

· 综述 ·

髌骨骨巨细胞瘤 1 例并文献复习[△]

徐博^{1,2}, 娄金鹏³, 李梓瑶¹, 甄平^{1,2*}

(1. 兰州大学第二临床医学院, 甘肃兰州 730000; 2. 中国人民解放军联勤保障部队第九四〇医院骨科中心, 甘肃兰州 730050; 3. 宁夏医科大学临床医学院, 宁夏银川 750000)

摘要: 髌骨是人体最大的籽骨, 发生于髌骨的肿瘤较为少见, 原发性髌骨肿瘤中良性多见, 其中骨巨细胞瘤最为常见。骨巨细胞瘤多见于 20~40 岁, 女性多于男性, 好发于长骨的干骺端。因髌骨骨巨细胞瘤临床症状多不典型, 表现为关节周围疼痛及压痛、关节活动受影响等, 因此易被误诊为膝关节疾病。临床工作中诊断该病需要临床表现、影像学 and 病理资料三结合, 治疗以外科手术为主。如何完整切除肿瘤防止复发, 仍是治疗髌骨骨巨细胞瘤的重难点。笔者通过回顾性分析本院收住的 1 例髌骨骨巨细胞瘤患者的临床资料, 并查阅国内外相关文献, 对髌骨骨巨细胞瘤进行综述。

关键词: 骨巨细胞瘤, 髌骨肿瘤, 手术治疗

中图分类号: R738.1 **文献标志码:** A **文章编号:** 1005-8478 (2022) 13-1185-04

Giant cell tumor of patella: a case report and literature review // XU Bo^{1,2}, LOU Jin-peng³, LI Zi-yao¹, ZHEN Ping^{1,2}. 1. The Second Clinical Medical School, Lanzhou University, Lanzhou 730000, China; 2. The 940th Hospital, Joint Logistic Support Force of CPLA, Lanzhou 730050, China; 3. Clinical College, Ningxia Medical University, Yinchuan 750000, China

Abstract: Patella is the largest sesamoid bone in human body with relatively rare occurrence of tumors, and most of the primary patella tumors are benign, of which giant cell tumor is the most common. Giant cell tumor of bone (GCT) is frequently seen in 20-40 years old with female more dominate than male, and the metaphysis of long bone as common site involved. Due to the atypical clinical symptoms of GCT of the patella that usually manifests as pain and tenderness around the joint and limited motion, it might be misdiagnosed as other knee disease. Clinical diagnosis of GCT of the patella requires a combination of clinical manifestations, imaging and pathological data, additionally surgical operation is the main treatment for it. How to completely remove the tumor to prevent recurrence remains a difficult problem in the treatment of GCT of patella. In this paper, a case of GCT of patella admitted in our hospital was reported and relevant literatures at home and abroad were reviewed.

Key words: giant-cell tumor of bone, patella tumors, operative treatment

髌骨为体内最大的籽骨, 其前面粗糙, 被股四头肌腱膜包围呈三角形, 是伸膝装置的重要组成部分。原发性髌骨内病变很少见, 骨肿瘤的出现非常不典型。骨巨细胞瘤占有原发性骨肿瘤的 5%~9%, 发病部位往往在长骨干骺端及骨骺区域 (85%), 累及骨骺, 通常累及股骨远端或胫骨近端, 尤其是膝关节附近, 但髌骨部位骨巨细胞瘤较为罕见; 在骨骼系统的所有巨细胞瘤中, 只有不到 1% 发生在髌骨^[1]。由于其对膝关节正常功能的影响, 早期正确的诊断和治疗是必要的^[2]。本文通过回顾性分析 2021 年 1 月就診于本院的 1 例髌骨骨巨细胞瘤患者的临床资料, 并

查阅国内外相关文献, 分析髌骨骨巨细胞瘤的临床特点、病理改变、手术方式及预后情况, 并指导相关治疗。

1 病例报告

患者, 女, 22 岁, 因“摔伤后发现右髌骨骨肿瘤并病理性骨折 3 周”于 2021 年 1 月 24 日入院。患者入院 3 周前在家不慎摔倒, 即感右膝肿痛难忍, 就診于当地医院行 X 线及 CT 检查提示: 右髌骨骨肿瘤并病理性骨折, 为进一步手术治疗转入本院。入院查

DOI:10.3977/j.issn.1005-8478.2022.13.07

△基金项目: 国家自然科学基金青年项目 (编号: 31800812); 军队医学科技青年培育计划项目 (编号: 20QNPY071); 甘肃省青年科技基金项目 (编号: 20JR5RA588)

作者简介: 徐博, 在读硕士研究生, 研究方向: 关节外科, (电话) 17789387586, (电子信箱) xb17789387586@163.com

***通信作者:** 甄平, (电话) 13909467701, (电子信箱) zhenpingok@163.com

体：右膝关节前侧轻度肿胀，无皮下青紫、淤血等异常。触压痛，叩击痛阳性，未触及骨擦感和反常活动。右膝关节屈曲70°即感疼痛明显。余四肢查体未见明显异常。X线片提示：右侧髌骨骨质改变，考虑为多发性骨囊肿（图1a）。MRI提示：（1）右侧髌骨内异常囊性信号影，考虑良性改变：动脉瘤样骨囊肿；（2）关节囊及关节腔少量积液；（3）髌下脂体损伤（图1b, 1c）。血常规、肿瘤全项等检验均为阴性。初步诊断为：右髌骨骨肿瘤并病理性骨折，完善各项检验及检查，排除手术禁忌证，于2021年1月26日在腰麻下行髌骨骨肿瘤刮除、自体髂骨取骨、髌骨植骨、病变组织活检术。患者仰卧位，以髌骨为

中心，取横行切口逐层切开暴露髌骨，见：髌骨中内侧面明显病理性骨折，切开即可见淡黄色液体流出，开约1 cm×1 cm骨窗，吸取髌骨囊腔内囊液后探查见：髓腔内骨质硬化，使用刮勺及磨钻彻底刮除病变组织，无水乙醇及蒸馏水处理瘤腔，取右侧髂骨植于瘤腔。手术顺利。术后病理符合髌骨骨巨细胞瘤（图1d），术后复查X线片示肿瘤已切除（图1e）。患者病情平稳，无任何不适，顺利出院。术后1、3及4个月复查无复发或远处转移，膝关节活动范围正常（图1f~1h），无任何不适症状，目前该患者仍在随访。



图1 患者，女，22岁，右侧髌骨骨巨细胞瘤 1a: 术前X线片示髌骨内多发囊性低密度影，其内有分隔，呈膨胀性生长，似见多发小液平影，骨皮质变薄但连续 1b, 1c: 术前MRI显示右髌骨内见浅分叶状稍长T1长T2信号影，边界清晰，其内信号不均匀，可见液平影，并可见低信号分隔 1d: 组织病理镜下见瘤组织呈片状分布，细胞呈卵圆形，可见大量多核巨细胞 1e: 术后次日X线片示髌骨病灶已切除，内见植骨影 1f: 术后1个月X线片，未见明显复发 1g: 术后3个月CT，未见骨质破坏 1h: 术后4个月X线片示病灶区植骨愈合良好

2 讨论与文献综述

骨巨细胞瘤（giant cell tumor of bone, GCT）是一种常见的原发性良性骨肿瘤。好发于20~40岁，女性多于男性，多为单发病变，常见部位是长骨的干骺端，最常发生于股骨远端、胫骨近端、桡骨远端，也可见于髌骨、胫骨远端、肱骨近端，股骨近端和腓骨近端、脊柱、骨盆、胸骨、肋骨、颅骨和跗骨等部位，但发生在髌骨、跟骨者比较少见^[3-5]。髌骨是原

发性骨肿瘤和转移性骨肿瘤的少见部位^[6]。原发性髌骨内肿瘤极为罕见，约占所有原发性骨肿瘤的0.12%^[7]。Dahlin^[8]在一项对7 975例骨肿瘤患者进行的研究中发现，只有10例位于髌骨。这些肿瘤大多是良性的，其中以骨巨细胞瘤最为常见，其次是软骨母细胞瘤和动脉瘤样骨囊肿^[9]。本病由于骨皮质变薄，常发生病理性骨折，其病理性骨折发生率为11%~37%^[10]。

临床、放射和病理资料三结合是诊断该病的正确方法^[11]。髌骨骨巨细胞瘤临床表现常为髌前疼痛和

压痛,活动受限,骨质膨胀变薄时,压之可有捏乒乓球感,症状较重时膝关节疼痛,活动受限制^[7, 12]。可能会出现可见或可触及的肿块。此外,还可观察到局部发红、发热、积液或病理性骨折^[13, 14]。本例患者膝关节压痛、叩击痛明显,活动度受限,但未触及明显的乒乓球样改变。

影像学是发现骨巨细胞瘤的重要方式。位于髌骨的GCT的X线特征与位于骨骼其他区域的GCT的相似^[15]。主要为侵及骨骺的溶骨性病灶、偏心性、膨胀性,且无硬化边缘^[16]。病变部骨皮质变薄,呈肥皂泡样改变^[17]。Campanacci等^[18]按放射学分类如下:Ⅰ级病变边界清晰,没有皮质破坏;Ⅱ级病变侵犯骨皮质但不穿透骨皮质;Ⅲ级病变边缘不清皮质破坏并侵入软组织。CT更容易显示病灶内部结构、骨皮质改变及周围软组织情况。良性GCT主要表现为膨胀性骨质改变、骨皮质完整,病变与周围软组织分界清晰。侵袭性GCT表现为骨质破坏呈虫蚀样或筛孔样,肿瘤组织突破骨壳向周围软组织浸润,骨皮质破坏随侵袭性增加而显著增加^[19]。因GCT的膨胀性生长方式及溶骨性骨质破坏的特点,CT可观察到GCT内出现的不规则硬化缘及不同长度的骨性小突起,称之为骨嵴,这些骨嵴在肿瘤内面凹凸不平,但很少贯穿瘤体形成骨间隔^[20]。常见的典型MRI表现为:T1加权像为等或低信号强度病变,T2加权像中高信号强度改变,病变边缘常有环形的低信号带,常呈不均匀强化,病变邻近关节面多无关节积液及软组织肿块形成^[21, 22]。

病理:可呈实性、囊性或囊实性,良性者呈红或褐红色肌肉样,恶性者呈灰色鱼肉样。纤维化或胶原化部分呈灰黄色,质地偏韧,如合并出血呈鲜红或暗红,质地较软。镜下典型的骨巨细胞瘤含有丰富而均匀分布的巨细胞,其间混杂有卵圆形、圆形或纺锤形的基质细胞^[23]。本例术后病理结果符合骨巨细胞瘤的诊断。

骨囊肿多为孤立性发病,且无明显疼痛症状,多在病理性骨折时发现,好发于青少年骨骺未闭合的干骺端,呈对称性分布,分隔较少动脉瘤样骨囊肿常发生于长骨的干骺端,以股骨、胫骨、肱骨最常见,63%病例的硬化边可显示,无明显膨胀性生长,可以产生各种形式的骨膜反应^[24]。大多动脉瘤样骨囊肿以液囊及液-液平面为其特征,CT可以显示残存的骨嵴及钙化,为提高诊断正确性,应将MRI与CT结合分析,同时可对肿瘤的生物活跃程度做出较好的判断^[25]。

目前国内外大多数研究文献认为本病以手术治疗为主^[7, 26-28]。不同术式的选择主要根据Campanacci分级及患者自身对手术的耐受度等。一般情况下,属于CampanacciⅠ、Ⅱ级的采用病灶切除术加灭活处理,再行自体或异体骨植骨或置入骨水泥^[29];属于Ⅲ级者,采用广泛或根治切除并行人工关节置换^[11, 30]。在髌骨的GCT中仅报道了1例全髌骨切除术。Malhotra等^[31]报道了1例侵袭性GCT,采用全髌骨切除术和同种异体髌骨伸肌机制修复。放射治疗常用于术前手术困难及无法完整切除者,也可用于术后肿瘤复发者,但传统术后即刻放射治疗可能会引起伤口难以愈合、骨巨细胞肿瘤恶变^[32]。据报道,大约1%的GCT转化为恶性肉瘤,辅以放疗的患者或存在更高的发病风险,因此尚不推荐放射治疗^[33]。有学者认为,采用刮除植骨联合唑来膦酸综合治疗髌骨骨巨细胞瘤,临床疗效显著^[21]。近年来发现,化疗药物对体外培养的骨巨细胞瘤细胞的克隆增殖有明显的抑制,这表明化疗对骨巨细胞瘤的治疗仍有进一步研究的价值。随着非手术治疗的新模式(药物、化疗、3D打印技术等)不断发展,髌骨骨巨细胞瘤的治疗也会有更多的选择^[1, 34]。

GCT病变具有局部侵袭性,复发率高^[35, 36]。据报道,GCT的转移率高达1%~2%,在最初的2年内复发率很高^[12, 35]。安全的肿瘤切除边界是降低复发率、改善疗效的最主要措施。总之,因无法获得较为满意的刮除边界,髌骨骨巨细胞瘤术后可能复发,影响患者预后。所以寻找一种更有效的手术方式,并结合放化疗和靶向药物治疗降低复发率仍然是未来研究的方向。

参考文献

- [1] 沈炜超,吕智.骨巨细胞瘤的临床治疗研究进展[J].医学综述,2021,27(2):313-317.
- [2] Slavchev SA, Georgiev GP, Patrikov K. An active giant cell tumor of the patella: a case report [J]. Cureus, 2017, 9(9): e1642.
- [3] 尚大财,钟生财,向志军.髌骨骨巨细胞瘤手术1例报告[J].中国骨伤,2015,28(9):861-863.
- [4] Wang J, Zhou Y, Wang YT, et al. Three-dimensional-printed custom-made patellar endoprosthesis for recurrent giant cell tumor of the patella: a case report and review of the literature [J]. World J Clin Cases, 2021, 9(11): 2524-2532.
- [5] 刘鹏,曹国定,甄平,等.巨大坐骨骨巨细胞瘤:1例报道及文献综述[J].中国矫形外科杂志,2021,29(5):441-445.
- [6] Low SF, Hanafiah M, Nurismah MI, et al. Challenges in imaging and histopathological assessment of a giant cell tumour with secondary aneurysmal cyst in the patella [J]. Case Rep, 2013, 2013:

- r2013200790.
- [7] Morris TM, Gamie Z, Ghosh KM, et al. Giant cell tumour of the patella with local recurrence: successful management with excision, curettage and artificial bone grafting [J]. *BMJ Case Rep*, 2018, 2018: bcr-2017-221275.
- [8] Dahlin DC. Tumors of the patella [J]. *JAMA*, 1968, 206 (3): 650.
- [9] Baptista AM, Sargentini SC, Zumárraga JP, et al. Tumors of the patella: the experience of institute of orthopedics and traumatology at University of São Paulo, Brazil [J]. *Acta Ortop Brasileira*, 2016, 24 (3): 151-154.
- [10] 蔡剌军, 王国松. 髌骨骨巨细胞瘤并邻近部位复发 1 例 [J]. *中国医学影像学杂志*, 2018, 26 (2): 144-145.
- [11] 高磊, 叶红. 髌骨骨巨细胞瘤 1 例 [J]. *社区医学杂志*, 2012, 10 (6): 83.
- [12] Shibata T, Nishio J, Matsunaga T, et al. Giant cell tumor of the patella: an uncommon cause of anterior knee pain [J]. *Molecular Clin Oncol*, 2015, 3 (1): 207-211.
- [13] Song M, Dai W, Sun R, et al. Giant cell tumor of the patella with a secondary aneurysmal bone cyst: a case report [J]. *Oncol Lett*, 2016, 11 (6): 4045-4048.
- [14] Song M, Zhang Z, Wu Y, et al. Primary tumors of the patella [J]. *World J Surg Oncol*, 2015, 13 (1): 365-371.
- [15] Yu X, Guo R, Fan C, et al. Aneurysmal bone cyst secondary to a giant cell tumor of the patella: A case report [J]. *Oncol Lett*, 2016, 11 (2): 1481-1485.
- [16] 孙万龙. X 线, CT 检查对骨巨细胞瘤的价值分析 [J]. *中国医疗器械信息*, 2021, 27 (2): 133-134.
- [17] 杜鹏, 高松, 曹爱红. 髌骨孤立性骨囊肿伴巨细胞瘤形成一例 [J]. *中国 CT 和 MRI 杂志*, 2019, 17 (6): 151-152.
- [18] Campanacci M, Baldini N, Boriani S, et al. Giant-cell tumor of bone [J]. *J Bone Joint Surg Am*, 1987, 69 (1): 106-114.
- [19] 丛浩伦, 张燕, 王国华. 长管状骨骨巨细胞瘤 CT、MRI 特征与病理分级相关性 [J]. *医学影像学杂志*, 2020, 30 (7): 1280-1283.
- [20] 贾维维. 骨巨细胞瘤影像学表现特点分析 [J]. *临床研究*, 2018, 26 (11): 135-137.
- [21] 乔苏迟, 肖磊, 刘畅, 等. 髌骨骨巨细胞瘤的外科治疗 [J]. *中国骨与关节杂志*, 2018, 7 (1): 33-37.
- [22] 刘淑琴, 王新文, 张进. 骨巨细胞瘤的影像学诊断 [J]. *中国药物与临床*, 2019, 19 (8): 1269-1270.
- [23] 张立云, 沈丽荣, 黄聪. 骨巨细胞瘤的 X 线、CT 表现及临床意义 [J]. *影像研究与医学应用*, 2020, 4 (14): 56-58.
- [24] 董攀, 许元智, 尹帅, 等. 骨巨细胞瘤八例误诊原因分析 [J]. *临床误诊误治*, 2021, 34 (1): 22-25.
- [25] 曹剑仓. CT、MRI 在骨巨细胞瘤诊断中的应用价值 [J]. *甘肃科技*, 2020, 36 (16): 165-167.
- [26] 郭卫, 李建民, 沈靖南, 等. 骨巨细胞瘤临床循证诊疗指南 [J]. *中华骨与关节外科杂志*, 2018, 11 (4): 276-287.
- [27] 文立, 乔军, 孟凡青, 等. 四肢骨巨细胞瘤伴病理性骨折的外科治疗及并发症 [J]. *中国肿瘤外科杂志*, 2020, 12 (5): 401-406.
- [28] 覃康, 朱斌, 李世杰, 等. 髌骨肿瘤外科治疗 [J]. *国际骨科学杂志*, 2017, 38 (2): 129-133.
- [29] 王涛, 郝林, 张清, 等. 髌骨肿瘤与瘤样病变的诊断和治疗 [J]. *中国骨与关节杂志*, 2018, 7 (9): 660-666.
- [30] 闫明, 王保仓, 李勇, 等. 44 例原发性骨巨细胞瘤初次手术治疗临床研究 [J]. *中国矫形外科杂志*, 2020, 28 (1): 82-84.
- [31] Malhotra R, Sharma L, Kumar V, et al. Giant cell tumor of the patella and its management using a patella, patellar tendon, and tibial tubercle allograft [J]. *Knee Surg Sports Traumatol Arthrosc*, 2010, 18 (2): 167-169.
- [32] 史凌子, 邓婕. 高位胸椎骨巨细胞瘤一例误诊分析并文献复习 [J]. *延安大学学报 (医学科学版)*, 2020, 18 (4): 91-93.
- [33] 于乐, 郝盼, 李正民, 等. 骨巨细胞瘤辅助治疗的研究进展 [J]. *中国医药导报*, 2016, 13 (6): 66-68.
- [34] 刘艳成, 胡永成, 马信龙. 髌骨骨巨细胞瘤的手术重建和辅助治疗研究进展 [J]. *中国脊柱脊髓杂志*, 2021, 31 (6): 556-560.
- [35] Tripathy SK, Doki S, Behera G, et al. Giant cell tumor with secondary aneurysmal bone cyst of the patella: a case report [J]. *Cureus*, 2019, 11 (10): e5819.
- [36] 金渊涵, 周光新. 骨巨细胞瘤分子生物学研究进展 [J]. *江苏医药*, 2019, 45 (11): 1167-1170.

(收稿:2021-08-01 修回:2022-01-04)

(同行评议专家:江水华 蔡振存)

(本文编辑:宁桦)