

· 个案报告 ·

右髌骨滑膜肉瘤术后复发肺转移1例报告[△]

剧松立, 蒋中艳, 李煦妍, 王 信, 洪 嵩*

(遵义医科大学附属医院骨科, 贵州遵义 563000)

关键词: 滑膜肉瘤, 髌骨, 肺转移

中图分类号: R738.1

文献标志码: C

文章编号: 1005-8478 (2022) 24-2302-03

滑膜肉瘤 (synovial sarcoma, SS) 是一种罕见的具有向上皮及间叶组织双向分化潜能的恶性肿瘤, 其好发于年轻人的膝、髌关节周围, 原发于籽骨如髌骨更罕见^[1, 2]。髌骨受累可导致伸肌机制及膝关节功能障碍, 加之此病手术复发及转移率较高, 预后较差, 因此诊疗要求更高。本研究报道1例发生在右髌骨经手术切除病灶后复发经二次手术清除病灶并重建了膝关节功能, 短期出现肺转移的SS, 现讨论其诊疗方案。

1 病例资料

患者, 男, 49岁, 因“右髌骨疼痛性包块8个月, 术后复发1个月”入院。8个月前患者无明显诱因出现右髌骨疼痛性包块, 视觉模拟评分 (VAS评分) 4~5分, 门诊行膝关节MR检查见右侧髌骨下缘骨质形态不规则, 髌骨下部类圆形、片状长T2信号, 边界清楚, 髌骨外侧见不规则长T2长T1信号, 关节面光滑连续 (图1a), 骨质破坏原因待查, 考虑肿瘤可能性较大, 建议手术进一步诊治, 但患者于2019年7月10日在外院行手术治疗, 外院诊断为右髌骨滑膜肉瘤 (具体手术方式及病理诊断不详), 术后疼痛缓解 (VAS评分2~3分), 但1个月前再次出现右髌骨疼痛性包块 (VAS评分6~7分), 包块迅速增大, 伴右膝关节活动障碍及下肢乏力, 上述症状持续加重, 为进一步诊治就诊于本院, 行膝关节MR检查见右髌骨骨质破坏, 边界不清, 周围见软组织肿块, 大小约80 mm×59 mm×107 mm (图1b); CT检查见右髌骨骨质破坏, 周围软组织肿胀, 膝关节面骨质增生硬化 (图1c)。门诊以“右髌骨滑膜肉瘤术后

复发”收入院。入院体查: 右膝关节内侧见长约15 cm陈旧性手术瘢痕, 髌前可触及大小约80 mm×90 mm不规则包块, 质硬, 活动度差, 边界不清, 局部轻压痛, 局部皮肤有色素沉着、无红肿溢脓, 破溃及血管怒张, 右下肢主要关键肌肌力4级左右, 右膝关节活动受限, 以屈曲位明显, 右下肢皮肤感觉及血运未见明显异常。

完善胸腹部CT检查及常规肿瘤标记物检验未见异常, 因右髌骨疼痛性肿块伴膝关节活动受限, 具备手术指征, 需手术切除病灶以改善体征及恢复功能, 于2020年4月2日在本院行“右髌骨肿瘤切除、韧带重建、瘤腔灌洗术”, 术中见右髌骨病灶大小约100 mm×55 mm×60 mm, 质较硬, 累及前方及上下软组织, 组织分界不清, 髌股关节面尚完整, 其余骨质破坏严重, 伴病理性骨折, 骨折移位明显, 并见血肿形成。术中切断肿瘤累及的肌肉、韧带及滑膜组织, 完整切除肿瘤, 热蒸馏水及洛铂浸泡手术区域, 取自体同侧髌胫束重建前方髌韧带, 2枚锚钉及特殊缝线加压固定。术后病理镜下可见梭形细胞呈束带状或交错紧密排列, 胞界欠清, 局部细胞间可见大小不一裂隙样腔隙, 存在明显异形性和病理性核分裂象, 细胞组织形态上难以与其他梭形细胞肿瘤进行区别诊断; 进一步免疫组化示肿瘤细胞Vimentin (+++), CD56 (+++), CD99 (++)、CD21 (+)、Bcl-2 (+)、CK (+)、CK19 (局部区域+)、SATB2(+/-)、CD68 (PGM1) (+/-)、CAM5.2 (-)、CD23 (-)、CD34 (-)、CK7 (-)、Desmin (-)、EMA (-)、H-Caldesmon (-)、HMB45(-)、Melan-A (-)、S100 (-)、SMA (-)、STAT6 (-), 建议做SS18-SSX基因融合检测明确诊断 (图1d)。最终诊断: 右髌骨滑膜肉瘤

DOI:10.3977/j.issn.1005-8478.2022.24.22

△基金项目: 国家自然科学基金项目 (编号: 31960209)

作者简介: 剧松立, 主治医师, 研究方向: 骨肿瘤疾病, (电话) 13885268589, (电子信箱) zmcjusongli@163.com

* 通信作者: 洪嵩, (电话) 13984965988, (电子信箱) hongsong_orthop@163.com

术后复发。复查见右膝关节术后改变(图1e),术后疼痛缓解及膝关节功能部分恢复,考虑滑膜肉瘤易局部复发及远处转移特点,拟行结合放疗的综合治疗,但患者拒绝后续治疗出院。术后4个月出现间断胸痛、干咳等不适表现,完善胸部CT检查见双肺多发

结节状高密度影,左上肺见最大结节约15 mm×15 mm,二次术前胸部CT无特殊异常,因此考虑双肺多发转移瘤(图1f),建议住院以明确诊断并行治疗,但患者仍拒绝进一步诊疗,后期失访,远期预后不详。

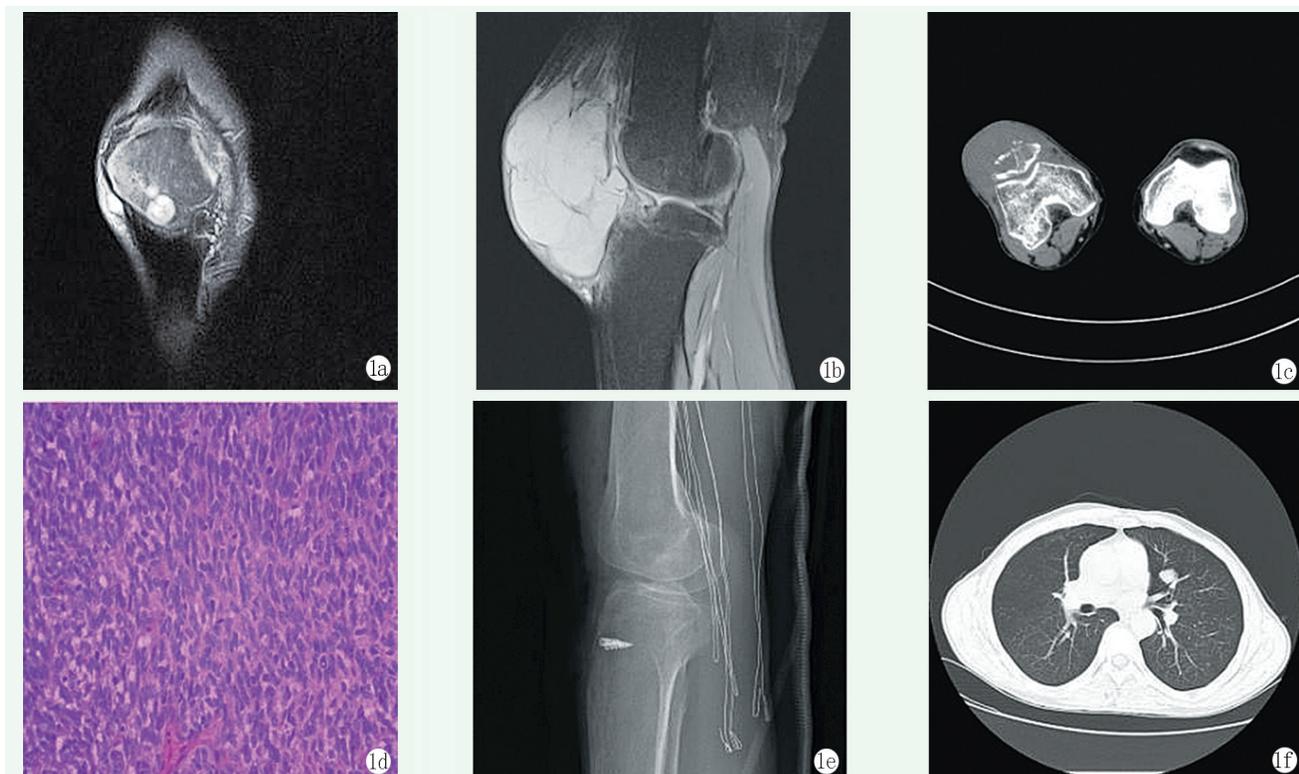


图1 本例患者,男,49岁,右髌骨滑膜肉瘤,行右髌骨肿瘤切除、韧带重建、瘤腔灌洗术治疗 1a:第1次术前MRI示右侧髌骨下缘形态不规则骨质破坏 1b:第2次术前MRI见右髌骨边界不清骨质破坏,周围软组织肿块形成 1c:第2次术前CT示右髌骨骨质破坏,膝关节面骨质增生硬化 1d:病理镜下见束带状或交错紧密排列梭形细胞,存在明显异形性和病理性核分裂象(HE×100) 1e:第2次术后侧位X线片示右膝关节术后改变,右髌骨缺失 1f:第2次术后4个月胸部CT见左上肺多发结节

2 讨论

SS约占全部软组织肉瘤的10%,其好发于膝、髌关节周围深部软组织,偶发于肺、腹壁及头颈等,男女发病无明显差异^[1,2]。髌骨是一块籽骨,原发肿瘤约占所有骨肿瘤的0.06%,最常见的原发肿瘤是成软骨细胞瘤和巨细胞瘤,还包括成骨细胞瘤、动脉瘤性骨囊肿、恶性纤维组织细胞瘤和淋巴瘤等^[3],但原发生于髌骨的SS罕见。

SS与很多肿瘤在临床特征、影像学表现及组织形态学等类似,导致SS的精确诊断具有一定的难度,免疫组织化学及分子遗传学检查可明确诊断。90%以上SS出现染色体t(X;18)(p11.2;q11.2)易位,形成SS18-SSX融合基因,用细胞遗传学及分子生物学方法检测可检测出SS18-SSX融合基

因,对SS的诊断具有较强的灵敏度和特异性,目前作为诊断SS的金标准^[4]。

SS的治疗方案需综合肿瘤分期和预后因素特点,采取手术结合放化疗、靶向治疗、免疫治疗在内的综合治疗。SS的5年和10年的生存率是约60%和50%,约50%的SS可发生远处转移,最易转移部位是肺(80%),放疗可增加局部控制率并预防复发,手术结合放疗可使5年和10年的局部控制率达到90%和88%。预后不良的因素包括肿瘤>5 cm、组织学分化程度高、位置深、合并坏死、术后未放疗、出现远处转移和手术时未能广泛切除等,达到切缘阴性和术后放疗是预防局部复发的最主要因素,而达到切缘阴性依赖于手术技巧、部位、肿瘤的大小和深度^[2,5-8]。

本例患者病灶累及范围广,手术需要完全切除髌骨,同时切除四头肌腱远端部分、髌腱近端部分

和覆盖髌筋膜,势必对膝关节的稳定性及活动性造成严重影响,因此有必要重建膝关节伸肌机制及稳定性。伸肌机制重建的几种方法如Z形/交叉成形、股四头肌成形、同侧自体腱瓣移植术及同种异体跟腱移植可取得良好的效果,因自体肌腱移植具有易获取、成本低、强度好、无疾病传播和移植物排斥反应等优点,可作为重建伸肌机制的首选材料^[3]。

本例患者第1次手术可能未达到切缘阴性,加之未进行结合放疗的综合治疗进而导致短期复发,虽然再次手术完整切除病灶并采用同侧自体髂胫束重建膝关节功能,但因患者仍拒绝综合治疗,因此在短期内出现肺转移导致远期预后差。由此可见虽然髌骨SS罕见,但手术结合综合治疗对避免局部复发及远处转移很有必要,因此临床医师需充分评估病情特点,为患者提供更精准的诊疗,以达到良好预后。

参考文献

- [1] Suurmeijer AJH, Ladanyi A, Nielsen TO. Synovial sarcoma [M]// WHO Classification of Tumours Editorial Board. WHO classification of tumours of soft tissue and bone tumours. 5th ed. Lyon: IARC Press, 2020: 290-293.
- [2] 刘平平,张兵林,笕冀平.滑膜肉瘤的研究进展[J].中国组织

化学与细胞化学杂志, 2016, 25 (3): 280-284.

- [3] Valsalan RM, Zacharia B. Ewings sarcoma of patella: a rare entity treated with a novel technique of extensor mechanism reconstruction using tendoachilles auto graft [J]. World J Orthop, 2015, 6 (9): 744-749.
- [4] 程浩,张宏图,石素胜.原发性乳腺双相型滑膜肉瘤一例[J].中华病理学杂志, 2021, 50 (6): 682-684.
- [5] Shi W, Indelicato DJ, Morris CG, et al. Long-term treatment outcomes for patients with synovial sarcoma: a 40-year experience at the University of Florida [J]. Am J Clin Oncol, 2013, 36 (1): 83-88.
- [6] Yaser S, Salah S, Al-Shatti M, et al. Prognostic factors that govern localized synovial sarcoma: a single institution retrospective study on 51 patients [J]. Med Oncol, 2014, 31 (6): 958.
- [7] 扈文海,韩永台,顾振芳,等.滑膜肉瘤的大小初次治疗方法与其预后的关系(附41例报告)[J].中国矫形外科杂志, 2004, 12 (13): 975-976.
- [8] Stegmaier S, Leuschner I, Poremba C, et al. The prognostic impact of SYT-SSX fusion type and histological grade in pediatric patients with synovial sarcoma treated according to the CWS (Cooperative Weichteilsarkom Studie) trials [J]. Pediatr Blood Cancer, 2017, 64 (1): 89-95.

(收稿:2022-08-23 修回:2022-11-08)

(同行评议专家:王守丰)

(本文编辑:郭秀婷)

(上接 2301 页)

为进针点,对于C₃椎弓根,依据术前三维重建影像上的定位,同时参考侧块外上象限中点作为进针点,内倾角均采用术前CT测量角度,用磨钻开口后,用手钻缓慢钻入,注意全程良好的手感,按照以上方法4枚椎弓根螺钉均一次完成,取得了满意的疗效。另外,有文献报道,对于上颈椎骨折,螺钉长度不合适,支具保护时间小于3个月,未采用正确的康复指导,易导致术后内固定松动^[7,8]。因此,该患者寰椎选用28mm长度椎弓根螺钉、C₃选用24mm椎弓根螺钉,术后第2d拔除引流管后就开始下地行走,减少卧床时间长等相关并发症,头颈胸支具固定3个月,既有坚强的内固定,又有牢固的外固定,取得了满意的疗效。

综上所述,对于上颈椎骨折患者,应常规行颈部椎动脉CTA检查,了解血管有无异常及其与椎弓根的关系,术前在CT上对患者椎弓根进行准确测量,术中仔细操作,徒手椎弓根螺钉技术也可以取得满意的临床疗效。

参考文献

- [1] 林达生,黄尊贤,林斌,等.上颈椎骨折脱位并椎动脉损伤的外

科治疗[J].中华创伤骨科杂志, 2017, 19 (3): 219-224.

- [2] Fourman MS, Shaw JD, Vaudreuil NJ, et al. Cervical spine fractures: who really needs CT angiography [J]. Spine, 2019, 44 (23): 1661-1667.
- [3] Ribaute C, Darcourt J, Patsoura S, et al. Should CT angiography of the supra-aortic arteries be performed systematically following attempted suicide by hanging [J]. J Neuroradiology, 2019, 30 (19): 160-169.
- [4] Harati A, Oni P. Three-point atlantoaxial fixation with C_{1/2} transarticular screws and C₁ lateral mass screws [J]. J Orthop Surg, 2019, 27 (2): 1-4.
- [5] 周建国,段永壮.3D打印导向器椎弓根螺钉固定寰枢椎骨折脱位[J].中国矫形外科杂志, 2021, 29 (12): 1087-1090.
- [6] 叶文斌,林达生,王江泽,等. Quadrant通道下经椎旁肌间隙入路椎弓根螺钉治疗上颈椎骨折[J].中国矫形外科杂志, 2020, 28 (2): 103-107.
- [7] 李强,王家宝,周丙玲,等.颈椎骨折脱位患者术后内固定松动的危险因素探讨及建议[J].颈腰痛杂志, 2020, 41 (3): 281-285.
- [8] Squarza S, Uggetti CL, Politi MA, et al. C_{1/2} fractures in asymptomatic elderly patients with minor head trauma: evaluation with a dedicated head CT protocol [J]. Radiol Bras, 2019, 52 (1): 17-23.

(收稿:2021-11-24 修回:2022-06-19)

(同行评议专家:侯洋 黄博)

(本文编辑:闫承杰)