

· 个案报告 ·

C₆椎良性纤维组织细胞瘤并椎旁侵袭 1 例

唐建东, 卢子墨, 张元成, 敖俊*

(遵义医科大学附属医院骨科, 贵州遵义 563000)

关键词: 颈椎, 良性, 纤维组织细胞瘤, 侵袭, 复发

中图分类号: R738.1 文献标志码: C 文章编号: 1005-8478 (2022) 07-0670-03

骨良性纤维组织细胞瘤 (benign fibrous histiocytoma, BFH) 是一种极为罕见的原发于骨的良性肿瘤, 占良性骨肿瘤的 1% 以内, 长骨好发^[1-2], 但很少累及脊柱, 国内外报道的病例不足 30 例^[1, 3-5]。作者报道 1 例侵袭右侧颈长肌、包绕椎动脉及臂丛神经经过手术刮除后复发并二次手术的颈椎 BFH, 并讨论其诊断和处理。

1 病例资料

患者, 女, 21 岁, 因“右颈肩疼痛 3 年, 右上肢乏力伴麻木 1 年”入院。患者于 3 年前无明显诱因出现右侧颈肩部疼痛, 疼痛偶尔呈一过性向右上肢放射, 行针灸、理疗等治疗, 效果不佳。1 年前出现右上肢酸软乏力、右前臂与手的背侧感觉麻木, 右手持物不牢及灵活度下降症状。外院行颈椎 CT 示: C₆椎体骨质破坏, 右侧椎旁肿物形成。门诊以“C₆椎骨质破坏原因待查”收入院。入院查体: 颈椎活动度受限, 以右侧偏明显, 右侧颈肩部压痛、Eaton 试验阳性, 右前臂桡侧、拇指、示指及中指感觉麻木, 针刺感减退, 肱三头肌、屈腕肌及伸指肌肌力 4 级, 肱桡肌腱及肱三头肌肌腱反射减弱。颈椎 MR 检查 (图 1a) 示: C₆椎骨质破坏, C₅₋₇椎体右侧 23 mm×40 mm 的不规则肿块, 边缘不清, 包绕臂丛神经、椎动脉并充填 C_{5/6}、_{6/7}椎间孔。为明确病变性质, 行前路 C₆椎病灶穿刺活检术, 术后病理提示为纤维组织及骨组织, 未见恶性组织。诊断为 C₆椎占位性病变: 肿瘤? 因患者颈椎占位出现神经功能损伤, 于 2015 年 8 月 11 日行“前路 C₆椎病灶刮除自体骨植骨融合、C₅₋₆椎钛板内固定术”。术中见 C₆椎体右侧 1 cm×1 cm×1 cm

大小空洞, 内充满鱼肉样肉芽肿组织, 充分刮除后见空洞穿透至右侧椎旁, 见部分病灶侵袭入颈长肌内, 病灶环绕右侧颈动脉及臂丛神经周围, 粘连紧密边界不清, 为避免椎动脉及臂丛神经继发性损害, 残留了少量病灶组织。手术时间 160 min, 出血约 200 ml。术后病理学镜下 (图 1b) 见纤维增生呈束状、交织排列, 细胞呈椭圆形、梭形, 胞质丰富, 红染, 见少量慢性炎细胞浸润。免疫组化示: CD3 (-)、SMA (++)、CD68 (+)、S100 (灶+)、Vimentin (+)、Desmin (-)、SMMHC (少许+), 诊断为 C₆椎良性纤维组织细胞瘤 (Tomita V 型)。术后无手术并发症发生, X 线片见内固定在位, 位置良好 (图 1c)。术后 1 周出院, 症状体征逐渐消失, 正常生活不受限, 但在术后 2 年再次出现上述类似症状体征, 复查颈椎 MR 见肿瘤复发 (图 1d), 于外院行“前路 C₆椎体次全切, 椎体间钛网植骨融合、C₅₋₇椎钛板内固定、后路 C₅₋₇椎侧块螺钉内固定术”, 术中彻底清除肿瘤, 症状体征基本消失。术后 5 年复查, 偶尔出现颈部疼痛不适, 日常生活无明显受限, 颈椎 MR 未见肿瘤再次复发, CT 见骨愈合良好, 内固定物稳固 (图 1e)。

2 讨论

骨 BFH 是一种极罕见的原发于骨的良性间叶肿瘤, 包含成纤维细胞和组织细胞成分, 1978 年由 Dahlin 首次描述^[6], 极少累及脊柱, 脊柱最常见累及的部位是颈椎, 其次是胸椎和腰椎, 发病年龄在 6 ~ 66 岁, 平均约 28 岁, 无性别差异^[1-5]。

发生于脊柱的 BFH 的临床症状类似于其他良性

肿瘤，以非特异性疼痛为主要症状，并可引起继发于神经根和脊髓压迫的神经症状，也可侵袭椎旁组织出现相应的症状，如颈椎受压常表现为上肢感觉异常和无力，而胸、腰椎受压常表现为背部疼痛、下肢感觉

异常和无力，也可因生长缓慢而完全无症状^[1,7]，本例患者出现右侧颈肩部疼痛、上肢乏力伴麻木症状，符合脊柱BFH的一般临床表现。

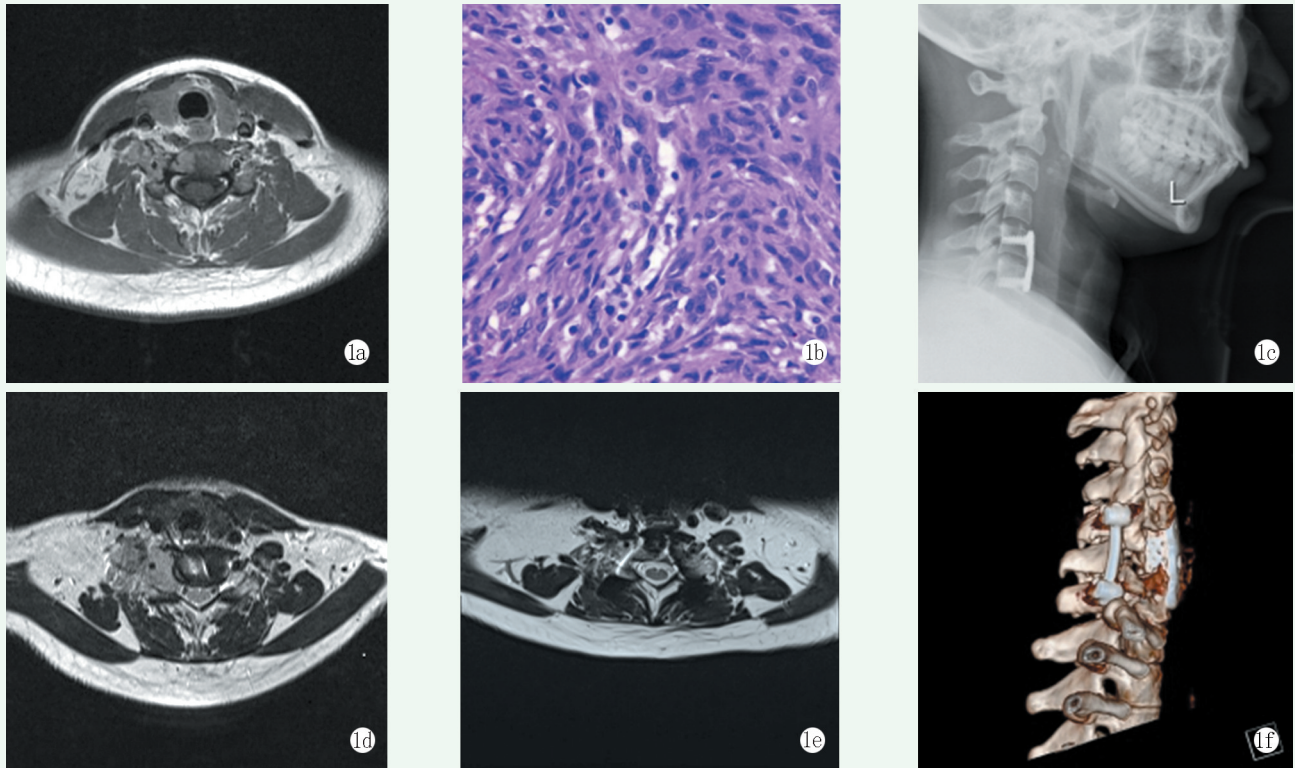


图1 患者，女，21岁，C₆ BFH 1a: 术前颈椎MR示右侧C₆椎体破坏及椎旁侵犯表现 1b: 病理检查示BFH(HE染色，×400) 1c: 术后侧位X线片示内固定在位，位置良好 1d: 术后2年颈椎MR示C_{6/7}水平右侧椎旁大小约35 mm×30 mm肿块 1e: 术后5年颈椎MR示无肿瘤复发 1f: 三维CT示骨愈合良好，内固定稳固

X线片、CT、MRI等影像学检查可以显示病灶侵袭范围、骨质破坏程度及与邻近组织关系等情况。骨BFH在影像学上表现为边界清晰的溶骨性病变，边界经常硬化，无基质矿化^[5]，而骨恶性纤维组织细胞瘤(malignant fibrous histioma, MFH)可见蚀状骨皮质破坏，局部皮质可断裂，骨破坏区内可有/无残留骨嵴，骨膜反应少见^[8]，影像学上可以较好鉴别良恶性，但需仍需与其他良性病变(如非骨化纤维瘤、巨细胞瘤、纤维性异常增生、动脉瘤性骨囊肿、成骨细胞瘤和嗜酸性肉芽肿)进行鉴别。BFH与其他累及脊柱的良性病变有共同的临床症状、影像学特征和组织学特征^[6,9]，术前诊断存在一定困难，常需病理组织穿刺检查明确诊断。

BFH由数量不等的梭形纤维组织细胞、多核巨细胞组成，可见梭形纤维母细胞排列成漩涡状或Storiform样结构。在免疫标记物方面Vimentin弥漫阳性，组织细胞及泡沫细胞CD68阳性常见，PAS和AB-PAS染色均为阴性^[5,10]，本例病理镜下表现及免

疫组化符合BFH特点。

目前骨BFH尚无统一的治疗方案，WHO骨与软组织肿瘤分类第四版(2020年)认定其生物学行为具有侵袭性^[11]，需手术清除病灶，病灶内刮除是目前作为治疗BFH推荐的手术方式，也有报道全椎体切除治疗胸椎BFH取得了良好的治疗效果^[3]，但病灶内刮除存在复发可能^[12]，既往未见病灶刮除术后复发或者恶化的报道，然而本例患者第一次手术因病灶与正常组织粘连紧密，无法完全切除，残留了部分病灶组织，为术后2年肿瘤复发二次手术留下了隐患，对于侵袭性的BFH的治疗术中应该彻底清除病灶从而避免复发，术后密切随访关注预后。因此脊柱BFH的处理应个体化和详细规划，充分评估肿瘤特点和侵袭程度，制定合适的治疗方式彻底清除病灶。总之，椎旁侵袭的颈椎BFH术后复发二次手术的病例罕见，希望本案例报道可以加强临床医师对该病的了解。

参考文献

- [1] Liu S, Zhou X, Song A, et al. Management of giant benign fibrous histiocytoma in the spinal region with pleural involvement: a case report [J]. *Medicine (Baltimore)*, 2019, 98 (39): e17144.
- [2] Grohs JG, Nicolakis M, Kainberger F, et al. Benign fibrous histiocytoma of bone: a report of ten cases and review of literature [J]. *Wien Klin Wochenschr*, 2002, 114 (1-2): 56-63.
- [3] Yang J, Zhong N, Hu J, et al. The first total vertebral involvement of benign fibrous histiocytoma: a case report and literature review [J]. *J Bone Oncol*, 2019, 20: 100274.
- [4] 赵余祥, 滕红林. 颈椎多椎体良性纤维组织细胞瘤 1 例 [J]. *放射学实践*, 2007, 22 (10): 1126-1126.
- [5] 雷贞妮, 严静东, 陈涛, 等. 骨良性纤维组织细胞瘤的影像学表现及临床病理分析 [J]. *实用医学杂志*, 2016, 32 (13): 2168-2171.
- [6] Unni KK. Dahlin's bone tumors: general aspects and data on 11 087 cases [J]. *Am J Surg Pathol*, 1996, 20 (10): 1298.
- [7] Donati F, Proietti L, Burrofato A, et al. Intraspinal extradural benign fibrous histiocytoma of the lumbar spine in a pediatric patient. Case report and literature review [J]. *Childs Nerv Syst*, 2016, 32 (8): 1549-1553.
- [8] 姜铃霞, 姚伟武, 辛鸿婕. 原发性骨恶性纤维组织细胞瘤的影像学诊断 [J]. *中国医学计算机成像杂志*, 2011, 17 (6): 521-524.
- [9] Demiralp B, Kose O, Oguz E, et al. Benign fibrous histiocytoma of the lumbar vertebrae [J]. *Skeletal Radiol*, 2009, 38 (2): 187-191.
- [10] Jo VY, Fletcher CD. WHO classification of soft tissue tumours: an update based on the 2013 (4th) edition [J]. *Pathology*, 2014, 46 (2): 95-104.
- [11] WHO Classification of Tumours Editorial Board. WHO Classification of Tumours of Soft Tissue and Bone [M]. 5th ed. Lyon, France: IARC Press, 2020.
- [12] Clake BE, Xipell JM, Thomas DP. Benign fibrous histiocytoma of bone [J]. *Am J Surg Pathol*, 1985, 9 (1): 806-815.
- (收稿:2021-05-01 修回:2021-08-20)
(同行评议专家: 于秀淳)
(本文编辑: 闫承杰)

(上接 669 页)

- [5] Ye C, Luo Z, Jin Z, et al. Chondrosarcoma of the patella: a case report [J]. *Medicine (Baltimore)*, 2017, 96 (37): e8049.
- [6] 蒋智铭, 张惠箴. 软骨肉瘤诊断难点和分级标准 [J]. *中华病理学杂志*, 2016, 45 (9): 597-600.
- [7] 苗莹莹, 张卜天, 于绍楠, 等. 原发性软骨肉瘤的 MRI 表现与组织学分级的关系 [J]. *中国实验诊断学*, 2016, 20 (9): 1528-1530.
- [8] 郝大鹏, 徐文坚, 王振常, 等. 软骨肉瘤的 CT 和 MRI 诊断 [J]. *中国医学影像技术*, 2009, 25 (1): 121-124.
- [9] Zajac AE, Kopec S, Szostakowski B, et al. Chondrosarcoma—from molecular pathology to novel therapies [J]. *Cancers (Basel)*, 2021, 13 (10): 2390.
- [10] 蔡雷, 高子芬, 黄啸原, 等. 15 例骨和软组织内间叶性软骨肉瘤临床病理分析 [J]. *中国骨肿瘤骨病*, 2005, 4 (6): 325-330.
- [11] 康成为, 黄克, 李林, 等. 左股骨远端高分化型软骨肉瘤误诊为骨巨细胞瘤 1 例 [J]. *中国矫形外科杂志*, 2016, 24 (9): 862-864.
- [12] 廖锋, 徐海荣, 牛晓辉. 单中心足部骨肿瘤 258 例临床流行病学分析 [J]. *中国骨与关节杂志*, 2015, 4 (9): 664-668.
- [13] Goedhart LM, Ploegmakers JJ, Kroon HM, et al. The presentation, treatment and outcome of periosteal chondrosarcoma in the Netherlands [J]. *Bone Joint J*, 2014, 96-B (6): 823-828.
- (收稿:2021-08-25 修回:2021-12-04)
(同行评议专家: 王守丰)
(本文编辑: 郭秀婷)