

自体血浸润异体骨植骨 治疗小儿骨骺动脉瘤样骨囊肿 1 例

朱含威 张颖

(成都中医药大学 四川 成都 610075)

【摘要】动脉瘤性骨囊肿是罕见的良性骨病变。症状是非特异性的。损伤后，相关水肿可引发疼痛和邻近结构的并发症。放射学表现通常是特征性的，但必须通过活检确诊，并且必须对其他肿瘤进行鉴别诊断。长骨的治疗以刮除术为基础，并用骨替代材料补充。我们描述了一名 10 岁的女性患者患有动脉瘤性骨囊肿，该报告自体血浸润异体骨植骨治疗小儿骨骺动脉瘤样骨囊肿包括治疗后的临床表现、影像学检查结果和结局。该病例强调了使用自体血浸润异体骨，加速成骨和融合，效果良好。

【关键词】动脉瘤样骨囊肿；自体血浸润；植骨

Allogeneic bone graft infiltrated with autologous blood for treatment of epiphyseal aneurysmal bone cyst in children: a case report

Hanwei Zhu Ying Zhang

(Chengdu University of TCM, Chengdu, Sichuan, 610075)

[Abstract] Aneurysmal bone cyst is a rare benign bone lesion. The symptoms are non-specific. After injury, associated edema may cause pain and complications of adjacent structures. Radiological findings are usually characteristic, but must be confirmed by biopsy, and other tumors must be differentiated. The treatment of long bones was based on curettage and supplemented with bone replacement materials. We describe a 10-year-old female patient with aneurysmal bone cysts. We report the clinical findings, imaging findings, and outcomes of the treatment of pediatric epiphyseal aneurysmal bone cysts with autoblood-infused allogeneic bone graft. This case highlights the good effect of using autologous blood to infiltrate allogeneic bone to accelerate osteogenesis and fusion.

[Key words] Aneurysmal bone cyst; Autogenous blood infiltration; Bone graft

1 病情介绍

患儿陈某某，女，10岁，因“发现右小腿包块6+月”入院，入院前院外平片提示：骨囊肿。症见：右下肢无明显疼痛麻木等不适，轻压痛，膝关节活动度正常，行走及休息时均无疼痛。查体：右侧小腿前内侧可见一2cm*4cm凸起包块，右下肢肌力正常。右胫骨近端压痛，局部无皮肤破溃及出血，局部皮温无明显升高，右膝侧方应力试验阴性，左膝抽屉试验阴性，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。完善心电图/三大常规等均未见明显异常。

2 完善辅助检查

可见右胫骨 DR 及 CT 提示：右侧胫骨干骺端内侧呈偏心型骨质破坏，呈囊性结构，边界清晰，未见明显浸润性改变。右胫腓骨 MRI 提示：右侧胫骨上段干骺端内侧呈偏心性囊性骨质破坏、局部呈显膨隆，病变内多呈多房性改变、其内大部分呈长 T1，长 T2 信

号影、部分其间可见短 T2 信号液液平面影，较大范围大小约 4.4*4.3*6.0cm，上部分菌伞状疝入骨骺区，外缘皮质未见明显终端改变，周围软组织内未见明显信号影。

3 局麻下穿刺活检提示

未见肿瘤细胞，动脉瘤样骨囊肿。完善相关检查，排除手术禁忌症，行右胫骨近端 ABC 刮除 + 高频电刀囊壁灭活 + 同种异体骨植骨术。仰卧位，全身麻醉插管后，常规消毒铺巾，取右下肢近端纵行约 5cm 切口，切开皮肤到骨质，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 2cm*2cm。探及少许囊壁组织，探查病灶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。特别是刮除囊壁骨性分隔内残留的肿瘤组织，病灶清理干净，无残留，高频电刀头灭活囊腔壁，生理盐水大量冲洗，将同种异体骨裁剪成松质骨小块，山西奥瑞生物材料有限公司），巡回护士从左侧股静脉穿刺抽吸约 20ml

静脉血,充分浸润异物骨,打压植入囊腔内,回植开窗骨皮质,缝合切口,加压包扎。将刮出组织继续送检。

4 术后常规预防

感染、消肿、补液、预防应激性溃疡等治疗,术后查体右下肢伤口处敷料包扎可,松紧适度,无渗出,愈合良好。术后1周,1月,患者正常活动,未见复发,植入骨充分与自身骨融合。

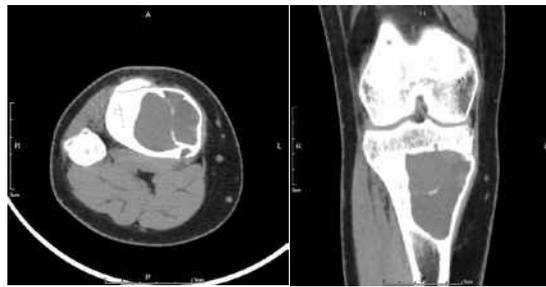
5 讨论

原发动脉瘤样骨囊肿(aneurysmal bone cyst, ABC)最早由Jaffe^[1]于1942年提出是一类临床罕见的骨的良性病变,好发于青少年的长骨干骺端,影像学表现为多囊性、膨胀性的溶骨改变^[2]这些骨病变是良性的,通常与疼痛、肿胀或膨胀性肿块的存在有关。在约70%的病例中,abc被认为是原发病变,其余30%继发于不同的原发肿瘤。关于abc的性质存在很多争论。最近,遗传已被牵连到ABC的病因学,导致一些人相信ABC是一个真正的肿瘤而不是一个反应过程。在一项组织病理学研究中,Oliveira^[3]等报道了52例原发性abc中36例(69%)的基因重排定位于t(16;17),其中泛素特异性蛋白酶6致癌基因置于高活性钙粘蛋白-11启动子的调节影响下。他们在17例继发性ABC中没有发现这种易位。作者得出结论,这些发现证实了一个真正的肿瘤病因。其他研究表明,上调泛素特异性蛋白酶6可能通过激活活化B细胞的核因子 κ -轻链增强子诱导基质金属蛋白酶的产生,最终导致肿瘤的发生。Leithner^[4]等报道了19例ABC标本的免疫组化和原位杂交结果。他们发现胰岛素样生长因子-i或编码该生长因子的mRNA主要定位在所有标本的多核巨细胞中。在正常的人体骨组织中发现不显著的表达水平。这些发现支持了遗传因素可能在原发性ABC的发展中起重要作用的理论。Dabska and Buraczew-Ski^[5]是最早对ABC的病理生理学和自然史作出评论的人之一。他们将其进展分为四个阶段,初始阶段描述为骨边缘部分的骨溶解和骨膜的离散抬高。生长阶段的特征是骨骼的逐渐破坏。在此阶段,病变的分界较差;骨壳和骨分隔在x线平片上可能不明显。稳定期由典型的ABC表现来定义:膨胀性病变,有明显的骨壳和骨分隔。放射学检查往往是诊断ABC的首要方法,原发性ABC的X线片影像学特点为长骨干骺端的偏心性、溶骨性病灶,病灶呈膨胀性、吹气球样,也可见到部分代表矿化的软骨样物质呈絮状的实性部分。病灶周围包绕有骨膜化骨形成的薄骨

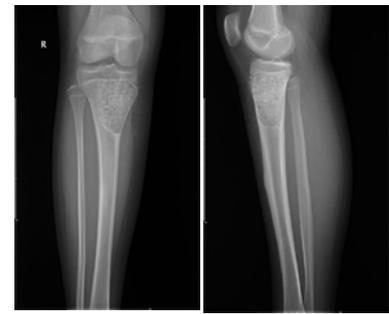
壳,病灶常呈分房状,皮质受侵变薄、中断。然而仅依靠X线片描述ABC的影像学特点显然是不足够的,Mahnken等^[6]在一项X线片与MRI诊断ABC准确性的对比研究中发现,联合X线片和MRI诊断ABC的准确率显著高于仅行X线片或MRI;此外大多数ABC在MRI中表现为液-液平面。ABC的鉴别诊断包括良性病变,如单房骨囊肿,或肿瘤性病变,如软骨粘液样纤维瘤、成软骨细胞瘤、巨细胞瘤或成骨细胞瘤。有必要将abc与这些良性病变区分开来,因为高达30%的abc是由其他原发肿瘤引起的abc样病变。鉴于ABC和TOS(毛细血管扩张性肉瘤)在影像学和组织学上的相似之处,必须将其与TOS区分开来。在对40例经病理证实的TOS病例的回顾性研究中,murphy^[7]等人18报道了在MRI和CT对比检查中,囊腔周围的组织呈厚结节状强化,与TOS一致。结节强化与高度肉瘤组织和出血性坏死间隙相关。32例(80%)在造影前也能看到这些鉴别特征。相反,ABC外周边缘薄,鼻中隔强化,无明显结节。组织学上,TOS的特征是充满血的湖泊,坏死区域和巨细胞。Capanna^[8]将他们的系统建立在5个形态学亚组上。I型病变位于中心位置,包含良好,要么没有轮廓,要么轮廓略有扩大。II型病变明显扩大,皮质变薄,累及整个骨段。III型病变偏心和干骺端,通常只累及一个皮质。IV型病变是最不常见的亚组,发展于骨膜下,远离骨骼扩展。V型病变发生于骨膜,并向周围扩展,最终穿透皮质骨。该病例由DR及CT可见右侧胫骨上段干骺端内呈偏心性骨质破坏,被囊性结构所侵占,其中可见多房结构,MRI可见多房结构更为明显,其中大部分呈长T1长T2的高信号影,其中大多为液性结构,按照Capanna分型可分为III型,偏心和局限于干骺端,累计前/内侧皮质。ABC占有骨肿瘤的1%到2%,通常出现在生命的前20年,并表现出轻微的女性优势,Leithner等人对奥地利维也纳大学医院(Vienna University Hospital)在1976年至1996年间接治疗的94例患者进行了报道,发现他们占有原发性肿瘤的1.75%,年发病率为0.14/10万。手术是治疗的主要手段。大多数患者接受了病灶内刮除术的充分治疗,局部控制率约为70%至90%。辅助治疗如苯酚灌注、冷冻手术、氩激光凝固和/或骨水泥可以降低侵袭性和/或复发性肿瘤患者的局部复发风险^[9]。目前,骨头开窗清理和植骨是最广泛接受的治疗方案。它的复发率低,对受影响区域功能的风险最小。最近,其



术前 DR



术前 CT



术后 1 月 DR: 可见异体骨已部分融合, 暂未复发, 多房结构完全消失。

他治疗方法也得到了关注, 包括硬化治疗、放射性核素消融和选择性动脉栓塞。据报道, 使用这些方法的成功率非常高。然而, 缺乏直接比较治疗方式的前瞻性随机对照研究; 因此, 治疗通常由外科医生的偏好来指导。手术治疗 ABC 是我国的首选方案, 但病变若位于暴露困难的部位则手术治疗较为棘手。张建立和郭源^[10] 回顾性分析了 48 例 ABC 患者, 其中激素注入治疗组 25 例, 治愈率为 68%; 刮除植骨治疗组 23 例, 治愈率为 73.9%。虽然激素治疗治愈率略低, 但激素注入治疗 ABC 具有手术创伤小、出血少、合并症轻、可反复操作等优点, 张建立和郭源^[10] 建议对于手术难以显露的病变部位 (如: 坐骨、髌臼周围等), 应首选该治疗方法。Garg^[11] 回顾性评估了脊柱的 abc, 报告了 8 例采用病灶内刮除术、电灼和植骨的手术技术治疗的患者无复发, 而仅采用刮除术和植骨的 4 例患者有 4 例复发。与刮除术相关的并发症通常与病灶的不完全切除和由此引起的复发有关。同时在术中使用时使用高频电刀充分灭活囊壁, 清理增生组织, 大量生理盐水反复冲洗, 此手术大量刮除病灶组织及滋养血管, 植入异体人工骨后可能存在植骨替代爬行困难, 该病例患者, 在体外使用自体血浸润, 促进成骨, 复查提示异体人工骨与自身骨融合, 得到较好疗效。

CT 及 DR 提示: 右侧胫骨上段干骺端内段呈偏心性骨质破坏区。

参考文献:

[1]Jaffe HL, Lichtenstein L. Solitary unicameral bone cyst: with emphasis on the roentgen picture, the pathologic appearance and the pathogenesis. *Arch Surg*, 1942, 44(6): 1004-1025

[2]Dabska M, Buraczewski J. Aneurysmal bone cyst. *Pathology, clinical course and radiologic appearances. Cancer*, 1969, 23(2): 371-89

[3]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

[4]Leithner A, Lang S, Windhager R, et al: Expression of insulin-like growth factor-I (IGF-I) in aneurysmal bone cyst. *Mod Pathol* 2001;14(11):1100-1104

[5]Dabska M, Buraczewski J: Aneurysmal bone cyst: Pathology, clinical course and radiologic appearances. *Cancer* 1969;23(2):371-389

[6]Mahnken AH, Nolte-Ernsting CC, Wildberger JE, et al. Aneurysmal bone cyst: value of MR imaging and conventional radiography [J]. *Eur Radiol*, 2003, 13(5): 1118-1124. DOI: 10.1007/s00330-002-1668-8

[7]Murphey MD, wan Jaovisidha S, Temple HT, Gannon FH, Jelinek JS, Malawer MM: Telangiectatic osteosarcoma: Radiologic-pathologic comparison. *Radiology* 2003;229(2):545-553

[8]Capanna R, Bettelli G, Biagini R, Ruggieri P, Bertoni F, Campanacci M: Aneurysmal cysts of long bones. *Ital J Orthop Traumatol* 1985;11(4):409-417

[9]Rapp TB, Ward JP, Alaia MJ. Aneurysmal bone cyst. *J Am Acad Orthop Surg*. 2012 Apr;20(4):233-41. doi: 10.5435/JAAOS-20-04-233. PMID: 22474093

[10] 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 [J]. *中华小儿科杂志*, 2013, 34(5): 353-356

[11]Garg S, Mehta S, Dormans JP: Modern surgical treatment of primary aneurysmal bone cyst of the spine in children and adolescents. *J Pediatr Orthop* 2005;25(3):387-392