

• 临床研究与应用 •

29例复发性动脉瘤样骨囊肿的临床诊治经验*

唐海军^① 刘云^① 肖增明^① 赖银娟^② 刘建宏^② 韦昌武^①

摘要 目的:探讨四肢复发性动脉瘤样骨囊肿(recurrent aneurysmal bone cyst, RABC)的临床、影像学特点,分析不同术式的疗效及预后,为其诊断和治疗提供经验。方法:2008年1月至2016年1月就诊于广西医科大学第一附属医院经病理确诊的29例四肢RABC患者,其中男性15例,女性14例;复发平均年龄为17.4(4~42)岁;胫骨近端12例,股骨远端11例,肱骨近端3例,股骨近端3例。复发时间为术后2~36个月,其中多数患者于术后2年内复发(22/29)。再行手术方式与例数:再次病灶刮除术24例(植骨充填18例,骨水泥6例),瘤段切除重建术5例(肿瘤假体重建4例;自体骨重建1例)。采用MTSS评分评估患肢术后功能,根据Mankin标准评定综合临床疗效。结果:随访时间24~90个月,平均时间64个月。1例再次复发,总再复发率为3.4%。术后MTSS评分再次病灶内刮除术组为26~30分(平均29.1),瘤段切除术组为21~27分(平均23.0);综合临床疗效再次刮除术组优良率为95.8%,切除术组为60%。结论:ABC术后定期随访对于早期诊断病灶复发至关重要;再次刮除术后复发率在可接受范围内,且术后患肢功能恢复良好,是四肢复发性ABC的首选治疗;对于关节面破坏严重、反复复发的患者,可选择瘤段切除+肿瘤假体重建治疗,但存在一定的远期并发症。

关键词 动脉瘤样骨囊肿 复发 治疗

doi:10.3969/j.issn.1000-8179.2018.24.051

Clinical diagnosis and treatment strategy for recurrent aneurysmal bone cysts of the extremities: a report of 29 cases

Haijun Tang¹, Yun Liu¹, Zengming Xiao¹, Yinjuan Lai², Jianghong Liu², Changwu Wei¹

Correspondence to: Yun Liu; E-mail: liuyun200450250@sina.com

¹Department of Spine and Orthopedics Surgery, The First Affiliated Hospital of Guangxi Medical University, Nanning 530021, China; ²Guangxi Medical University, Nanning 530022, China

This work was supported by the Natural Science Foundation of Guangxi Province (No. 2017GXNSFBA198098), Guangxi Young and Middle-aged Teacher's Basic Ability Promoting Project (No. KY2016YB097)

Abstract Objective: To explore the clinical characteristics, imaging feature, surgical outcomes, and prognosis of recurrent aneurysmal bone cysts (RABC) of the extremities. **Methods:** Between January 2008 and January 2016, 29 patients histopathologically diagnosed with RABC were treated at our hospital. These patients included 15 males and 14 females. The mean age at the time of diagnosis was 17.4 years (range 4-42 years). The most common site of the RABC was the proximal tibia (12 cases), followed by the distal femur (11 cases), and 3 cases each with involvement of the proximal humerus and the proximal femur. Recurrence was most commonly observed within 24 months following the initial treatment. Intralesional re-curettage was performed in 24 patients and en bloc resection of the tumor and reconstruction in 5 patients. The medial tibial stress syndrome (MTSS) score was used to evaluate postoperative function of the affected limb, and the comprehensive clinical efficacy was evaluated on the basis of the Mankin criteria. **Results:** The mean follow-up duration was 64 months (range 24-90 months). Re-recurrence occurred in 1 patient with a total re-recurrence rate of 3.4%. The postoperative MTSS score was 26-30 points (mean 29.1 points) in the intralesional re-curettage group and 21-27 points (mean 23.0 points) in the tumor resection group. Based on the Mankin criteria, excellent and good clinical outcomes were observed in 95.8% of patients in the intralesional and 60% of the patients in the tumor resection and reconstruction groups. **Conclusions:** Regular follow-up is essential for the early diagnosis of RABC. The re-recurrence rate following intralesional re-curettage was within an acceptable range, and postoperative limb function was satisfactory; therefore, intralesional re-curettage is the treatment of choice for RABC involving the extremities. Tumor resection can be performed in patients with severe articular surface destruction and repeated recurrence, although long-term complications may occur.

Keywords: aneurysmal bone cyst, recurrence, therapy

作者单位:①广西医科大学第一附属医院脊柱骨病外科(南宁市530021);②广西医科大学

*本文课题受广西自然科学基金青年项目(编号:2017GXNSFBA198098)和广西高校中青年教師基础能力提升项目(编号:KY2016YB097)资助

通信作者:刘云 liuyun200450250@sina.com

动脉瘤样骨囊肿(aneurysmal bone cyst, ABC)是临床上较罕见的骨病损,具有侵袭性和易复发性,约占原发性骨肿瘤的2%~3%^[1-2]。病灶内刮除术因其可以保留自身关节功能,是治疗ABC的首选;但刮除术后复发率高,文献报道可高达59%^[3-6]。因此临床上需要再行手术的复发性动脉瘤样骨囊肿(recurrent aneurysmal bone cyst, RABC)仍占一定比例。如何早期诊断复发灶及如何选择最佳的再行手术方式,是临床工作难点。本研究回顾性分析广西医科大学第一附属医院诊治的29例肢体RABC的就诊资料,拟为RABC的诊断和手术治疗提供经验。

1 材料与方法

1.1 病例资料

分析2008年1月至2016年1月就诊于广西医科大学第一附属医院RABC患者29例。纳入标准:1)结合病史及术后病理,确诊为RABC的患者;2)病变位于四肢;3)随访时间>2年。排除标准:1)继发于其他病变的RABC患者;2)就诊资料不全的患者。共29例患者入选,其中22例于本院行第一次手术,7例因外院术后复发就诊。其中男性15例,女性14例;复发年龄为4~42岁,平均年龄17.4岁;复发平均时间14.3(2~36)个月。2年以内复发者22例(75.9%),>2年复发者7例(24.1%)。病变部位:胫骨近端12例,股骨远端11例,肱骨近端3例,股骨近端3例。29例患者中合并病理性骨折5例。所有复发患者的首次手术方式皆为病灶内刮除术。

1.2 方法

再次病灶刮除术24例,其中运用高速磨钻打磨辅助刮除18例;术中运用骨水泥充填6例,自体骨移植6例,自体骨混合异体骨移植12例;采用瘤段切除+肿瘤假体重建4例;另1例位于桡骨远端RABC,采用瘤段切除+游离腓骨重建术。

1.3 随访

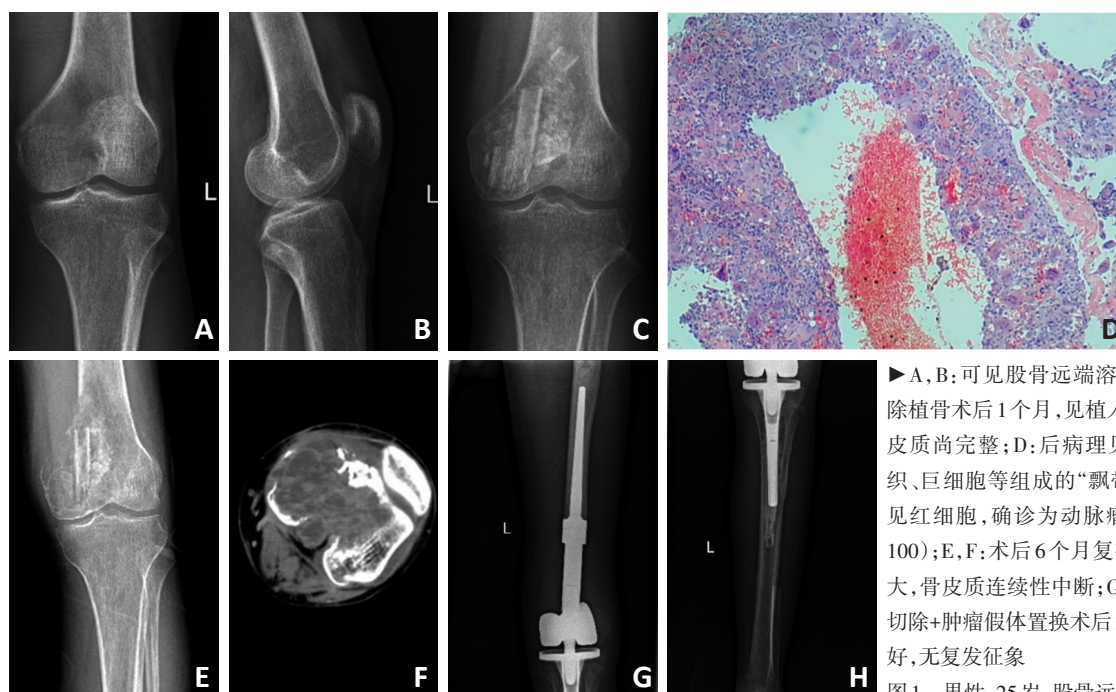
所有RABC再次手术的患者术后均进行定期随访;术后1年内1、3、6、12个月返院复查1次,术后第2年每半年返院复查1次,3年后每年复查1次。随访的内容包括病史询问、体格检查及常规拍摄X线,怀疑再次复发时,行CT/MRI协助复发诊断。

2 结果

2.1 复发时的临床及X线表现

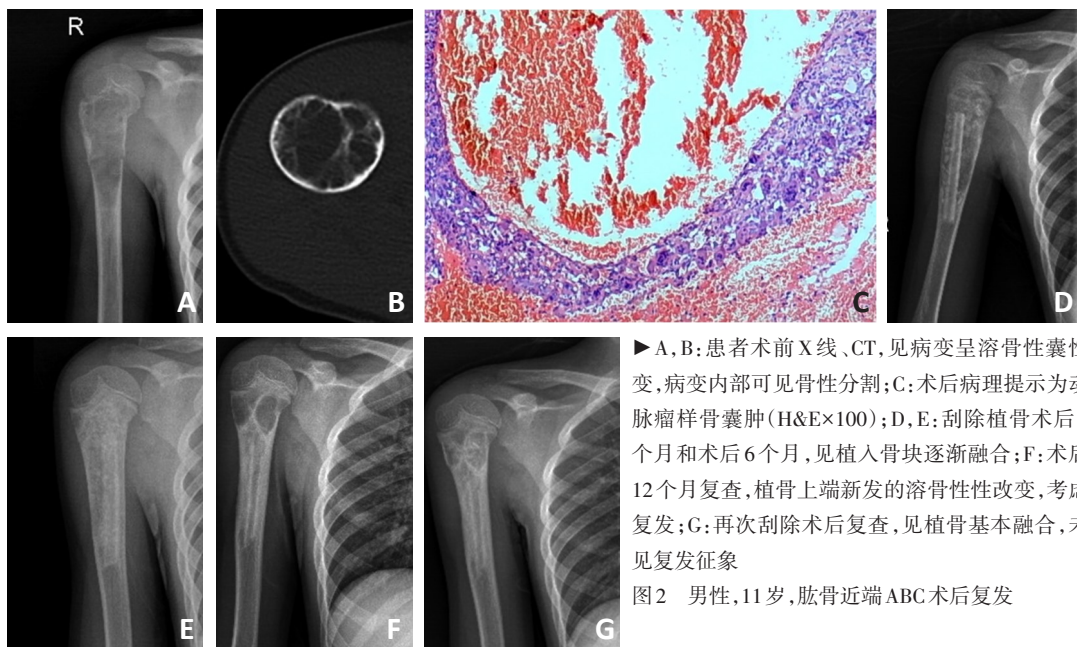
复发时表现为患肢疼痛15例,疼痛伴肿物形成10例,仅表现为局部肿物1例,病变部位无不适常规复诊时发现复发3例。

复发时的X线影像学特点:29例复发患者中,27例位于长骨的干骺端,2例位于长骨的骨端。所有病灶术前皆表现为溶骨性骨破坏,复发时表现为病灶周边广泛溶骨性变化20例,其中可见骨皮质连续性中断10例(图1),合并病理性骨折的3例;表现为病灶内边缘溶骨性改变9例,其中6例可见植骨区点状或片状新发溶骨性改变(图2)。



►A, B: 可见股骨远端溶骨性囊性变;C: 刮除植骨术后1个月,见植入骨块生长良好,骨皮质尚完整;D: 后病理见典型的由纤维组织、巨细胞等组成的“飘带样”结构,其内可见红细胞,确诊为动脉瘤样骨囊肿(H&E×100);E, F: 术后6个月复查见原病灶范围增大,骨皮质连续性中断;G, H: 复发后行瘤段切除+肿瘤假体置换术后2年,见假体位置良好,无复发征象

图1 男性,25岁,股骨远端ABC术后复发



► A, B: 患者术前X线、CT, 见病变呈溶骨性囊性变, 病变内部可见骨性分割; C: 术后病理提示为动脉瘤样骨囊肿(H&E×100); D, E: 刮除植骨术后1个月和术后6个月, 见植入骨块逐渐融合; F: 术后12个月复查, 植骨上端新发的溶骨性改变, 考虑复发; G: 再次刮除术后复查, 见植骨基本融合, 未见复发征象

图2 男性, 11岁, 肱骨近端ABC术后复发

2.2 肿瘤学随访结果

本研究中病例随访时间为24~90个月, 平均时间64个月。29例患者中仅1例复发, 复发率为3.4%。该例患者首诊为股骨远端ABC并病理性骨折, 首次刮除自体骨植骨术后17个月复发, 再次刮除术后16个月复发; 此时影像学资料提示患者的关节面未受到严重侵袭, 尚无软组织肿块形成, 考虑仍有再次刮除的指征。在与患者及家属充分沟通后, 予再次刮除术, 术后随访33个月未见肿瘤复发征象。除上述1例患者外, 其他患者均无肿瘤复发、恶变等。

2.3 患肢功能与术后并发症

根据MTSS评分, 再次病灶内刮除术组为26~30分(平均29.1分), 瘤段切除术组为21~27分(平均23.0分); 术后患肢功能刮除术组明显优于瘤段切除重建术组。术后发生并发症4例, 包括术后病理性骨折2例; 1例青少年患者出现骨骺轻度畸形, 随访观察中患者生长发育、日常生活未受影响; 1例出现膝关节内翻畸形, 行走跛行, 但因患者高龄, 且家属不同意手术, 建议随诊观察。

2.4 临床疗效的综合评价结果

根据Mankin评定标准, 将再次手术术后效果分为优、良、中、差4个等级。本组病例中, 再次病灶内刮除的24例患者手术效果为优21例, 良2例, 差1例, 优良率为95.8%; 肿瘤切除术的5例患者中, 优1例, 良2例, 中2例, 优良率为60%。

3 讨论

3.1 ABC的复发

目前, 关于ABC复发率的报道尚未一致, 但多数学者皆认为复发多发生在术后2年内。如Mankin等^[7]报

道了150例ABC患者, 其术后复发率为20%, 复发平均时间为(14.4±8.4)个月。孙扬等^[2]对77例具有完整资料的ABC患者进行了回顾和随访, 术后复发者7例, 复发率为9.1%; 其中5例术后在2年内复发, 复发率为71.4%。本组29例RABC患者中, 于2年内复发22例(75.9%), 与文献报道相似。因此, ABC虽为良性肿瘤, 但术后易复发; 复发时间多在术后2年内。因此应关注术后定期随访, 尤其是术后2年内更应密切观察。

3.2 复发的早期诊断

早期诊断RABC, 对于患肢功能和手术疗效的提高均至关重要。本研究中2例患者在其早期随访中即怀疑复发, 当时强烈建议患者行CT、MRI及穿刺病理确诊, 但患者拒绝进一步检查。之后2例患者病灶进行性扩大且合并病理性骨折, 其中1例行再次刮除+骨折内固定术, 1例行瘤段切除肿瘤假体置换术。虽然后期长期随访患者无复发, 但忽略早期诊断不但增加了患者的经济负担, 而且患肢关节功能也未得到最好的恢复。

RABC的早期诊断可通过临床表现和X线表现初步确立。患者复发时主要临床表现为局部疼痛不缓解甚至加重, 或消失后再次出现疼痛。本研究29例患者中, 25例患者表现为疼痛, 故认为疼痛可作为RABC早期诊断的指标。局部肿物形成虽也是RABC的临床表现之一, 但该症状多在首次就诊时即已存在, 术后多难以在短期内缓解, 故不推荐作为RABC早期诊断的征象。在早期X线表现方面, 20例表现为病灶周边广泛溶骨性变化, 其中可见骨皮质连续性中断10例, 合并病理性骨折3例; 9例表现为病灶内边缘溶骨性改变, 其中6例可见植骨区点状或片状

新发溶骨性改变。故X线提示病灶较术前扩大、骨皮质连续性中断、新发溶骨性骨质破坏区时,应高度怀疑RABC的可能,此时应积极完善CT、MRI检查以明确诊断。

3.3 RABC的治疗

控制肿瘤复发的同时尽量保留患肢关节的功能、减少并发症,是治疗RABC的总原则^[8-10]。Basarir等^[11]报道的9例RABC中,所有复发患者皆再次行病灶刮除术,其中采用骨移植充填6例,骨水泥充填3例;9例中再次复发仅2例,再复发率为6.9%。本组29例RABC中,采用再次刮除术24例,术后1例复发;瘤段切除术组5例,无复发;术后患肢功能评分再次刮除术组为26~30分(平均29.1分),明显高于瘤段切除术组21~27分(平均23.0分);临床疗效综合评分再次刮除术组优良率为95.8%,亦明显高于切除术组(60%)。由此可见,再次刮除术治疗RABC仍有复发的可能,但复发率较低,在可接受范围内;同时,再次病灶内刮除术组患者术后患肢功能好,患者对治疗质量较为满意;故病灶内刮除术是RABC治疗的首选。在并发症方面,本研究病例出现病理性骨折2例、膝关节内翻畸形1例及骨骺轻度畸形1例,考虑与多次刮除导致骨皮质变薄、骨骺损伤有关,故建议再次刮除术时仍不应该采取扩大刮除的方式,以防止术后并发症发生。尽管瘤段切除术术后肢体功能较刮除术差,但对于关节面遭到严重破坏、伴有软组织侵犯或反复复发的患者,仍须考虑采取瘤段切除术。本研究中,3例患者因复发后关节面破坏严重、1例伴有软组织侵犯,予以瘤段切除术。

综上所述,ABC患者术后应定期随访,当患者疼痛症状未缓解甚至加重,或再次出现疼痛时,应初步怀疑复发可能;此时必须行X线检查,如发现病灶范围扩大、骨皮质连续性中断、新发骨溶解形成时,应高度怀疑复发;RABC首选再次刮除术,当病灶累及关节面、伴有软组织侵犯或反复复发时,可考虑行瘤段切除+人工关节重建术。

参考文献

- [1] Rapp TB, Ward JP, Alaia MJ. Aneurysmal bone cyst[J]. J Am Acad Orthop Surg, 2012, 20(4):233-241.
- [2] 孙扬,牛晓辉,王涛,等. 原发动脉瘤样骨囊肿117例临床回顾分析[J]. 中华骨与关节外科杂志,2013,(3):204-208.
- [3] Biesecker JL, Marcove RC, Huvos AG, et al. Aneurysmal bone cysts[J]. Cancer, 1970, 26(3):615-625.
- [4] Keçeci B, Küçük L, Isayev A, et al. Effect of adjuvant therapies on recurrence in aneurysmal bone cysts[J]. Acta Orthop Et Traumatol Turc, 2014, 48(48):500-506.
- [5] Park HY, Yang SK, Sheppard WL, et al. Current management of aneurysmal bone cysts[J]. Curr Rev Musculoskelet Med, 2016, 9(4): 435-444.
- [6] Reddy KI, Sinnaeve F, Gaston CL, et al. Aneurysmal bone cysts: do simple treatments work[J]? Clin Orthop Relat Res, 2014, 472(6): 1901-1910.
- [7] Mankin HJ, Hornicek FJ, Ortiz-Cruz E, et al. Aneurysmal bone cyst: a review of 150 Patients[J]. J Clin Oncol, 2005, 23(27):6756.
- [8] Wallace MT, Henshaw RM. Results of cement versus bone graft reconstruction after intralesional curettage of bone tumors in the skeletally immature patient[J]. J Pediatr Orthop, 2014, 34(1):92.
- [9] Aiba H, Kobayashi M, Wagurinagaya Y, et al. Treatment of aneurysmal bone cysts using endoscopic curettage[J]. BMC Musculoskeletal Disorders, 2018, 19(1):268.
- [10] Daley E, Kurdziel MD, Koueiter D, et al. Characterization of doxycycline-loaded calcium phosphate cement: implications for treatment of aneurysmal bone cysts[J]. J Mater Med, 2018, 29(7):109-147.
- [11] Başarir K, Pişkin A, Güçlü B, et al. Aneurysmal bone cyst recurrence in children: a review of 56 patients[J]. J Pediatr Orthop, 2007, 27(8): 938-943.

(2018-10-05收稿)

(2018-12-21修回)

(编辑:杨红欣 校对:孙喜佳)

作者简介

唐海军 专业方向为骨肿瘤的诊治研究。

E-mail:976267410@qq.com

