doi:10.11659/jjssx.11E020063

·病例报道·

儿童右肩胛骨背侧骨软骨瘤1例

阮思源,刘德森,罗欣意,万 怡,侯思嘉,余 轶,饶颢洋,曹 洪 (十堰市人民医院/湖北医药学院附属人民医院创伤骨科,湖北 十堰 442000)

Osteochondroma on the dorsal side of the right scapula in children:a case report

RUAN Si-yuan, LIU De-sen, LUO Xin-yi, WAN Yi, HOU Si-jia, YU Yi, RAO Hao-yang, CAO Hong (Department of Traumatology and Orthopedics, Shiyan People's Hospital/Affiliated People's Hospital of Hubei University of Medicine, Shiyan Hubei 442000, China)

[关键词] 儿童;骨软骨瘤;外生骨疣;骨肿瘤;肩胛骨
[中图分类号] R681.3 [文献标识码] A [收稿日期] 2020-11-13

骨软骨瘤是一种常见的、软骨源性的良性肿瘤,由骨性基底、软骨帽和纤维包膜三部分构成,多见于长骨干骺端,如肱骨近端、股骨远端、胫骨近端等,因肌肉组织牵拉,骨软骨瘤多背离附近的关节生长,在骨盆、肩胛骨等扁骨中少见。本文报道1例儿童肩胛骨肩胛下窝背侧骨软骨瘤,结合文献探讨治疗方案,以期加深对肩胛骨背侧骨软骨瘤的认识,为临床类似疾病的诊治提供参考。

1 资料与方法

1.1 临床资料

患儿,男,10岁,因"发现右肩背部包块6个月余"于2020年6月28日入院。患者6个月前无意间发现右肩背部有包块且逐渐增大,无红肿发热、疼痛、心慌、胸闷等不适。既往无特殊病史。查体:右肩胛区可触及1个约2.0 cm×3.0 cm大小的突起包块(图1a),质硬,活动度差,无压痛,局部皮温不高,无静脉怒张,右腋窝无肿大淋巴结,右肩关节活动正常,右上肢感觉、血运可。CT检查示:右肩胛下窝背侧下缘见一团块状骨质密度影,密度不均匀,骨皮质完整,骨皮质和骨松质以宽基底与载瘤骨相延续,软骨帽无增厚(图1b、c)。结合病史、查体及影像学检查,最终诊断为右肩胛骨背侧骨软骨瘤。肿瘤有继续增大趋势,考虑手术切除治疗。

1.2 手术方法

完善相关检查,排除手术禁忌证后,于气管插管静脉吸入全身麻醉下行右肩胛骨背侧骨软骨瘤切除术。患者取俯卧位,右肩部垫高,常规消毒、铺巾。以右肩胛骨骨性包块为中心,作1个长约2 cm的切口,依次切开皮肤、皮下组织、深筋膜,将周围组织向两边牵拉,充分显露右肩胛骨骨性肿物,切除周围软骨帽及四周部分正常骨组织后,用骨刀凿除瘤体(图1d、e)。彻底止血后用大量稀释活力碘及生理盐水反复冲洗创口,分层缝合深筋膜、皮下及皮肤,术毕,手术切除物送病理检查。标本病理检查结果提示成熟骨组织,表面可见软骨及纤维包膜,右肩胛骨符合骨软骨瘤改变特征(图1f)。

2 结果

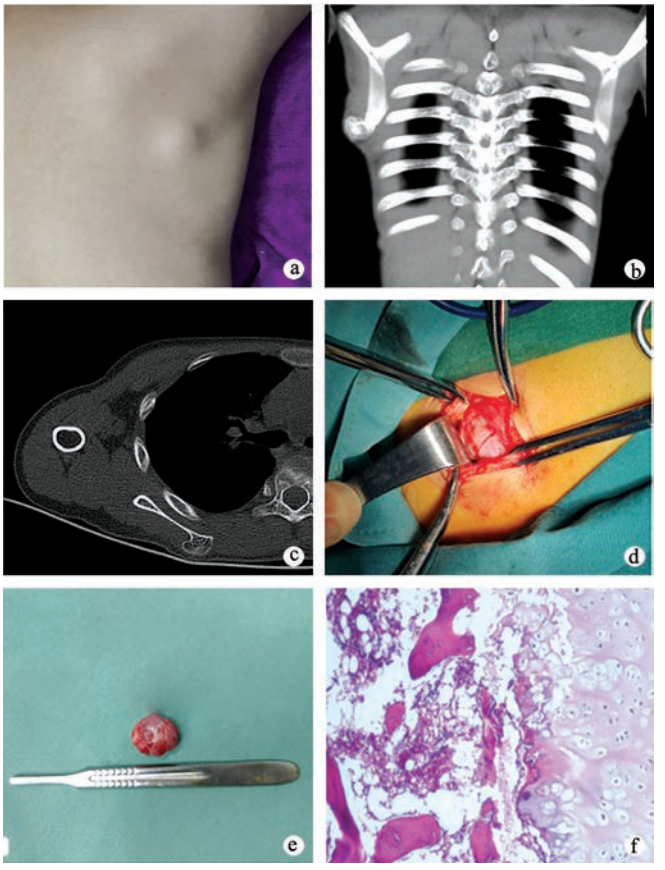
术后三角巾悬吊保护1周,逐渐进行肩关节主被动活动练习。术后3个月复查X射线片未见异常,右肩关节活动正常,患儿未诉疼痛或不适。

3 讨论

骨软骨瘤是常见的良性骨肿瘤,多见于四肢长骨,如肱骨近端、股骨远端和胫骨近端,少见于扁骨及不规则骨。虽然肩胛骨很少受累,但相比于其他骨肿瘤,肩胛骨更容易发生软骨肿瘤,这可能是因为肩胛骨是由软骨内骨化形成[1]。Priemel等[2]对193例肩胛骨骨肿瘤患者进行流行病学分析时发现,良性肿瘤多位于骨的S2区,但骨软骨瘤却多位于骨的S1区(肩胛骨体部),其中肩胛骨体部腹面是最常见的受累部位。骨软骨瘤的发生机制目前尚不清楚。有研究认为,骨软骨瘤是一种生长发育异常的错构瘤,可能是小片骨骺软骨在生长板发育异常时分离,经软骨内骨化形

[基金项目] 湖北省创新训练项目(S202010929022);2020年度湖北医药学院研究生科技创新项目(YC2020020)

[通信作者] 曹 洪,E-mail:33556511@qq.com



a:右肩胛区突起包块;b、c:团块状骨质密度影;d:完全暴露肿物并切除;e:完整切除的肿物;f:术后病理检查结果

图1 右肩胛骨肩胛下窝背侧骨软骨瘤

成[3];也有研究表明外伤是其诱发原因之一[4]。组织学上,骨软骨瘤有3层组织结构,外层的纤维包膜为血管稀少的胶原结缔组织,与基底骨的骨膜衔接,并紧密附着于下方组织;中层为灰蓝色的透明软骨,即软骨帽,类似正常的软骨,其厚度一般小于2 cm,常发生钙化,年幼者软骨帽较厚,成年后软骨帽退化变薄、消失;底层即为肿瘤的主体,髓腔与患骨相连。

约1%的单发性骨软骨瘤可能恶变为软骨肉瘤,而多发性骨软骨瘤恶变率为20% ~25%[5],表现为包块突然增大、肿胀、疼痛等,X射线片可见骨软骨瘤继续生长、骨质破坏、不规则钙化等表现,碱性磷酸酶、血清钙磷酶等实验室检查也可辅助鉴别恶性转化。同时,活检标本中软骨帽的厚度也是恶性转化的预测因素之一,成人软骨帽厚度超过2 cm或儿童软骨帽厚度超过3 cm时,应警惕恶变的可能。

骨软骨瘤早期多无明显症状,随着瘤体增大,可见局部隆起,可触及质硬肿块。肩胛骨位置表浅,腹侧面与胸廓后上部分关系紧密。若瘤体位于腹侧,可能会与胸壁摩擦导致前锯肌麻痹,从而表现出假性翼状肩[6]、弹响综合征[7]、疼痛等症状。若瘤体压迫肋骨,可导致胸廓畸形,造成慢性胸痛甚至肺功能受损[8]。若瘤体机械性压迫神经、血管,可导致肢体水肿、肌萎缩无力[9-10]。而肿瘤位于背侧的患者一般无自觉症状,或因骨性突起致仰卧睡眠不适、肩部活动疼痛、病理性骨折及外观受影响。本研究中患儿因无意间发现肩背部包块而就诊,肩关节活动正常,无不适或疼痛症状,日常生活未受影响。

骨软骨瘤的影像学表现较典型,位于长骨干骺端的骨软骨瘤不难诊断,而位于肩胛骨(尤其是腹侧)的骨软骨瘤,由于解剖结构复杂,肺野等组织重叠较多,易导致漏诊、误诊。由于肩胛骨骨软骨瘤的位置、形态、大小、密度在透视时易被误诊为肺内结节病灶[11],所以当胸片显示上肺野有疑似结节病灶与肩胛骨重叠,且密度高低不均,尤其是边缘呈包壳样钙化时,应嘱患者内收双肩或者耸肩,转动体位,观察团块影在透视下的位置变动,或拍摄肩胛骨侧位片以鉴别诊断。而CT检查是非常有效的补充,在断层扫描中可见正常骨表面与窄小的骨蒂相连或有宽基底的骨性突起,呈典型菜花样改变,通过三维成像可以协助肿瘤定位、定性,对隐蔽性较强的肿瘤更有诊断价值[12]。MRI组织分辨率优于CT,对组织细节显示更全面,能清晰地显示病变范围和信号特点,可从多个角度显示肿瘤与患骨的结构关系。由于软骨帽的水含量比骨部分大,软骨厚度更容易测量,因此通过MRI诊断更有利于评价其有无增厚,弥补了软骨帽在X射线上不显影的缺点,且能分析肿瘤对周围组织的影响,有利于判断肿瘤是否有恶变[13]。高频超声辅助诊断小儿骨软骨瘤具有无辐射、价格便宜和能实时检查的优势[14],其原因为小儿骨质透声较成人更好,可清楚显示骨性突起,可见基底部与正常骨皮质相延续,还能显示“月牙状”或“镰刀状”的低回声软骨帽,通过观察软骨帽有无缺损或斑片状钙化,可辅助评估是否有软骨肉瘤的可能性。

骨软骨瘤可继发形成滑囊,但其产生机制尚不明确,有研究认为骨软骨瘤是由外生骨赘长期与邻近组织、肌肉摩擦导致,常见于肩胛骨、股骨小转子、跟骨等活动频繁的部位[15]。当术前CT可见肿物周围不规则水样密度影、滑囊内可见钙化或骨化结节时,应考虑继发滑膜骨软骨瘤。有研究认为,术中应完整切除滑囊,以防止残留滑囊造成肿瘤复发[16],而另一种观点认为可行部分切除甚至保留滑囊,因为完整切除滑囊带来

的效益可能不及损伤神经、血管的风险大,且切除骨赘、去除刺激因素后,滑囊将不会再复发,局部组织可恢复正常[17]。本研究认为,由于滑囊壁由致密纤维构成,有炎症细胞浸润及血管增生,囊内主要为淡黄色炎性浆液,当继发炎症、感染时会刺激滑囊迅速增大,产生疼痛等并发症,因此,有条件时应尽量完整切除。本研究中患儿骨软骨瘤增长较缓,与组织、肌肉摩擦较少,尚未形成滑囊。

手术切除是治疗骨软骨瘤的首选方法,小儿骨软骨瘤多发于长骨干骺端,手术切除时可能会为了避免损伤骺板而未能彻底清除基底部分,因儿童期软骨化骨十分活跃,残留的软骨可能导致肿瘤复发[18]。肩胛骨骨软骨瘤损伤骺板的可能性较小,无论是开放手术还是内镜微创切除,都应从肿瘤基底四周部分正常骨组织开始,完整切除肿物(包括纤维膜、软骨帽等),以防复发及恶变[19-20]。

[参考文献]

[1] Bektas YE, Ozmanevra R. An unusual location of osteochondroma: dorsal scapula[J]. Cureus, 2019, 8(4): 8. doi: 10.7759/cureus.6464.

[2] Priemel MH, Erler JME, Zustin J, et al. Histological, epidemiological and anatomical analysis of 193 bone tumours of the scapula[J]. J Bone Oncol, 2019, 18(19): 27 - 34. doi: 10.1016/j.jbo.2019.100258.

[3] Khan Z, Gerrish AM, Grimer RJ. An epidemiological survey of tumour or tumour like conditions in the scapula and periscapular region[J]. SICOT J, 2016, 2(34): 263 - 269. doi: 10.1051/sicotj/2016023.

[4] 李红卫,李大为,陈 斌. 月骨骨软骨瘤1例[J]. 中华手外科杂志,2017,33(3):239. doi:10.3760/cma.j.issn.1005-054X.2017.03.036.

[5] Garrison RC, Unni KK, McLeod RA, et al. Chondrosarcoma arising in osteochondroma[J]. Cancer, 1982, 49(9): 1890 - 1897. doi: 10.1002/1097-0142(19820501)49:9<1890::aid-cncr2820490923>3.0.co;2-u.

[6] Alatassi R, Koaban S, Almugebel I, et al. Scapular osteochondroma with winging: a case report[J]. Int J Surg Case Rep, 2018, 45(2): 138 - 142. doi: 10.1016/j.ijscr.2018.03.034.

[7] Clarke DO, Crichlow A, Christmas M, et al. The unusual osteochondroma: a case of snapping scapula syndrome and review of the literature[J]. Orthop Traumatol Surg Res, 2017, 103(8): 1295 - 1298. doi: 10.1016/j.otsr.2017.01.019.

[8] Chun DI, Cho JH, Cho IH, et al. Osteochondroma of ventral scapula associated with chest pain due to rib cage compression: a case report[J]. Medicine, 2018, 97(17): e0510. doi: 10.1097/MD.0000000000010510.

[9] Beauchamp-Chalifour P, Pelet S. Osteochondroma of the scapula with accessory nerve (XI) compression[J]. Case Rep Orthop, 2018, 21(8): 1 - 4. doi: 10.1155/2018/7018109.

[10] Oljaca A, Hirzberger D, Bergovec M, et al. Osteochondroma of the scapula associated with a subclavian artery pseudoaneurysm: case report[J]. SAGE Open Med Case Rep, 2019, 7(22): 2 - 6. doi: 10.1177/2050313X18823089.

[11] 薛春晖,李镇中. 右肩胛骨骨软骨瘤误诊为肺结核一例[J]. 临床放射学杂志,2004,28(1):65. doi:10.3969/j.issn.1001-9324.2004.01.031.

[12] 李武超,柏拉拉,冲 田,等. 儿童肩胛骨肿瘤的影像学诊断与鉴别[J]. 临床放射学杂志,2015,34(12):1961 - 1964. doi:10.13437/j.cnki.jcr.2015.12.027.

[13] Tungdim PH, Singh II, Mukherjee S, et al. Excision of solitary osteochondroma on the ventral aspect of left scapula presenting as pseudowinging in a 4-year-old boy: a rare case report[J]. J Orthop Case Rep, 2017, 7(1): 36 - 40. doi: 10.13107/jocr.2250-0685.678.

[14] 罗洪霞,潘 尹,倪双双,等. 高频超声在小儿单发性骨软骨瘤中的应用研究[J]. 中华医学超声杂志(电子版),2019,16(12):956 - 957. doi:10.3877/cma.j.issn.1672-6448.2019.12.013.

[15] Schubert T, Navez M, Galant C, et al. Femoral osteochondroma responsible for ischiofemoral impingement, bursitis, and secondary lipoma arborescens mimicking malignant transformation[J]. Acta Radiol Open, 2019, 8(12): 34 - 46. doi: 10.1177/2058460119892409.

[16] Flugstad NA, Sanger JR, Hackbarth DA. Pseudo-winging of the scapula caused by scapular osteochondroma: review of literature and case report[J]. Hand, 2015, 10(2): 228 - 232. doi: 10.1007/s11552-014-9659-1.

[17] Frost NL, Parada SA, Manoso MW, et al. Scapular osteochondromas treated with surgical excision[J]. Orthopedics, 2010, 33(11): 343 - 347. doi: 10.3928/01477447-20100924-09.

[18] Erdogan Ö, Gürkan V. Benign bone tumors of hand and wrist: evaluation of diagnosis and treatment[J]. Jt Dis Relat Surg, 2020, 31(1): 81 - 87. doi: 10.5606/ehc.2020.72162.

[19] Kim JR, Lee JH, Wang SI. Arthroscopic management of lesser tuberosity osteochondroma causing impingement and subscapularis tear of the shoulder[J]. Knee Surg Sports Traumatol Arthrosc, 2017, 25(7): 2225 - 2229. doi: 10.1007/s00167-017-4448-3.

[20] Prakash S, Kalra P, Khan Y, et al. Ventral scapular osteochondroma excision through "triangle of auscultation": a case series[J]. J Orthop Surg, 2020, 28(1): 1062 - 1065. doi: 10.1177/2309499019892848.

(编辑:贺绍梅)