

· 个案报告 ·

髋色素绒毛结节性滑膜炎漏诊1例报告

李志恒^a, 张亚霖^b, 于洪波^c, 林乐琴^b, 刘晓东^b, 姜红江^b, 于弘^b, 严伟^{b*}

(山东省文登整骨医院, a. 四肢创伤科; b. 骨关节科; c. 放射科, 山东威海 264400)

关键词: 髋关节, 色素沉着绒毛结节性滑膜炎, 漏诊, 股骨头坏死, 全髋关节置换术

中图分类号: R687 文献标志码: C 文章编号: 1005-8478 (2024) 16-1531-03

Misdiagnosis of pigmented villonodular synovitis in the hip: a case report // LI Zhi-heng^a, ZHANG Ya-lin^b, YU Hong-bo^c, LIN Le-qin^b, LIU Xiao-dong^b, JIANG Hong-jiang^b, YU Hong^b, YAN Wei^b. a. Department of Limb Trauma, b. Department of Bone and Joint Surgery, c. Department of Radiography, Wendeng Orthopaedic Hospital of Shandong Province, Weihai 264400, China

Key words: hip, pigmented villonodular synovitis, misdiagnosis, femoral head necrosis, total hip arthroplasty

色素沉着绒毛结节性滑膜炎 (pigmented villonodular synovitis, PVNS) 是一种罕见良性增生性疾病, 常侵袭大关节, 多为单侧发病, 主要发生在膝关节。其病理特点包括异常滑膜组织增生, 呈绒毛状结节, 滑膜组织多核巨噬细胞富含铁血黄素, 可使病变组织呈黄棕色^[1]。髋关节 PVNS 较膝关节少见, PVNS 引起滑膜异常增生和色素沉着, 导致关节积液和肿胀, 破坏关节软骨, 影响关节功能。目前治疗方法主要包括滑膜切除和终末期病变的全髋关节置换术, 效果良好^[2]。本院收治了1例初诊为股骨头坏死的患者, 行全髋关节置换术中发现髋关节内绒毛状滑膜增生, 术后病理证实为 PVNS, 现报道如下, 为临床上治疗这一类疾病提供经验。

1 病例资料

患者, 男, 53岁, 因“无明显诱因右髋部疼痛、活动不利9个月”入院。首次出现症状为本次住院9个月前, 门诊行MRI检查示双侧股骨头坏死(图1a), 见股骨头无明显塌陷, 右髋关节腔内积液较多, 滑膜增生, 与患者交代病情及建议治疗方案如髓心减压、死骨刮除植骨等, 患者考虑后要求行药物保守治疗, 此次症状加重来诊, 入院体格检查: 生命体征平稳, 右髋略肿胀, 皮温不高, 腹股沟中点压痛阳性, 右髋关节屈曲、旋转、外展受限, “4”字试验阳性, 生理反射存在, 病理反射未引出。足背动脉搏

动好, 趾动及感觉无特殊异常。右髋关节疼痛VAS评分9分, 右髋关节Harris评分19分。既往体健, 有吸烟饮酒史。结合入院后X线片检查(图1b), 入院诊断: 双侧股骨头坏死。术前常规化验检查未见明显异常, 行右侧全髋关节置换术, 术中切开关节囊见大量黄色略浑浊的关节积液, 留取关节液行细菌培养, 髋臼周围及股骨头颈处大量绒毛结节状滑膜增生, 股骨头破坏并部分吸收, 彻底清理关节周围滑膜及可疑病变组织(图1c)。大量盐水冲洗, 行常规全髋关节置换, 术后细菌培养结果阴性, 术后滑膜组织病理诊断为PVNS(图1d), 术后X线片(图1e)见假体位置好, 无明显松动等异常。患者恢复良好, 髋关节功能良好, 术后1个月复查右髋关节疼痛VAS评分为2分, 右髋关节Harris评分64分。3年后因左侧股骨头坏死症状加重行全髋关节置换术, 术中未见异常, 无滑膜病变, 右髋X线片也未见假体松动等异常。该病例报告由山东省文登整骨医院医学伦理委员会批准, 患者知情同意。

2 讨论

PVNS是滑膜的一种增生性病变, 分为局限性和弥漫性。弥漫性病变具有局部侵袭性, 常伴有多次复发和恶性潜能^[3]。髋关节PVNS的发病率约占其总发病率的15%, 髋弥漫绒毛型最常见, 约占80%, 通常表现出严重的临床症状, 并且治疗后复发率较

高^[4]。本例患者的股骨头骨组织在 9 个月内迅速坏死，符合快速进展型股骨头坏死的特征^[5]，患者常表现为髋关节的剧烈疼痛和活动受限，逐渐加重并影响日常活动，疼痛可能向臀部、大腿或膝盖放射。文献

报道股骨头坏死快速进展的病因尚不清楚，可能与股骨头血液供应障碍、免疫系统异常、代谢紊乱以及慢性炎症等因素有关^[6]。

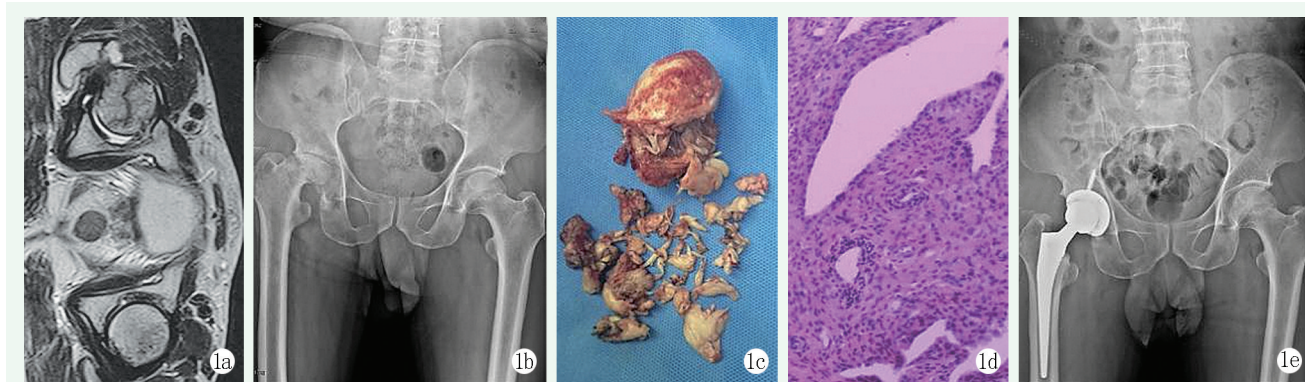


图 1. 患者男性，53 岁。1a: 术前 9 个月首次出现症状时门诊 MRI，双侧股骨头病变，股骨头无明显塌陷，右髋关节腔内积液较多，滑膜增生；1b: 术前正位 X 线片可见右侧股骨头塌陷，左侧股骨头病变较轻；1c: 右全髋关节置换术中取出股骨头，见头颈区大量绒毛结节状滑膜增生包裹；1d: 滑膜病变组织的病理切 HE 染色，可见单核基质细胞、少量淋巴细胞和分散的多核巨细胞，含铁血黄素（棕褐色）沉积，病理诊断为 PVNS；1e: 术后髋关节正位 X 线片可见假体位置好，无松动。

Figure 1. A 53-year-old male. 1a: The MRI at the first onset of symptoms 9 months before surgery showed bilateral femoral head lesions, no obvious collapse of the femoral head, more fluid accumulation in the right hip with synovial hyperplasia; 1b: Radiographs preoperatively showed collapse of the right femoral head, while mild lesions involved the left femoral head; 1c: The femoral head harvested in total hip arthroplasty of the right hip, a large number of villonodular synovial hyperplasia was observed around the head and neck area; 1d: HE staining of synovial lesions showed mononuclear stromal cells, a small number of lymphocytes and scattered multinucleated giant cells, with hemosiderin (brown) deposits, which was pathologically diagnosed as PVNS; 1e: Postoperative X-ray revealed the prosthesis in good position without loosening.

PVNS 的诊断主要依靠 MRI，由于滑膜组织内含铁血黄素的沉积，早期含量较低时 MRI 表现为 T2 高信号和 T1 低信号。随着病情的发展，关节内出血的吸收导致含铁血黄素颗粒不断沉积，MRI 表现为 T2 低信号和 T1 等或略高信号^[7]。在本例中，初诊 MRI 显示双侧股骨头坏死，右侧髋关节腔内积液较多，滑膜增生，未见 PVNS 的表现。当时右侧髋关节滑膜增生和腔内积液被认为是股骨头坏死的炎症反应。9 个月后入院治疗，术前正侧位 X 线片显示右侧股骨头坏死，股骨头形态基本消失，左侧股骨头坏死较轻。然而，未进行 MRI 进一步鉴别诊断，这是漏诊 PVNS 的主要原因。关于股骨头坏死和 PVNS 的关系，相关研究尚不充分。有人认为股骨头坏死后的炎症反应导致 PVNS 的发生，或者股骨颈周围的 PVNS 导致股骨头滋养动脉损伤引起股骨头缺血坏死^[8]，还有人认为 PVNS 直接侵蚀股骨头导致坏死^[9]。对于本例患者，根据病史和影像学表现，初步诊断为右侧快速进展型股骨头坏死。左侧虽然存在坏死，但病变进展较慢，说明右侧股骨头坏死的快速进展可能与 PVNS 有关。因此，笔者推测该患者

可能先发生双侧股骨头缺血性坏死（酒精性），而右侧坏死后的炎症反应较强，炎性因子刺激导致滑膜异常增生，形成了 PVNS。在股骨头颈区弥漫生长的绒毛滑膜侵犯了旋股内、旋股外动脉的分支，严重影响了股骨头的血供，加速了股骨头坏死的进展，导致坏死塌陷加速，滑膜结节状滑膜侵蚀和破坏了关节囊内和坏死股骨头的骨质，从而出现骨质消失。由于病史较短，髋臼侧尚未明显受累，因此在 X 线片上显示出这种表现，这与相关文献报道的推论一致。

治疗方面，髋关节 PVNS 的手术治疗包括完全滑膜切除术和关节置换术^[2]。在本例中，由于股骨头坏死并塌陷吸收，选择全髋关节置换术，术中完全切除病变滑膜组织，并进行广泛清理。术后随访显示，患者髋关节功能良好，3 年内未见复发。综上所述，对于快速进展型股骨头坏死的病例，应考虑将 PVNS 作为一种鉴别诊断，并进行 MRI 检查或者关节穿刺取病理以辅助诊断，才能更好地向患者解释术后可能的复发、假体松动等并发症。

参考文献

- [1] Xu C, Guo H, Bell KL, et al. Pigmented villonodular synovitis does not influence the outcome following cementless total hip arthroplasty using ceramic-on-ceramic articulation: a case-control study with middle-term follow-up [J]. *J Orthop Surg Res*, 2018, 13 (1): 294. DOI: 10.1186/s13018-018-0996-6.
- [2] Tibbo ME, Wyles CC, Rose PS, et al. Long-term outcome of hip arthroplasty in the setting of pigmented villonodular synovitis [J]. *J Arthroplasty*, 2018, 33 (5): 1467-1471. DOI: 10.1016/j.arth.2017.12.030.
- [3] 洪志楠, 何伟. 髋关节色素沉着绒毛结节性滑膜炎的研究进展 [J]. *中国矫形外科杂志*, 2016, 24 (9): 817-821. DOI: 10.3977/j.issn.1005-8478.2016.09.10.
Hong ZN, He W. Pigmented villonodular synovitis of hip joint: a literature review [J]. *Orthopedic Journal of China*, 2016, 24 (9): 817-821. DOI: 10.3977/j.issn.1005-8478.2016.09.10.
- [4] 何伟, 方斌, 张庆文, 等. 髋关节色素沉着绒毛结节性滑膜炎 31 例临床特点分析 [J]. *中国矫形外科杂志*, 2002, 10 (8): 766-769.
He W, Fang B, Zhang QW, et al. Clinical characteristics analysis of 31 cases of pigmented villous nodular synovitis of the hip joint [J]. *Orthopedic Journal of China*, 2002, 10 (8): 766-769.
- [5] Man LC, Yeung YK, Ho ST, et al. Rapidly progressive osteoarthritis of hip: establishing and validating diagnostic criteria in the Southeast Asian population [J]. *Arthroplasty*, 2022, 4 (1): 5. DOI: 10.1186/s42836-021-00107-2.
- [6] Hu L, Zhang X, Kourkoumelis N, et al. The mysteries of rapidly destructive arthrosis of the hip joint: a systemic literature review [J]. *Ann Palliat Med*, 2020, 9 (3): 1220-1229. DOI: 10.21037/apm.2020.03.17.
- [7] 刘宁, 赵承斌. 髋关节色素沉着绒毛结节性滑膜炎的诊断与治疗研究进展 [J]. *中国矫形外科杂志*, 2010, 18 (19): 1622-1625.
Liu N, Zhao CB. Research progress in the diagnosis and treatment of pigmented villous nodular synovitis of the hip joint [J]. *Orthopedic Journal of China*, 2010, 18 (19): 1622-1625.
- [8] Mimura T, Kawasaki T, Yagi K, et al. Pigmented villonodular synovitis causing osteonecrosis of the femoral head: a case report [J]. *Case Rep Orthop*, 2013, 2013: 756954. DOI: 10.1155/2013/756954.
- [9] Baba S, Motomura G, Fukushi J, et al. Osteonecrosis of the femoral head associated with pigmented villonodular synovitis [J]. *Rheumatol Int*, 2017, 37 (5): 841-845. DOI: 10.1007/s00296-016-3624-y.

(收稿:2023-10-18 修回:2024-01-30)

(同行评议专家: 孙永生, 于德刚, 严孟宁)

(本文编辑: 闫承杰)