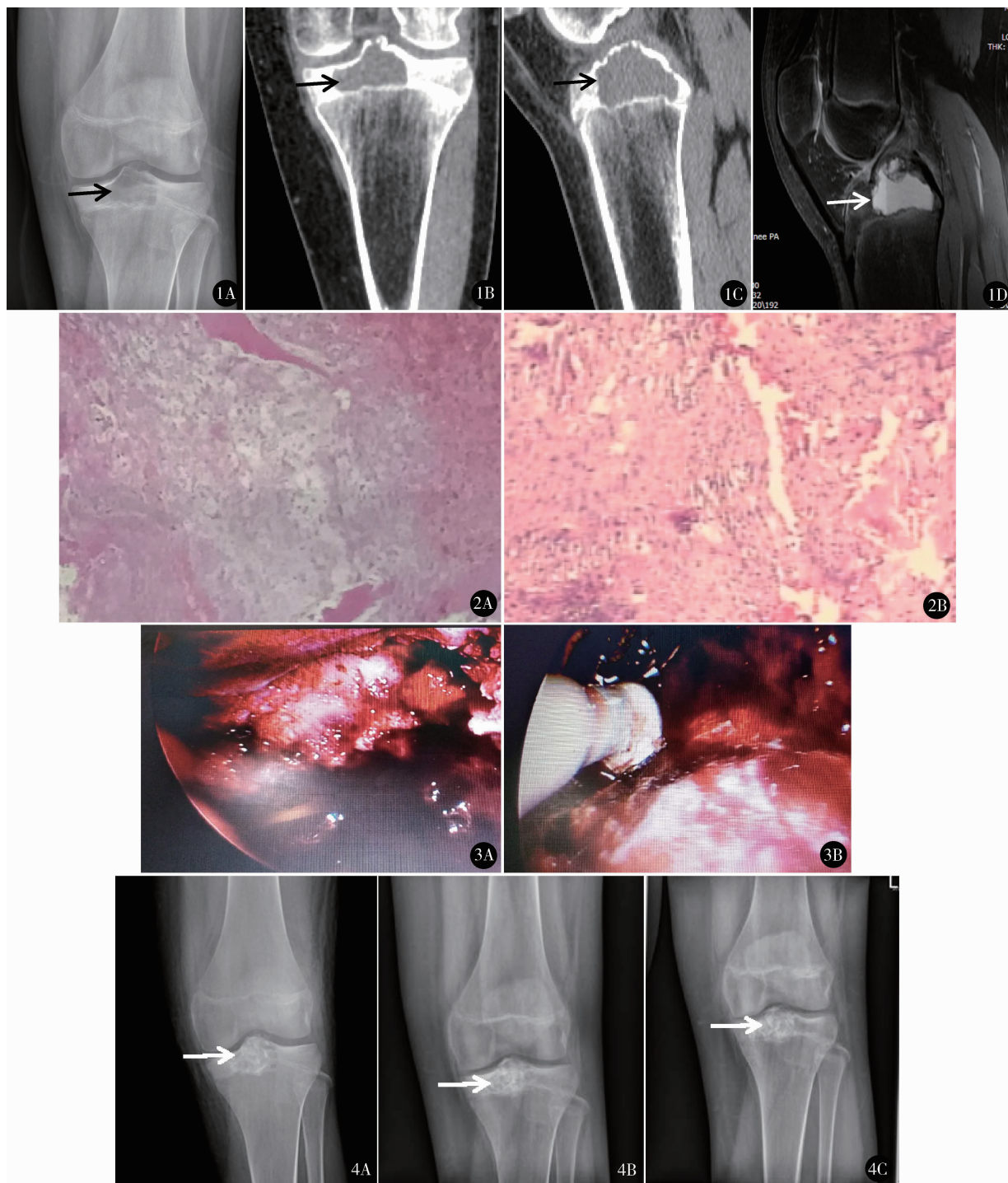


图 1 A. 左膝关节 X 线:左胫骨骨髓处可见一膨胀性密度减低影,骨皮质变薄,其内密度不均,且见少量骨嵴;B、C. 左膝关节 CT:左胫骨近端骨髓内可见不规则膨胀生长的软组织肿物影,边界清晰,周围骨质变薄,边缘可见多发骨嵴;D. 左膝关节 MRI:左胫骨近端骨髓内异常信号伴周围骨髓水肿,软骨源性肿瘤不排除,半月板及前后叉韧带未见明显异常 图 2 显微镜下见肉芽组织样病变,呈海绵状的小囊腔内可见高度扩张的毛细血管及骨质硬化灶 A. 术前穿刺活检病理诊断:左胫骨骨髓 ABC(HE 染色 $\times 100$);B. 术后病理诊断:左胫骨骨髓 ABC(HE 染色 $\times 100$) 图 3 A. 关节镜下见胫骨内少许纤维样囊壁组织,囊腔内可见囊肿分隔,充满血液;B. 在关节镜监视下,分别使用关节镜刨刀、刮勺、关节镜直角高频电刀处理病灶 图 4 A. 术后 3 个月患肢 X 线检查,左胫骨骨髓缺损填充良好;B. 术后 1 年患肢 X 线示病灶植骨区基本愈合,植骨区无骨质吸收,胫骨平台无塌陷;C. 术后 3 年患肢 X 线示病灶植骨区愈合良好,原病灶及周围骨质无异常,肿瘤无复发

遗传因素相关, Oliveira 等^[4]报道原发性 ABC 存在染色体 17q13 上 USP6 (泛素特异性蛋白酶) 基因平衡异位, 目前发现的异位伙伴基因包括 CDH11、ZNF9、COL1A1、TRAP150 和 CMD, 染色体重排使 USP6 基因的编码区与上述伙伴基因高度活跃的启动子区结合, 参与疾病的发生和发展。目前, 比较普遍的观点认为 ABC 并不是一类肿瘤样病变, 而是一种反应性血管畸形引起的病变, 当病灶局部血栓或动静脉瘘或其他血管畸形导致局部静脉压增高, 静脉窦扩张导致受累部位骨质吸收并继发出血, 导致 ABC 形成^[5], 本例术中见病灶内充满血液, 甚至有涌出迹象, 从而也支持了这种观点。

ABC 术前诊断较为困难, 影像表现多不典型, 术前往往容易误诊, 多需要结合临床、影像学、病理, 组织病理检查仍是临床诊断的金标准。X 线平片显示病变膨胀性生长的“吹气球”征的整体图像, 尤其是显示四肢长管状骨骼变薄的骨皮质、骨质硬化边等征象。CT 可显示病变内部的纤维性或骨性间隔, 当病变以囊液成分为主时, 可见液-液平面征象。MRI 可多序列、多参数、多方位显示 ABC 病变的结构、范围, 观察病变周围软组织的成分和结构; T2WI 信号不均匀, 以海绵状或多囊状液性信号为主, 尤其可直观显示液-液平面中的分层征象^[6]。病理检查: 送检破碎组织大多呈肉芽组织样, 可见一些呈海绵状的小囊腔, 常见骨质硬化灶; 肿块切除标本切面见髓腔破坏, 并代之以大小不等相互沟通的血腔隙, 内含暗红不凝血液, 内壁光滑, 囊腔间组织灰白或棕红色, 质实而硬, 囊腔外常有一薄层骨壳包绕; 显微镜下见大小不等的腔隙, 大多无内皮细胞被覆, 囊腔间隔含较多高度扩张的毛细血管及管壁增厚的中小静脉及小动脉, 部分小动脉与囊腔相通, 并有动静脉迂曲现象^[7]。

ABC 外科治疗方式主要采用病灶刮除植骨术或病灶整体切除^[8], 辅助治疗方式包括液氮冷冻、氩气刀凝固、高温灭活、高速磨钻等物理方法和酒精、碘酒、苯酚、石碳酸等化学方法, 对于手术难以显露的病变部位, 如坐骨及髌臼等, 可以激素注入治疗^[9], 但术后复发率较高, 达 10% ~ 20%。囊腔内容物去除不彻底等因素和复发密切相关^[10]。本例 ABC 发生在小儿胫骨未闭合的骨髓内, 且病灶逼近骺板及前后叉韧带止点骨质, 传统开大骨窗盲探刮除手术极易损伤这些重要结构, 影响患儿发育及破坏膝关节稳定性, 盲探刮除病灶极易造成病灶残留, 增加术后复发率, 给患儿带来灾难性后果。

关节镜手术在关节外疾病的治疗方面显示出其独特的优点^[11]。本例行关节镜下左胫骨骨髓内 ABC 刮除 + 高频电刀囊壁灭活 + 异体骨植骨, 为临床治疗小儿骨髓内 ABC 提供一种新的治疗思路。手术治疗的优点在于通过关节镜的观察, 可以清楚显示囊肿内病灶, 防止病灶清理过程中遗漏, 降低术后复发率。另外, 本例 ABC 发生在未闭合的骨髓内, 关节镜的使用最大程度避免胫骨开大骨窗、前后叉韧带止点骨质的破坏及骨髓损伤的可能, 最大程度不干扰患儿患肢的生长发育潜力, 关节镜下使用 90° 关节镜高频电刀头对腔壁整体灭活显示其优越性, 降低本病的复发率。

本例术后 3 个月和 1、3 年随访, 无复发, X 线显示植骨填充愈合良好, 术后 3 个月患者可以下地负重行走, 患肢功能良好, 充分证明本手术方式的可行性。

参考文献

- 1 Liu K, Guo C, Guo R, et al. A giant aneurismal bone cyst in the mandibular condyle. *J Craniofac Surg*, 2017, 28(2): e148 - e151.
- 2 Radulescu R, Badila A, Manolescu R, et al. Aneurysmal bone cyst: clinical and morphological aspects. *Rom J Morphol Embryol*, 2014, 55(3): 977 - 981.
- 3 Sawin PD, Muhonen MG, Sato Y, et al. Aneurysmal bone cyst of the temporal bone presenting as hearing loss in a child. *In J Pediatr Otorhinolaryngol*, 1995, 33(3): 275 - 284.
- 4 Oliveira AM, Perez-Atayde AR, Inwards CY, et al. USP6 and CDH11 oncogenes identify the neoplastic cell in primary aneurysmal bone cysts and are absent in so-called secondary aneurysmal bone cysts. *Am J Pathol*, 2004, 165(5): 1773 - 1780.
- 5 Cottalorda J, Bourelle S. Modern concepts of primary aneurysmal bone cyst. *Arch Orthop Trauma Surg*, 2007, 127(2): 105 - 114.
- 6 张元隆, 郑师兴, 梅文忠, 等. 颅内动脉瘤样骨囊肿一例并文献复习. *中华小儿外科杂志*, 2018, 39(1): 23 - 26.
- 7 张品南. 小儿动脉瘤样骨囊肿 25 例临床病理研究. *中华小儿外科杂志*, 1995, 16(5): 292 - 293.
- 8 Mascard E, Gomez-Brouchet A, Lambot K. Bone cysts: unicameral and aneurysmal bone cyst. *Orthop Traumatol Surg Res*, 2015, 101(1): 119 - 127.
- 9 杨 劼, 张建立, 郭 源. 儿童动脉瘤样骨囊肿的激素注入与病灶刮除并植骨手术效果比较. *中华小儿外科杂志*, 2013, 34(5): 353 - 356.
- 10 唐佩福, 王 岩, 卢世璧, 主译. 坎贝尔骨科手术学. 第 13 版. 北京: 北京大学医学出版社, 2018. 862 - 863.
- 11 刘 畅, 张海森, 李龙杰, 等. 关节镜下清理结合微骨折术治疗慢性顽固性跟腱止点炎. *中华骨科杂志*, 2017, 37(17): 1106 - 1110.

(收稿日期: 2020 - 03 - 19)

(修回日期: 2020 - 03 - 30)

(责任编辑: 李贺琼)