

· 个案报告 ·

疑似“集簇现象”1例报告

李明阳, 张大鹏*, 强晓军, 崔志栋, 王静, 徐辰, 徐鹏

(濮阳市油田总医院骨一科, 河南濮阳 457001)

关键词: 集簇现象, 压缩性骨折, 骨质疏松, 垂体瘤病

中图分类号: R683.2

文献标志码: C

文章编号: 1005-8478 (2023) 11-1052-03

脊柱骨折“集簇现象”(cluster phenomenon)即8个月内出现至少5个节段的自发性胸椎和(或)腰椎骨折^[1], 该类现象与骨质疏松关系密切。本文系统地回顾本院1例腺垂体瘤切除术后的患者而引发的疑似“集簇现象”的诊疗过程, 虽然在本院多次行PKP后, 其疼痛症状减轻, 但患者最终死亡。因此, 笔者通过本篇病例报告来分析诱发该病的相关因素以及防治方案, 为后续的临床诊疗工作提供思路以及宝贵的经验。

1 病例资料

患者, 女, 80岁。2021年4月无明显诱因出现L₂椎体压缩性骨折(1c), 入院后检查其骨密度, T值为-2.6, 各项骨代谢指标: 碱性磷酸酶(ALP) 45 U/L, 甲状旁腺激素(PTH) 70.0 pg/ml, 总25-羟维生素D 28.4 ng/ml, 1,25-双羟维生素D₃ 23.9 ng/ml, 骨钙素 2.0 nmol/L, 凝血酶原时间(PT) 11.2 s, 血浆D-二聚体: 1.2 mg/L, 心电图及胸片未见异常。患者诉疼痛尚可忍受, 沟通后采取保守治疗, 症状逐渐缓解。2021年9月30日诉胸背部疼痛, 生活质量明显受影响, 遂行胸腰椎MRI示: T₆椎体压缩性骨折(1a)。入院检查骨密度, T值为-2.7, 各项骨代谢指标: 碱性磷酸酶(ALP) 48 U/L, 甲状旁腺激素(PTH) 71.2 pg/ml, 总25-羟维生素D 26.2 ng/ml, 1,25-双羟维生素D₃ 22.9 ng/ml, 骨钙素 2.0 nmol/L, 凝血酶原时间(PT) 10.8 s, 血浆D-二聚体: 1.0 mg/L, 心肺功能检查未见异常。与患者沟通多种治疗方案后决定行“经皮穿刺球囊扩张椎体成形术(percutaneous kyphoplasty, PKP)”, 术后患者胸背部疼痛明显改善(图1b), 并给予骨质疏松宣教及规范骨质

疏松治疗。2021年10月12日, 患者无明显诱因再次出现胸背部疼痛, 行胸腰椎MRI示: T₃椎体压缩性骨折(1c)。各项骨代谢指标: 碱性磷酸酶(ALP) 50 U/L, 甲状旁腺激素(PTH) 68.8 pg/ml, 总25-羟维生素D 27.4 ng/ml, 1,25-双羟维生素D₃ 23.9 ng/ml, 骨钙素 1.9 nmol/L, 凝血酶原时间(PT) 10.8 s, 血浆D-二聚体: 1.0 mg/L, 心肺功能检查未见异常。再次行PKP治疗, 术后恢复良好(1d)。患者短时间内二次骨折, 引起作者注意, 追问病史发现2013年因诊断为“甲状腺乳头状癌”行“甲状腺次全切除术”, 术后长期口服左甲状腺素片。2018年因诊断为“垂体肿瘤”, 行“鞍区占位病变切除术”, 术后长期口服泼尼松龙片。故考虑短时间内多次骨折的诱因可能是长期口服激素类药物导致骨质疏松^[2], 不排除“集簇现象”发生, 化验其激素水平: 游离甲碘酸(FT₃): 3.1 pmol/L, 游离甲状腺素(FT₄): 13.0 pmol/L, 促甲状腺素: 0.0 mIU/L, 告知该患者可能短时间内会再次发生骨折。2021年10月19日再次出现胸背部疼痛伴起身困难, 行胸腰椎MRI检查示: T₇椎体压缩性骨折(图1e)。入院后检查其血液指标以及心肺功能未见明显异常, 再次行PKP治疗(图1f), 术后疼痛症状缓解。2021年10月25日再次出现胸背部疼痛, 行MRI途中病情突然发生变化, 出现血压急剧降低、周身抽搐、牙关紧闭伴舌咬伤, 最终出现昏迷, 经抢救后转入重症监护室治疗, 行头部CT及脑梗标志物等检查排除心脑血管意外。10月26日病情突然恶化, 心率下降至30次/min, 血压降至0, 给予心肺复苏、肾上腺素等抢救药物无效后, 宣布临床死亡。诊断引发诱因可能是: (1)呼吸循环衰竭; (2)激素危象?

DOI:10.3977/j.issn.1005-8478.2023.11.20

△基金项目:河南省医学科技攻关计划项目(编号:LHGJ20191374)

作者简介:李明阳, 硕士研究生, 研究方向:脊柱外科,(电话)13525266997,(电子信箱)13525266997@163.com

*通信作者:张大鹏,(电话)15539387017,(电子信箱)zdp_2001@126.com

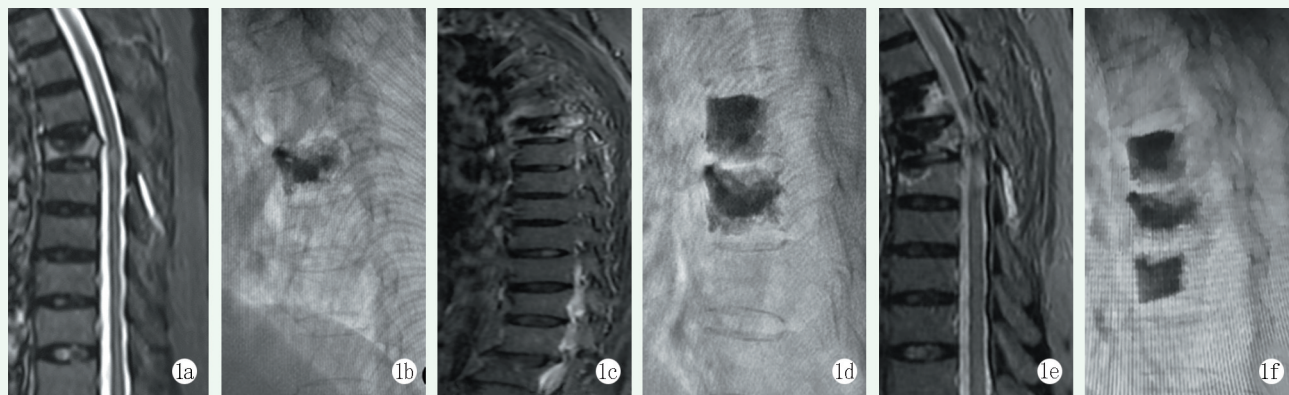


图1 本例患者,女,80岁,胸腰椎压缩性骨折,行PKP治疗 1a:第1次术前胸椎MRI示T₆椎体T2压脂像呈高信号 1b:第1次术后胸椎侧位X线片示T₆骨水泥填充后表现 1c:第2次术前胸椎MRI示T₃椎体T2压脂像呈高信号,L₂椎体提示楔形变 1d:第2次术后胸椎侧位X线片示T₃骨水泥填充后表现 1e:第3次术前胸椎MRI示T₇椎体T2压脂像呈高信号 1f:第3次术后胸椎侧位X线片示T₇骨水泥填充后表现

2 讨论

该患者短时间内连续4次椎体骨折,终末时出现胸背部剧痛,考虑再次椎体骨折可能,但病情原因未行影像学检查,因此最终考虑为:可疑脊柱骨折集簇现象。针对该病患,虽然用微创手术的方式多次为患者解决病痛,但最终结局差。为指导今后工作,总结如下。

直接及间接死亡原因分析:虽然患者最终死于呼吸循环衰竭,但该患者曾行腺垂体手术,考虑可能由腺垂体功能减退而引发的腺垂体危象,但当出现病危时作者首先考虑的是心脑血管意外,未及时行激素水平检查。因此,一旦考虑腺垂体病导致的集簇现象,要及时化验其相关实验室指标,才能避免类似情况的发生。

发生“集簇现象”的原因:(1)垂体瘤病(腺垂体病):腺垂体瘤病患者体内的泌乳素可通过激活RANKL/OPG途径影响骨重吸收^[3],使脊椎骨折的发生率显著提高^[4,5]。患者早期诊断为腺垂体瘤病,在第2次骨折时,作者已考虑到由激素异常引起的集簇现象不可忽略。因此,类似的病例应及时排查该因素,将其导致二次骨折的可能性降至最低;(2)骨水泥因素:椎体强化注入骨水泥后椎体的强度跟硬度发生了改变,骨折椎体及邻近椎体的应力均较术前明显增加^[6],易导致邻近椎体骨折(adjacent vertebral fracture, AVF)。但该术后X线片显示各病椎中骨水泥分布均匀,无椎间盘渗漏,且术中用量<4 ml,故考虑骨水泥因素引起AVF的可能性较小;(3)骨质疏松:引发OVCFs主要病因为原发性和继发性,该患者为老年女性且已绝经,雌激素分泌严重不足时

破骨细胞活性增加,导致大量骨质丢失^[7],且患者长期口服激素类药物,激素类药物容易影响Wnt/ β -catenin^[8]、OPG/RANK/RANKL等信号通路从而增加破骨活动^[9]。因此该患者为混合型骨质疏松,是导致集簇现象发生的主要原因。

集簇现象诊治:集簇现象的治疗方案目前无统一标准,文献显示及时手术和骨质疏松的治疗尤其重要^[10]。但作者认为符合其关键因素(骨质疏松、短时间内二次骨折)并排除医源性相关因素后及时诊断可疑集簇现象更为重要,且内科治疗应同步于外科手术治疗。对于该类可疑集簇现象的患者,入院后应详尽询问其既往史,必要时行上述激素水平实验室检查,排除继发性骨质疏松可能,并行骨代谢相关指标检查来明确原发性骨质疏松严重程度。术后应给予患者抗骨质疏松药物治疗,多例报道均表示术后治疗骨质疏松可有效阻止再骨折的发生^[11]。但该患者并没有取得良好的治疗效果。因此,治疗骨质疏松的同时原发病的诊治也应置于首位。

综上所述,临床工作中,遇到短时间内多处压缩性骨折的患者要引起充分的重视,及时考虑集簇现象的可能,并分析其病因,第一时间收集是否有长期口服激素史、椎体压缩性骨折史、PKP术后史以及其他疾病引起的全身激素功能紊乱史等,在外科手术及骨质疏松治疗的同时应明确是否存在激素水平异常,警惕激素危象的发生。

参考文献

- [1] Kaplan FS, Scherl JD, Wisneski R, et al. The cluster phenomenon in patients who have multiple vertebral compression fractures [J]. Clin Orthop Relat Res, 1993, 297 (297): 161-167.

(下转 1056 页)

存在深部IMH的可能,推荐行X线和MRI进行综合评估,做IMH的排除或确诊,确保人工髋关节置换的手术安全;(5)青年髋关节骨性关节炎患者,如髋关节发育正常,同时无长期大量激素服用史及酗酒史,建议常规进行MRI检查。在排除血管瘤等病因之前,不建议盲目进行人工髋关节置换术^[11]。

参考文献

- [1] 宣勇,吴迪,金鞞,等.全髋关节置换术中动脉损伤1例报告[J].中国矫形外科杂志,2021,29(12):1148-1149.
- [2] Koltsidopoulos P, Tsea M, Kafki S, et al. Intramuscular haemangioma of the levator anguli oris: a rare case [J]. Acta Otorhinolaryngol Ital, 2013, 33 (5) : 350-352.
- [3] Shallow TA, Eger SA, Wagner FB. Primary hemangiomas of skeletal muscle [J]. Ann Surg, 1944, 119 (5) : 700-740.
- [4] Wierzbicki JM, Henderson JH, Scarborough MT, et al. Intramuscular hemangiomas [J]. Sports Health, 2013, 5 (5) : 448-454.
- [5] Cheng J, Slavin RE, Gallagher JA, et al. Expression of vascular endothelial growth factor and receptor flk-1 in colon cancer liver metastases [J]. J Hepatobil Panc Surg, 2004, 11 (3) : 164-170.
- [6] Zengin AZDP, Celenk PDP, Sumer APDP. Intramuscular hemangioma presenting with multiple phleboliths: a case report [J]. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol, 2013, 115 (1) : e32-e36.
- [7] Buetow PC, Kransdorf MJ, Moser JRP, et al. Radiologic appearance of intramuscular hemangioma with emphasis on MR imaging [J]. Am J Roentgenol, 1990, 154 (3) : 563.
- [8] Suh JS, Hwang G, Hahn SB. Soft tissue hemangiomas: MR manifestations in 23 patients [J]. Skeletal Radiol, 1994, 23 (8) : 621-625.
- [9] Greenspan A, McGahan JP, Vogelsang P, et al. Imaging strategies in the evaluation of soft-tissue hemangiomas of the extremities: correlation of the findings of plain radiography, angiography, CT, MRI, and ultrasonography in 12 histologically proven cases [J]. Skeletal Radiol, 1992, 21 (1) : 11-18.
- [10] Scott JE. Haemangiomas in skeletal muscle [J]. Br J Surg, 1957, 44 (187) : 496-501.
- [11] Léauté-Labrèze CD. Propranolol for severe hemangiomas of infancy [J]. New Engl J Med, 2008, 358 (24) : 2649-2651.

(收稿:2022-07-08 修回:2022-12-27)
(同行评议专家:秦宏敏 刘克敏)

(本文编辑:郭秀婷)

(上接 1053 页)

- [2] 张杨,李秀兰,王学谦,等.甲基泼尼松龙冲击疗法引发骨坏死及骨质疏松的血清学研究[J].中华骨科杂志,2010,30(1):79-83.
- [3] 黄鑫,孟国林,刘建.免疫因素与骨质疏松[J].中国骨质疏松杂志,2010,16(3):225-228.
- [4] Tritos Nicholas A. Unreplaced sex steroid deficiency, corticotropin deficiency, and lower IGF-I are associated with lower bone mineral density in adults with growth hormone deficiency: a KIMS database analysis [J]. J Clin Endocrinol Metab, 2011, 96 (5) : 1516-1523.
- [5] Jaswal Jasbir, Crook Juanita. The role of intermittent androgen deprivation therapy in the management of biochemically recurrent or metastatic prostate cancer [J]. Curr Urol Rep, 2015, 16 (3) : 11.
- [6] 张大鹏,毛克亚,强晓军,等.椎体增强术后骨水泥分布形态分型及其临床意义[J].中华创伤杂志,2018,34(2):130-137.
- [7] 李海东,蒋雷生,戴力扬.雌激素在骨关节炎及骨质疏松中的作用研究[J].中国矫形外科杂志,2010,18(6):474-478.
- [8] 余佩沅,任辉,沈耿杨,等.激素性骨质疏松症发病机制的研究进展[J].中国骨质疏松杂志,2018,24(7):975-980.
- [9] Kenkre JS, Bassett J. The bone remodelling cycle [J]. Ann Clin Biochem, 2018, 55 (3) : 308-327.
- [10] 邱贵兴,裴福兴,胡侦明,等.中国骨质疏松性骨折诊疗指南(骨质疏松性骨折诊断及治疗原则)[J].中华骨与关节外科杂志,2015,5(5):371-374.
- [11] 刘明明,程建,黄桂成,等.唑来膦酸与PKP治疗骨质疏松性椎体压缩骨折[J].中国矫形外科杂志,2015,23(22):2017-2020.

(收稿:2022-05-13 修回:2022-11-11)
(同行评议专家:杨建东 鲁延亭 王献印)

(本文编辑:闫承杰)