

跖骨骨母细胞瘤 1 例报告并文献复习

董辉 刘宏君 王永祥 武文杰 顾加祥

DOI: 10.3969/j.issn.1673-7083.2020.06.014

骨母细胞瘤是一种少见的特殊类型肿瘤,约占骨肿瘤总数的1%^[1-2]。过去对这种肿瘤冠以良性,但它具有侵袭性,可呈进行性增大,甚至可发生恶变^[2]。骨母细胞瘤发病部位约半数位于脊柱^[3],发生于跖骨的骨母细胞瘤报道极少。本文回顾了江苏省苏北人民医院就诊的1例病理诊断为右足第1跖骨骨母细胞瘤患者的临床资料,并结合国内外文献分析讨论,以提高对跖骨骨母细胞瘤临床诊治的能力。

1 临床资料

患者女性,23岁,因右足第1跖趾关节肿胀9个月、疼痛4个月余入院。患者9个月前自感右足第1跖趾关节肿胀,4个月前出现疼痛,皮温高,皮肤色红,活动轻度受限,后至外院就诊,X线片提示右足诸骨未见明显外伤表现,遂予以保守治疗。来我院就诊前1个月症状加重,复查X线片提示右足第1跖骨骨性病变,性质待定。为进一步治疗来我院门诊就诊,门诊以“右足下肢局部肿胀、肿物和肿块(骨肿瘤)”收住院。

既往史:15年前行右前臂肿物切除术,否认其余外伤手术病史。入院查体:右足第1跖骨远端明显肿胀,可触及肿块,大小约4 cm×3 cm,压痛,皮肤色红,皮温高,感觉减退,活动轻度受限,血运正常。

术前CT检查提示右足第1跖骨中远段肿块,骨质呈地图样破坏,周围骨膜普遍增生、钙化,可见骨膜Codman三角征及针状、斑片状肿瘤骨,肿块范围约33 mm×36 mm,周围软组织肿胀(图1)。术前MRI检查提示右足第1跖骨中远段内类圆形肿块影,呈长T1、长T2信号影,压脂像呈高信号,内见多发流空信号影,邻近骨质伴斑片状压脂高信号影,邻近关节腔积液(下页图2)。实验室检查:血清碱性磷酸酶(AKP)138 U/L(正常为35~100 U/L),补体C1q 257 mg/L(正常为159~233 mg/L)。局麻下行右足肿瘤切开活检术,病理检查镜下见少量增生的卵圆形细胞,可见核仁,核分裂像偶见,细胞质粉染,灶区见多核巨细胞,灶区出血,似有囊壁样结构,并见较多骨样组织,病理诊断为成骨性肿瘤,考虑为骨母细胞瘤(下页图3)。



图1 术前右足矢状面(a)、冠状面(b)及横断面(c)CT影像,红色箭头指向病变骨组织

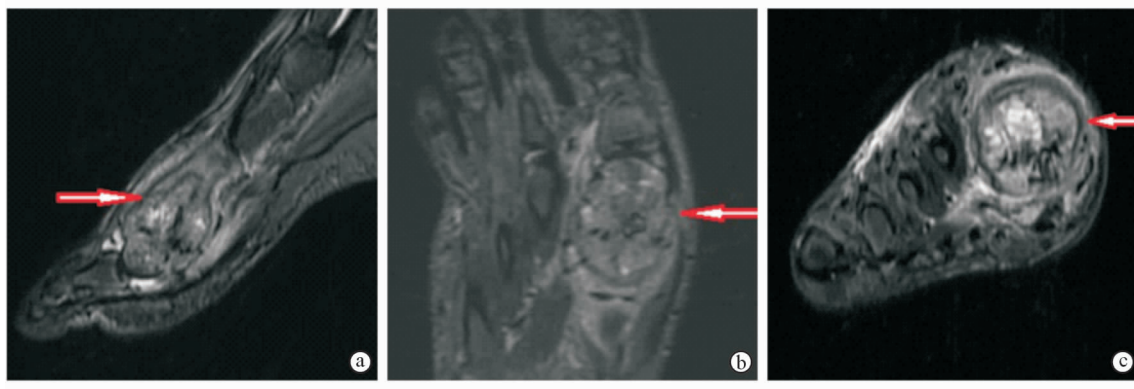


图 2 术前右足矢状面(a)、冠状面(b)及横断面(c)MRI 影像,红色箭头指向病变骨组织

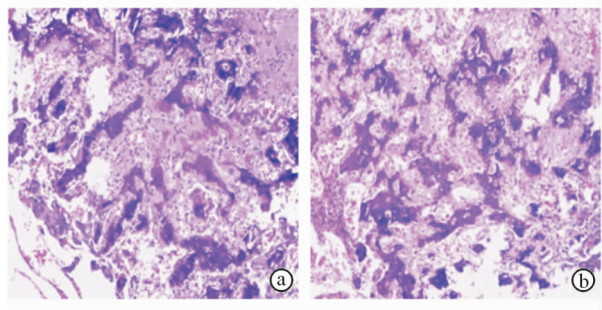


图 3 活检术组织切片组织学观察(HE 染色, ×100)

全身麻醉下行右足第 1 跖骨骨肿瘤切除联合骨重建术,即骨刀切取 5 cm×2 cm×2 cm 的髂骨块,右足第 1 跖骨内、背侧做长约 12.0 cm 的纵行切口,牵开软组织显露第 1 跖骨,术中见第 1 跖骨远端明显膨大、骨皮质变薄、色暗红,内、跖侧骨缺损,术中第 1 跖骨近侧正常骨处骨刀截骨,第 1 跖趾关节处离断行骨肿瘤完整切除,电刀切除周围可疑软组织及活检道,将髂骨块修整后桥接于第 1 跖骨骨缺损处,用 6 枚螺钉固定重建接骨锁定板,骨端间隙处松质骨植骨,透视见第 1 跖骨内固定在位,对位可。检查无活动性出血、清点纱布及器械无误后,逐层缝合关节囊、皮下及皮肤,无菌敷料包扎。手术顺利,麻醉满意,术中出血少,术后患者安返病房,标本送病理检查(图 4)。病理检查镜下见增生的骨母细胞及多量的骨样组织,肿瘤性骨小梁成熟程度不一,小梁间有纤维血管间质,周围出现反应性硬化骨,诊断为骨母细胞瘤,四周切缘及骨断端切缘未见瘤组织(图 5)。

术后 6 个月复查 X 线片提示右足第 1 跖骨内固定在位,对位可(图 6)。查体示右足背胫侧陈旧性手术瘢痕,无红肿、渗出,无压痛,活动轻微受限,可拄拐行走约 1 km,余肢体正常。嘱患者继续规律康复锻炼,定期随访,如有不适手足外科随诊。

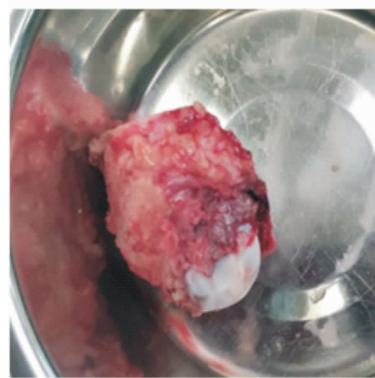


图 4 骨肿瘤标本

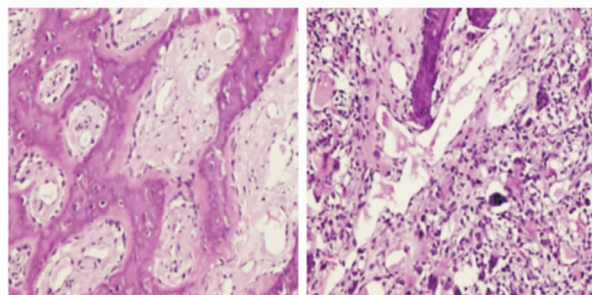


图 5 骨肿瘤标本组织切片组织学观察(HE 染色, ×100)



图 6 术后 6 个月复查正斜位 X 线片,提示右足第 1 跖骨内固定在位,对位可,骨皮质欠光整,骨质密度欠均匀

2 讨论

骨母细胞瘤是指起源于成骨细胞,产生骨样组织和编织骨的肿瘤,直径一般大于 2 cm^[1],男女发病比例约为 2 : 1,80% 的患者年龄小于 30 岁,25

岁左右为发病高峰^[4]。

骨母细胞瘤病因不明,可能与病毒感染或血管异常有关。早期症状为局部疼痛、放射痛、肌肉痉挛、肢体麻木等,夜间疼痛多不加剧,但对阿司匹林反应不敏感,若累及脊柱可出现相应脊柱平面的神经症状^[5]。

骨母细胞瘤患者实验室检查基本正常,少数病例红细胞沉降率(ESR)增快,脑脊液(CSF)变化不大;若肿瘤转变为恶性,血清 AKP 将升高。X 线检查表现为边界清楚、范围大小不等的骨质破坏,并有不同程度的骨化,边缘骨质膨胀变薄^[6]。CT 检查表现主要特点为膨胀性软组织密度骨破坏,厚薄不一的高密度硬化缘和不同程度的钙化和骨化^[7]。MRI 检查表现为无钙化骨化病灶,T1WI 为中等信号,T2WI 为高信号;病灶发生钙化或骨化后,T1WI 和 T2WI 均可出现斑点状、索条状、团块状或不规则形低信号区^[8]。病理表现为瘤组织中有大量的骨母细胞、骨样组织和血管纤维组织,特征表现为在疏松的骨样组织和丰富的血管基质中存在大量骨母细胞和不同程度钙化^[9]。

临床诊断应结合临床症状、影像学表现、实验室检查、病理结果等综合判断。同时也应与下列疾病相鉴别。①骨样骨瘤:是一种可治的良性成骨性肿瘤,好发年龄为 11~20 岁,临床症状多为局部疼痛,夜间加剧,服用阿司匹林可使疼痛缓解为本病特点;通常由直径小于 1 cm 的瘤巢及其周围的反应性增生骨质构成,故其影像学表现多具特征性,X 线检查常表现为瘤巢位于病变中心,瘤巢内发生钙化或骨化,形成“牛眼征”^[10]。②动脉瘤样骨囊肿:常位于长骨干骺端和骨干或脊柱后部,其症状为局部疼痛肿胀,患处功能障碍;囊肿可闻及杂音,局部穿刺有硬壳感,很易抽出不凝固的血液,其内容物为充满血液的囊腔血窦,以纤维组织为间隔,其中有多核巨细胞聚积,并有骨化;X 线检查表现为多囊性骨质破坏,或呈远心性“气球样”膨出^[11];CT 及 MRI 检查可见液平^[12]。③骨肉瘤:是最常见的骨恶性肿瘤,大多数发病年龄为 10~25 岁,病变常发生于四肢长骨(胫骨上端或股骨下端);常表现为患病部位静息痛、夜间痛,局部可出现肿胀,疼痛部位可触及肿块,伴明显压痛及发热、不适、体重下降等全身症状,还常伴随肺转移^[13];X 线检查是病变的初步筛选手段,主要表现为骨髓腔内不规则骨破坏和骨增生;CT 检查表现为松质骨的斑片状缺损^[14];属于结缔

组织性肉瘤,其发展过程中可形成大量肿瘤性骨样组织及骨组织^[15]。

骨母细胞瘤治疗原则为以手术治疗为主,可行病灶刮除或扩大切除术,经手术切除后预后良好,很少复发,但应警惕肺转移和恶变的可能性^[16]。如果骨母细胞瘤复发或恶变,可以考虑辅助放疗^[3]。有研究报道,相对于普通 X 线放疗,碳离子放疗具有 2~3 倍的细胞杀伤效果,尤其适用于耐 X 线肿瘤^[17]。而 Marcove 等^[18]主张在手术切除肿瘤后行液氮冷冻处理,消灭残留肿瘤细胞,使肿瘤组织坏死,从而达到扩大切除或边界切除的目的。近年来随着微创技术的发展,CT 引导下经皮射频消融术(RFA)已成为骨母细胞瘤治疗新手段,其简单安全、创伤小、恢复快并能减少相关术后并发症^[19]。Beyer 等^[20]进行的一项多中心研究显示,RFA 技术成功率超过 94%,无严重并发症,术后疼痛评分下降,证明 RFA 技术安全、有效。

参考文献

- [1] Biazzo A, Armiraglio E, Parafioriti A, et al. Periosteal osteoblastoma of the distal fibula with atypical radiological features: a case report[J]. Acta Biomed, 2018, 89(2): 269-273.
- [2] Sam DM, Kumar SP, Varma B, et al. Benign osteoblastoma of the palate: a rare clinical presentation[J]. Oral Radiol, 2020, 36(1): 107-111.
- [3] Pontual ML, Pontual AA, Gempel RG, et al. Aggressive multilocularosteoblastoma in the mandible: a rare and difficult case to diagnose[J]. Braz Dent J, 2014, 25(5): 451-456.
- [4] Lucas DR, Unni KK, McLeod RA, et al. Osteoblastoma: clinicopathologic study of 306 cases[J]. Hum Pathol, 1994, 25(2): 117-134.
- [5] Barlow E, Davies AM, Cool WP, et al. Osteoid osteoma and osteoblastoma: novel histological and immunohistochemical observations as evidence for a single entity[J]. J Clin Pathol, 2013, 66(9): 768-774.
- [6] Sherazi Z, Saifuddin A, Shaikh MI, et al. Unusual imaging findings in association with spinal osteoblastoma[J]. Clin Radiol, 1996, 51(9): 644-648.
- [7] Berquist TH. Magnetic resonance imaging of primary skeletal neoplasms[J]. Radiol Clin North Am, 1993, 31(2): 411-424.
- [8] Syklawer R, Osborn RE, Kerber CW, et al. Magnetic resonance imaging of vertebral osteoblastoma: a report of two cases[J]. Surg Neurol, 1990, 34(6): 421-426.
- [9] 李亦民, 丁彦青. 骨母细胞瘤临床病理学研究[J]. 中华骨科杂志, 1997, 17(12): 757-759.

[10] 张贤良. 浅谈骨肿瘤的临床病理诊断[J]. 中华骨科杂志, 2000, 20(Z1): 18.

[11] Weber M, Hillmann A. Bone cysts-differential diagnosis and therapeutic approach[J]. Orthopade, 2018, 47(7):607-618.

[12] Bazzocchi A, Spinnato P, Mercatelli D, et al. Fluid-fluid levels in aneurysmal bone cysts[J]. J Pediatr, 2019, 204: 317.

[13] Ek ET, Ojaimi J, Kitagawa Y, et al. Outcome of patients with osteosarcoma over 40 years of age: is angiogenesis a marker of survival?[J]. Int Semin Surg Oncol, 2006, 3: 7.

[14] Luo Z, Chen W, Shen X, et al. CT and MRI features of calvarium and skull base osteosarcoma (CSBO) [J]. Br J Radiol, 2020, 93(1105): 20190653.

[15] Unni KK, Dahlin DC, McLeod RA, et al. Intraosseous well-differentiated osteosarcoma[J]. Cancer, 1977, 40(3): 1337-1347.

[16] Vade A, Wilbur A, Pudlowski R, et al. Case report 566: osteoblastoma of sacrum with secondary aneurysmal bone cyst[J]. Skeletal Radiol, 1989, 18(6): 475-480.

[17] Oike T, Niimi A, Okonogi N, et al. Visualization of complex DNA double-strand breaks in a tumor treated with carbon ion radiotherapy[J]. Sci Rep, 2016, 6:22275.

[18] Marcove RC, Sheth DS, Brien EW, et al. Conservative surgery for giant cell tumors of the sacrum. The role of cryosurgery as a supplement to curettage and partial excision [J]. Cancer, 1994, 74(4): 1253-1260.

[19] 刘小康, 徐建广. 脊柱骨母细胞瘤诊断和治疗进展[J]. 国际骨科学杂志, 2011, 32(6): 375-376.

[20] Beyer T, van Rijswijk CS, Villagrán JM, et al. European multicentre study on technical success and long-term clinical outcome of radiofrequency ablation for the treatment of spinal osteoid osteomas and osteoblastomas [J]. Neuroradiology, 2019, 61(8): 935-942.

(收稿 2020-07-17)

(本文编辑:卢千语)

《国际骨科学杂志》投稿、邮购

《国际骨科学杂志》创刊于 1964 年,是国家级医学学术类期刊,入编中国科技核心期刊(中国科技论文统计源期刊)、中国学术期刊统计源期刊、中国期刊全文数据库收录期刊等,由国家卫计委、上海市卫计委主管,上海市医学科学技术情报研究所主办。

《国际骨科学杂志》以广大骨科及相关临床医师、教学人员和研究人员为读者对象,贯彻理论与实践、普及与提高相结合的办刊宗旨,主要介绍国内外骨科领域的临床和基础研究的新理论、新方法、新技术和新成果。栏目设置包括综述、论著、专题报告、学术争鸣、专利介绍、病例报告、新技术新概念、国外来访者报告及信息报道等。目前本刊的 5 年影响因子为 1.052(《中国期刊引证研究报告·2014 年版》),居“国际医学系列期刊”前茅。欢迎广大作者投送稿件!来稿若符合录用标准,均可在 6 个月内发表。

投稿通道: 官方网站 <http://gjgkx.paperopen.com> 注册后投稿或发送电子邮件至 intjorthop@163.com。同时需将打印稿 2 份、作者单位推荐(介绍)信、作者简介(出生年月、学位、技术职称、研究方向、联系手机号码)等邮寄至上海市建国西路 602 号《国际骨科学杂志》编辑部,邮编 200031。来稿需标明是否为省部级以上基金资助项目并注明编号,以便优先审稿。

本刊历史悠久、内容翔实、可读性强,深受广大骨外科及相关学科临床医生、教研人员的欢迎和好评。本刊为双月刊,大 16 开本,每单月 25 日出版。邮局发行代号:4-268 (定价:12.00 元,全年 72.00 元)。编辑部全年接受个人邮购,免收邮费。

投稿、邮购联系电话:021-33262069(直线)