doi:10.11659/jjssx.02E022055

·病例报道·

左胫骨远端骨软骨瘤伴左腓骨远端疲劳性骨折1例

刘德森,阮思源,周 霖,辜刘伟,王玉琦,黄心诚,曹 洪 (湖北医药学院/湖北医药学院附属人民医院骨科中心,湖北十堰 442000)

Left distal tibia osteochondroma with fatigue fracture of left distal fibula: a case report

LIU De-sen, RUAN Si-yuan, ZHOU Lin, GU Liu-wei, WANG Yu-qi, HUANG Xin-cheng, CAO Hong (Orthopedics Center, People's Hospital Affiliated to Hubei University of Medicine/Hubei University of Medicine, Shiyan Hubei 442000, China)

[关键词] 骨软骨瘤;胫骨远端;骨肿瘤;外生性骨疣;骨折
[中图分类号] R681 [文献标识码] B [收稿日期] 2022-02-17

骨软骨瘤为良性骨肿瘤,又称外生性骨疣,原发性骨软骨瘤好发于11~20岁男性[1]。在病理解剖学上可观察到骨软骨瘤呈菜花状,瘤体由软骨膜、软骨帽和骨性瘤体组成。临床上,骨软骨瘤多无明显症状,通常因瘤体生长压迫其他组织产生一系列症状而被发现。骨软骨瘤的发病部位以股骨下端及胫骨上端多见,其次为上肢的肱骨、尺骨及桡骨近端骨骺,下肢的腓骨近端、胫骨远端的骨骺,肋骨、肩胛骨、脊柱、骨盆、手足指(趾)骨等处亦见分布,颅骨罕见,下颌骨、锁骨目前尚未见受病变累及的相关报道[2]。本文报道1例儿童胫骨远端骨软骨瘤,因瘤体靠近腓骨一侧,随着瘤体增大逐渐挤压腓骨,导致左腓骨远端疲劳性骨折。结合文献探讨骨软骨瘤的发病机制及治疗方案,以期加深对骨软骨瘤的认识,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

患者,男,15岁,因"发现左踝处硬质包块6个月余"入院,近来因感包块逐渐增大,左踝处出现疼痛伴活动受限来我院就诊。既往体健,无特殊病史。专科情况:左外踝处可触及一硬质包块(图1a),约鸡蛋大小,无活动度,触之无疼痛,踝关节活动稍受限,患肢远端血液循环及感觉无异常。左踝关节X射线:左胫骨远端腓侧见宽基底弧形骨性突起,大小约4.0 cm×1.1 cm,边缘光整,相邻腓骨远端受推压向外呈弧形变形,局部骨密度增高,其内可见模糊横行透亮线影,踝关节间隙正常(图1b),考虑左胫骨远端骨软骨瘤、相邻腓骨骨折。CT提示左胫骨远端见宽基底骨性突起,其内骨小梁、骨皮质均与胫骨相连,腓骨远端受推压稍变形,见模糊透亮线影,局部骨密度增高,周围软组织稍肿胀,踝关节间隙正常(图1c、d),考虑左胫骨远端骨软骨瘤,左腓骨远端疲劳性骨折可能性大(骨痂生长期)。结合病史、查体及影像学检查,最终诊断为左胫骨远端骨软骨瘤,肿瘤有继续增大趋势,并引起左腓骨远端疲劳性骨折,因此考虑手术切除治疗。

1.2 手术方法

术前完善相关检查,排除手术禁忌证,在腰硬联合麻醉下行胫骨远端肿物切除术+腓骨截骨术+腓骨骨折切开复位钢板内固定术治疗。患者麻醉成功后取仰卧位,术区常规消毒铺巾,左下肢常规上止血带;于左外踝处取长约12 cm的纵行手术切口,依次切开皮肤及皮下组织,注意保护外侧血管,逐层分离,充分暴露腓骨及胫骨前缘,用骨剥将骨膜剥离,见胫骨远端外侧硬质肿物,大小约4.5 cm×2.0 cm,基底部宽厚,包膜较完整,挤压腓骨远端致其膨隆,可见一横行骨折线(图1e),术中骨刀沿基底部充分切除肿物,咬骨钳彻底咬除包块边缘,将肿物切除干净(图1f),清理骨膜,将切除的肿物送病理检查,胫骨切面予以骨蜡封闭,术中沿腓骨骨折线边缘作斜行截骨,根据术中透视结果调整骨折断端,位置尚可后置入腓骨外侧钢板,继续透视,调整钢板位置及螺钉深度,见腓骨长度、位置、踝穴间隙均可,用大量无菌生理盐水冲洗切口,严密止血,清点器械纱布无误后逐层缝合关闭切口,留置引流管1根,术毕。

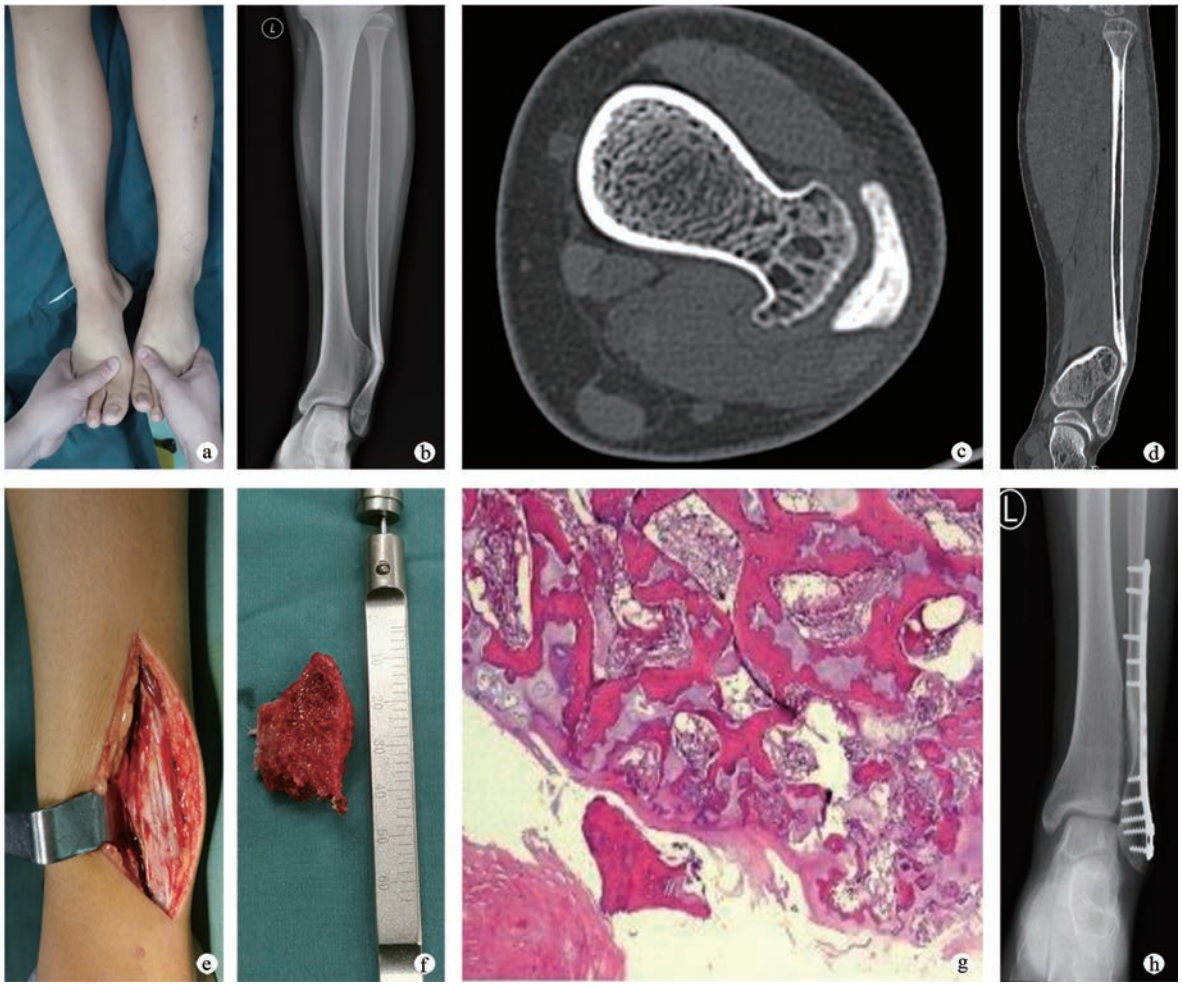
2 结果

标本病理检查结果提示成熟骨组织,表面可见软

[基金项目] 国家自然科学基金(81602867);湖北省自然科学基金面上项目(2018CFB524);湖北省教育厅科学研究计划指导性项目(B2018110);湖北医药学院药护学院2019年度教学研究项目(YHJ2019006);湖北医药学院药护学院2019年度教学研究项目(YHJ2019023);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:RminHospitalCH@163.com

骨及纤维包膜,符合骨软骨瘤改变(图 1g)。患肢石膏固定 4 ~ 5 周,术后 1 个月内避免下地活动,3 个月内患肢禁止负重,期间积极行患肢功能锻炼,防止关节僵硬。术后动态复查 X 射线未见异常(图 1h),左踝关节活动正常,患儿未诉特殊不适。



a:术前患肢与健侧对比;b:X 射线示左胫骨远端腓侧见宽基底弧形骨性突起;c、d:CT 示左胫骨远端见宽基底骨性突起;e:术中见胫骨远端外侧硬质包块;f:完整切除的肿块;g:病理检查结果提示骨软骨瘤(×40);h:术后 X 射线示恢复良好。

图 1 左胫骨远端骨软骨瘤伴左腓骨远端疲劳性骨折

3 讨论

骨软骨瘤分为单发性骨软骨瘤(约占 85%)和多发性骨软骨瘤(约占 15%)。单发性骨软骨瘤无遗传性;而多数多发性骨软骨瘤与遗传有关,又称为多发性遗传性外生骨疣[3],这类患者大多数有阳性家族史,约 90% 的多发性遗传性外生骨疣患者中可以检测到 EXT 基因之一的突变[4-6]。多发性骨软骨瘤常引起患者骨骼发育障碍、四肢短缩或弯曲畸形、身材矮小,主要影响机体软骨化骨而累及骨骼系统[7]。在病理解剖学上可观察到骨软骨瘤呈菜花状,瘤体由软骨膜、软骨帽和骨性瘤体组成,其骨性成分可与一有细蒂的骨皮质直接连接,肿瘤的大小和形状不一,直径大多为 1 ~ 10 cm[2]。软骨膜由两层组成,外层有相对较致密的胶原纤维,其对软骨主要起保护作用;而内侧的纤维较疏松,但是细胞数量相对较多,其中一些梭形小细胞为骨原细胞,可增殖分化为软骨细胞[8]。与典型的哺乳动物生长板相比,骨软骨瘤软骨帽的软骨细胞显示出明显的紊乱,增殖的软骨细胞呈簇状而不是柱状,在这些软骨细胞簇之间可以观察到明显的骨化,几乎所有单发性骨软骨瘤软骨帽的软骨细胞均呈生长板样形态,骨化带附近可见肥大的软骨细胞[9]。

单发性骨软骨瘤患者起初多无明显症状,多为无意间发现的骨骼无痛性局部隆起,或瘤体持续生长,压迫周围组织导致骨折、骨畸形、囊形成(伴或不伴滑囊炎)和恶性转化等而被发现[2]。本例患者早期无意间发现左踝处有突起,但因未出现任何不适症状,患者由于年龄小及医学常识不足等,未引起重视,后感左踝处

包块逐渐增大,并出现疼痛,左下肢活动受限,遂至医院就诊。

骨软骨瘤多位于长骨干骨后端,约50%的患者骨软骨瘤位于膝关节周围,其中股骨远端约占30%,胫骨近端占15%~20%,肱骨占10%~20%,手和脚约占10%[10]。下肢长骨更容易发生骨软骨瘤,而胸骨、肩胛骨、肋骨和髋骨等扁平骨受累的病例不到5%[11]。单发性骨软骨瘤很少发生于脊柱,而68%的多发性遗传性外生骨疣患者有脊柱骨软骨瘤[12]。本例患者骨软骨瘤发生于胫骨远端外侧,随着瘤体的生长,引起相邻的腓骨远端疲劳性骨折,如无影像学检查,极易被误诊为腓骨远端骨软骨瘤,且由于瘤体与腓骨相互挤压,软骨膜、软骨帽较普通骨软骨瘤略有不同,术中见软骨膜与腓骨内侧稍有融合,这样的情况并不多见。在少数病例报道中提到,骨软骨瘤位于肌腱下方时,在相关运动中肌腱可能会在骨肿瘤上移动和摩擦,引起疼痛和肌腱断裂等并发症[13]。本例患者术中探查时未见明显的肌腱损伤。骨软骨瘤的诊断多采用X射线检查即可明确,但有时需要CT和MRI等横断面成像技术来评估软骨帽、复杂区域骨髓与母骨的连续性以及并发症[2,12-14]。

骨软骨瘤最危险的并发症是癌变,其通常发生在软骨帽内。据相关文献报道,约1%的单发性骨软骨瘤和10%的多发性遗传性外生骨疣会恶变为软骨肉瘤[15]。软骨肉瘤恶变的常见部位是股骨近端、肱骨近端、肩胛骨和骨盆,这些恶变后的软骨肉瘤大多为低度至中度分化[1,15-16]。因此,对于先前存在骨软骨瘤附近新发疼痛的患者都应该进行影像学检查,尤其是MRI检查,以排除继发性软骨肉瘤[16-17]。软骨肉瘤在增强MRI上表现为间隔强化,而骨软骨瘤仅表现为周边强化[2]。当骨软骨瘤的影像学特征表现为骨骼成熟后的肿瘤生长、不规则或分叶状边缘、不规则或分散的钙化、内部溶骨性破坏以及邻近骨骼的侵蚀或破坏时,需警惕恶变的可能[18]。儿童软骨帽厚度大于3 cm或成人软骨帽厚度大于2 cm是恶性转化的标志[18]。

无症状的骨软骨瘤患者仅需密切观察,无需特殊治疗,而有症状或影像学表现可疑的骨软骨瘤恶变患者则需要进行手术切除治疗[19]。Tepelenis等[2]和Wirganowicz等[19]发现手术切除骨软骨瘤后并发症发生率为12.5%,其中最常见的是神经失用症,其次是动脉撕裂伤、筋膜室综合征和腓骨骨折[2,19]。术中应尽可能地将骨软骨瘤切除彻底,以减少复发的可能。对于儿童骨软骨瘤患者,手术最好推迟到骨骼发育成熟后,因为骨骼发育未成熟患者的复发率可能更高[2,16,20]。对于靠近骺板的肿瘤必须格外小心,以避免损伤骺板,从而影响患儿骨骼的生长发育。

[参考文献]

[1] Bailescu I, Popescu M, Sarafoleanu LR, et al. Diagnosis and evolution of the benign tumor osteochondroma[J]. Exp Ther Med, 2022, 23(1): 103. doi:10.3892/etm.2021.11026.

[2] Tepelenis K, Papathanakos G, Kitsouli A, et al. Osteochondromas: an updated review of epidemiology, pathogenesis, clinical presentation, radiological features and treatment options[J]. In Vivo, 2021, 35(2): 681-691. doi:10.21873/invivo.12308.

[3] Sinha S, Mundy C, Bechtold T, et al. Unsuspected osteochondroma-like outgrowths in the cranial base of Hereditary Multiple Exostoses patients and modeling and treatment with a BMP antagonist in mice[J]. PLoS Genetics, 2017, 13(4): e1006742. doi: 10.1371/journal.pgen.1006742.

[4] Oliver GR, Blackburn PR, Ellingson MS, et al. RNA-Seq detects a SAMD12-EXT1 fusion transcript and leads to the discovery of an EXT1 deletion in a child with multiple osteochondromas[J]. Mol Genet Genomic Med, 2019, 7(3): e560. doi:10.1002/mgg3.560.

[5] Huegel J, Mundy C, Sgariglia F, et al. Perichondrium phenotype and border function are regulated by Ext1 and heparan sulfate in developing long bones: a mechanism likely deranged in Hereditary Multiple Exostoses[J]. Dev Biol, 2013, 377(1): 100-112. doi: 10.1016/j.ydbio.2013.02.008.

[6] Reijnders CM, Waaijer CJ, Hamilton A, et al. No haploinsufficiency but loss of heterozygosity for EXT in multiple osteochondromas[J]. Am J Pathol, 2010, 177(4): 1946-1957. doi: 10.2353/ajpath.2010.100296.

[7] Jochmann K, Bachvarova V, Vortkamp A. Heparan sulfate as a regulator of endochondral ossification and osteochondroma development[J]. Matrix Biol, 2014, 34: 55-63. doi:10.1016/j.matbio.2013.11.003.

[8] Inubushi T, Nozawa S, Matsumoto K, et al. Aberrant perichondrial BMP signaling mediates multiple osteochondromagenesis in mice[J]. JCI Insight, 2017, 2(15): e90049. doi:10.1172/jci.insight.90049.

[9] Cuellar A, Inui A, James MA, et al. Immunohistochemical localization of bone morphogenetic proteins (BMPs) and their receptors in solitary and multiple human osteochondromas[J]. J Histochem Cytochem, 2014, 62(7): 488-498. doi:10.1369/0022155414535781.

[10] Zuntini M, Pedrini E, Parra A, et al. Genetic models of osteochondroma onset and neoplastic progression: evidence for mechanisms alternative to EXT genes inactivation[J]. Oncogene, 2010, 29(26): 3827-3834. doi:10.1038/onc.2010.135.

[11] Gavanier M, Blum A. Imaging of benign complications of exostoses of the shoulder, pelvic girdles and appendicular skeleton[J]. Diagn Interv Imaging, 2017, 98(1): 21-28. doi:10.1016/j.diii.2015.11.021.

[12] Yakkanti R, Onyekwelu I, Carreon LY, et al. Solitary osteochondroma of the spine-a case series: review of solitary osteochondroma with myelopathic symptoms[J]. Global Spine J, 2018, 8(4): 323-339. doi:10.1177/2192568217701096.

doi:10.11659/jjssx.01E022064

·病例报道·

鼻腔术后并发眶周血肿伴复视及眼球内收受限1例

邢忠诚 (徐州医科大学附属医院临床学院/淮北市人民医院耳鼻咽喉科,安徽 淮北 235000)

Periorbital hematoma with diplopia and limitation of intraocular adduction after nasal operation:a case report

XING Zhong-Cheng (Clinical College of Affiliated Hospital of Xuzhou Medical University/Department of Otolaryngology, Huaibei People's Hospital, Huaibei Anhui 235000, China)

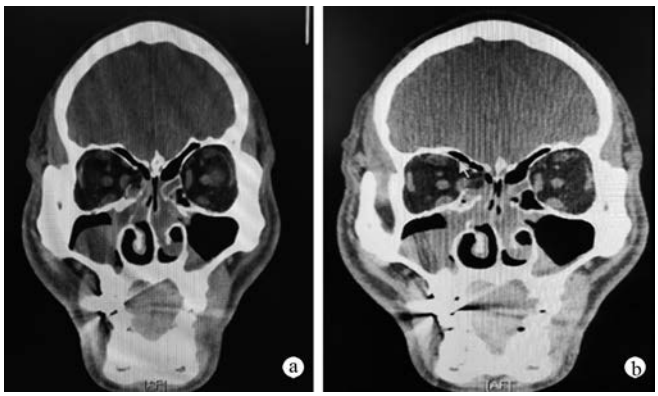
[关键词] 鼻内镜手术;内直肌损伤;眼眶陈旧性骨折
[中图分类号] R765.5;R619 [文献标识码] B [收稿日期] 2022-01-18

鼻眼相关内镜手术的风险控制主要在于避免对视神经、眼动脉、眼肌的直接损伤,而这些重要结构在眼球后眶内均被眶筋膜所包绕,因此,术中保持眶筋膜完整,在眶筋膜外切除相关病变,可有效保障手术的安全性[1]。近期我科收治了1例典型的有眼眶外伤史的老年鼻腔息肉患者,该患者术后出现鼻眼相关并发症,请眼科会诊分析原因并进行评估后,对该患者给予相应治疗,本文现总结相关治疗经验教训,以期为该类疾病的治疗提供参考。

1 资料与方法

1.1 临床资料

患者,男,59岁,因"双侧鼻塞反复加重2个月"入院,无眼球运动障碍及复视,患者入院后完善相关检查,副鼻窦冠状位CT(图1)提示双侧上颌窦、筛窦、蝶窦炎;双侧鼻腔内异常密度影充填(息肉?);眼眶右侧壁凹陷(陈旧性骨折?)。



a:眼眶骨折;b:息肉与骨折眶壁粘连并突入眶内

图1 术前CT影像资料

[通信作者] 邢忠诚,E-mail:553942083@qq.com

[13] 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.

[14] Chilvers R, Gallagher JA, Jeffery N, et al. An unusual example of hereditary multiple exostoses:a case report and review of the literature[J]. BMC Musculoskelet Disord, 2021, 22(1):96. doi:10.1186/s12891-021-03967-6.

[15] Mundy C, Yang E, Takano H, et al. Heparan sulfate antagonism alters bone morphogenetic protein signaling and receptor dynamics, suggesting a mechanism in hereditary multiple exostoses[J]. J Biol Chem, 2018, 293(20):7703-7716. doi:10.1074/jbc.RA117.000264.

[16] Tong K, Liu H, Wang X, et al. Osteochondroma:review of 431 patients from one medical institution in South China[J]. J Bone Oncol, 2017, 8:23-29. doi:10.1016/j.jbo.2017.08.002.

[17] Jones KB, Piombo V, Searby C, et al. A mouse model of osteochondromagenesis from clonal inactivation of Ext1 in chondrocytes[J]. Proc Natl Acad Sci U S A, 2010, 107(5):2054-2059. doi:10.1073/pnas.0910875107.

[18] Mordenti M, Shih F, Boarini M, et al. The natural history of multiple osteochondromas in a large Italian cohort of pediatric patients[J]. Bone, 2020, 139:115499. doi:10.1016/j.bone.2020.115499.

[19] Wirganowicz PZ, Watts HG. Surgical risk for elective excision of benign exostoses[J]. J Pediatr Orthop, 1997, 17(4):455-459.

[20] Zhang Y, Wen L, Zhang J, et al. Three-dimensional printing and computer navigation assisted hemipelvectomy for en bloc resection of osteochondroma:a case report[J]. Medicine (Baltimore), 2017, 96(12):e6414. doi:10.1097/MD.0000000000006414.

(编辑:贺绍梅)