

## · 论著 ·

## 富于巨细胞型骨肉瘤SPECT/CT影像学表现\*

赵颖 李培岭 刘玉珂\*

河南省洛阳正骨医院(河南省骨科医院)影像中心(河南 洛阳 471000)

**【摘要】目的** 探讨分析富于巨细胞型骨肉瘤(GCRO)的影像学特征,以提高对该病的诊断水平。**方法** 回顾性分析我院经过病理证实的2例GCRO患者资料并进行文献总结,总结该病的临床、病理及影像特征,并随访最终结局。**结果** 男性患者1例,38岁,股骨旁GCRO,女性患者1例,76岁,股骨近端髓腔型GCRO。(1)骨旁GCRO的影像表现:病变位于骨旁,DR表现为骨旁软组织内钙化影,形态不规则;CT表现为骨旁密度不均匀的肿块,内见位于肿块基底部的不规则团状钙化或骨化影,肿块约包绕股骨干的90%;全身骨显像及SPECT/CT融合图像表现为肿块内放射性核素异常浓聚。(2)髓腔型GCRO的影像表现:病变位于股骨近端,CT表现为膨胀性偏心性溶骨性骨质破坏,边缘不连,未见明显骨膜反应;全身骨显像及SPECT/CT图像表现为病变区边缘及中心区的不规则状放射性核素异常浓聚;**结论** GCRO罕见,影像学易误诊,常规影像学检查具有一定的特征性影像学表现,SPECT/CT结合常规影像学检查有助于诊断,确诊需结合多种影像学资料和组织病理学检查。

**【关键词】** 巨细胞, 骨肉瘤, 体层摄影术, X线计算机, SPECT/CT

**【中图分类号】** R445.3

**【文献标识码】** A

**【基金项目】** 2020年河南省科技攻关计划项目(202102310362)

**DOI:**10.3969/j.issn.1009-3257.2024.3.035

## SPECT/CT Imaging Features of Giant Cell-rich Osteosarcoma\*

ZHAO Ying, LI Pei-ling, LIU Yu-ke\*

Medical Imaging Center, Luoyang Orthopedic Hospital of Henan Province(Orthopedic Hospital of Henan Province), Luoyang 471000, Henan Province, China

**Abstract: Objective** To explore and analyze the imaging features of giant cell osteosarcoma (GCRO) in order to improve the diagnosis of GCRO. **Methods** The data of 2 pathologically confirmed GCRO patients in our hospital were retrospectively analyzed and the literature was summarized to summarize the clinical, pathological and imaging characteristics of the disease, and the final outcome was followed up. **Results** There was a 38-year-old male patient with parafemoral GCRO and a 76-year-old female patient with proximal femoral medullary type GCRO. (1) Imaging manifestations of parasosseous GCRO: the lesions were located near the bone, and DR showed calcification shadows in the parasosseous soft tissues with irregular shape; CT showed an uneven parossial mass with irregular mass of calcification or ossification at the base of the mass. The mass covered about 90% of the femoral shaft. Whole body bone imaging and SPECT/CT fusion images showed abnormal concentration of radionuclides in the mass. (2) Imaging findings of medullary cavity GCRO: The lesion was located at the proximal femur, and CT findings showed dilatant eccentric osteolytic destruction without marginal union and no obvious periosteal reaction. The whole body bone imaging and SPECT/CT images showed irregular abnormal concentration of radionuclides at the edge and center of the lesion area. **Conclusion** GCRO is rare and easy to be misdiagnosed by imaging. Conventional imaging examination has certain characteristic imaging manifestations. SPECT/CT combined with conventional imaging examination is helpful for diagnosis.

**Keywords:** Giant Cell; Osteosarcoma; Tomography; X-ray Computed; SPECT/CT

骨肉瘤是最常见的恶性骨肿瘤,其特征是由间质干细胞或成骨前体细胞并以产生类骨质和未成熟骨,最常发生在长骨的干骺端,好发于儿童、青少年及60岁以上老年人<sup>[1-2]</sup>。骨肉瘤常见的组织学类型包括成骨细胞型、成软骨细胞型和成纤维细胞型,主要取决于细胞的异型性和由肿瘤细胞产生的细胞外基质的类型。富于巨细胞型骨肉瘤(Giant cell-rich osteosarcoma, GCRO)是一种未分化的高级别肉瘤,骨肉瘤的罕见类型,有大量的破骨细胞样巨细胞和不同数量的肿瘤样骨<sup>[3]</sup>,易误诊为骨巨细胞瘤(Giant cell tumor, GCT)。本文回顾并分析我院2例经手术且病理证实以及术后随访的GCRO的临床信息、全身骨显像及SPECT/CT融合显像的影像资料,结合文献复习总结,以提高对本病的认识,提高诊断正确率。

## 1 资料与方法

**1.1 一般资料** 男、女各1例;年龄分别为38岁、76岁;2例患者均有局部疼痛,1例伴有活动受限;就诊时分别出现症状为6个月和11个月;均行术后随访,肿瘤术后复发时间为9个月和16个月。

**1.2 检查方法** DR检查:对病变区拍摄常规的正侧位片,采用锐科公司生产的500 MAX系统常规拍摄。<sup>99m</sup>Tc由北京原子高科股份有限公司提供,MDP由江苏省原子医学研究所江原制药厂生产,静脉注射药物<sup>99m</sup>Tc-MDP 740~1110 Mbq 约3~4h后进行图像,

骨扫描所用仪器采用SIEMENS公司Symbia-T6 SPECT/CT仪(德国),先行SPECT全身骨扫描,后对异常病灶进行断层采集。断层采集条件:360°采集,双探头各旋转180°,60/帧,20秒/帧,能峰140 keV,窗宽20%,矩阵128×128,放大倍数1;SPECT断层扫描完成之后即进行同机的CT扫描,层厚为1.5 mm,螺距1,管电流50~120mA,管电压110 kV;扫描完成后进行图像融合,SPECT/CT图像融合采用机器自带软件进行,均分别进行横轴位、矢状位、冠状位及三维重建的图像融合,SPECT/DR图像融合采用SIEMENS公司与我院共同开发的软件进行,对同一患者的DR图像与SPECT断层图像进行配准并融合。

**1.3 图像分析** 由三位高资历的同时从事放射学影像诊断与核医学影像诊断的医师共同阅片,分析诊断。

## 2 结果

病例1影像表现:A SPECT/DR融合显像示,股骨中下段前方见软组织肿块,其内见团片状放射性核素异常浓聚;B全身骨显像示,病灶区可见片状放射性核素的异常浓聚,且排除全身其他部位的转移;C CT平扫见密度不均匀的肿块,其内见液-液平面及钙化或骨化影,形态不规则,钙化或骨化影位于基底部,与骨皮质间见线状分界影,肿块约包绕股骨的90%,相邻骨质未见破坏,SPECT/CT融合显像示,肿块内的不规则形钙化区呈放射性

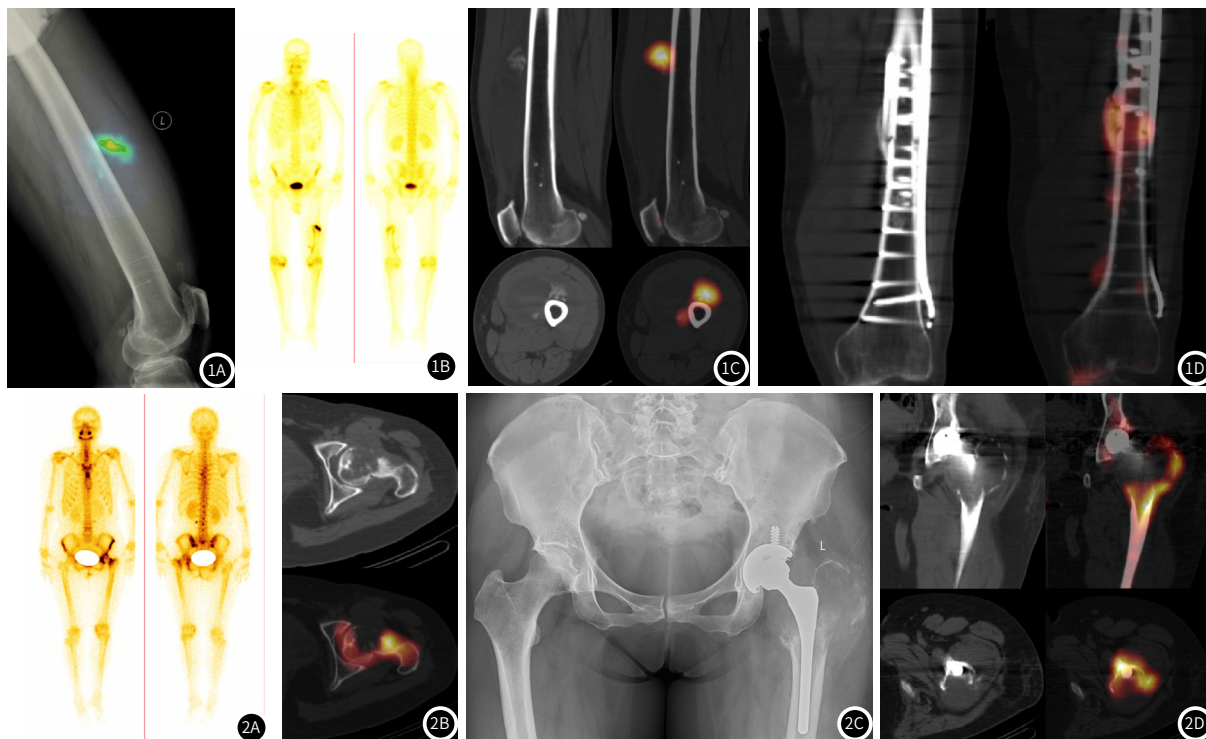
**【第一作者】** 赵颖,女,主治医师,主要研究方向:骨肌系统影像诊断。E-mail: 80972993@qq.com

**【通讯作者】** 刘玉珂,男,主任医师,主要研究方向:骨肌系统影像诊断。E-mail: yukeliu@163.com

核素异常浓聚；D 术后9个月随访，CT平扫影像示原病变区见软组织肿块，密度不均匀，SPECT/CT融合图像表现股骨折端异常放射性核素浓聚，软组织肿块内未见核素异常浓聚。

病例2影像表现：A全身骨显像示左股骨头颈部的病灶区呈局部边缘区的异常放射性核素浓聚；BCT平扫表现为股骨近端溶骨性骨质破坏，合并病理骨折，SPECT/CT融合显像示病变的边缘及中心区呈不同程度的放射性核素异常浓聚；C术后16个月随

访，DR示原病灶区明显的膨胀性骨质破坏，骨皮质不连续，周围见肿块影，置换的假体位置适当；D术后16个月随访，CT平扫表现为假体中上段周围骨质破坏，骨皮质变薄、不完整，复见软组织肿块，SPECT/CT融合图像见假体中上段周围骨质破坏区的边缘骨质及假体外侧软组织肿块内的云絮状高密度影呈放射性核素异常浓聚，髌臼假体固定钉周围见放射性核素异常浓聚。



### 3 讨论

GCRO这一骨肉瘤的罕见亚型最初在 1986年由 Bathurst 等人首先报道<sup>[4]</sup>，是指在组织学图像上与骨巨细胞瘤类似的一型骨肉瘤<sup>[5]</sup>，GCRO瘤体内破骨细胞样的巨细胞数量异常增多，这种异常突出的非肿瘤性的多核巨细胞掩盖了其中的肿瘤性的具有异型性及核分裂相的恶性单核细胞以及单核细胞产生的幼稚的肿瘤骨组织。2020年WHO骨肿瘤分类将其归类为普通型骨肉瘤组，GCRO是好发于儿童和青少年的一种罕见亚型的骨肉瘤，发病率约占骨肉瘤的3%，肿瘤的好发部位主要为长管状骨的髓腔，其中以股骨远端、胫骨近端和肱骨近端最为显著<sup>[3-4,6]</sup>。临床表现无特异性，主要以肿胀、疼痛和全身不适等为特征。组织学上GCRO中丰富的巨细胞几乎淹没了肉瘤细胞，使GCRO在病理上容易被误诊为GCT，GCRO和GCT中的巨细胞都具有共同的H3F3A突变、破骨细胞样活性，并有引起骨吸收的倾向，区分CGRO和GCT的关键诊断特征仍然是不规则轮廓的嗜酸性样骨的存在，通常被成骨细胞包围<sup>[6]</sup>。也有报道称，GCRO中较高的Ki67增殖指数> 20%有助于将其区别于GCT<sup>[7-9]</sup>。目前，国内外文献共报道<sup>[1-16]</sup>GCRO 91例，男性51例、女性40例(男女比例约1.22: 1)；好发于长骨的骨干和干骺端，以股骨多见(33例、36.3%)，其次为胫骨(19例、20.9%)和肱骨(8例、8.8%)，发生在骨外者罕见(腓骨、膀胱、阴茎各1例)；GCRO的发病年龄范围较大(6~76岁)，除黄瑾等<sup>[10]</sup>报道18例未具体年龄外，其余73例以10~20岁多见(28例、38.4%)。本组2例患者，男女各一例，一例位于股骨的骨端，一例则位于骨外(股骨旁的软组织内)，与既往研究报道相符合。骨肉瘤是青少年人群临床中最常见的骨原发恶性肿瘤，有多种亚型骨肉瘤，经研究发现，各种亚型骨肉瘤的恶性程度各不相同，其中GCRO的预后差，5年生存率为60%~70%，转移性疾病

患者的生存率约为20%~30%，影响生存率的重要因素是局部复发，其好发转移部位是肺和骨，完全切除可以实现长期的局部控制<sup>[5-6]</sup>。本组2例术后随访均影像学局部复发。

结合文献<sup>[1-16]</sup>及本组病例，GCRO影像学表现与骨肉瘤的典型征象并不是完全符合，影像表现也有差别。骨旁GCRO的影像学表现为：发生于骨外软组织的软组织肿块，位于骨干骨表面，呈宽基底环绕或沿骨干表面生长倾向，因此可产生肿块与母骨之间的透亮线相隔，宽度约1~3 mm，是GCTO的典型特征性表现<sup>[5]</sup>；无骨膜反应，髓腔和皮质一般较少受到波及，肿块内可见斑片状的骨化或钙化影，且多位于肿块的基底部。髓腔型GCRO则同时具有良性及恶性骨肿瘤的影像特点，既往文献表现为<sup>[3-6, 8-9]</sup>：膨胀性、偏心性生长的溶骨性骨质破坏，内可见分隔及大小不等的肿瘤骨，骨皮质多无明显破坏，骨膜反应及软组织肿块少见，本研究患者也符合上述影像学特征。也有文献报道<sup>[9, 15]</sup>不同程度的骨皮质侵蚀、骨膜反应和肿瘤骨的缺失是其特征性影像表现，而Wang等<sup>[16]</sup>报道7例长骨GCRO中4例伴有骨旁软组织肿块。

<sup>99</sup>mTc-MDP全身骨显像能显示全身骨骼的代谢变化，灵敏度高，但特异性较低，进行全身骨扫描的目的及时发现其他部位的多发病灶，如转移灶。SPECT/CT融合显像将SPECT所显示的功能代谢信息与螺旋CT的影像相融合，实现了高灵敏度、精准解剖与准确定位的结合，常规影像与功能影像的互相补充，提高了对骨骼病变的准确性<sup>[17]</sup>。GCRO具有丰富的血供，作为骨肉瘤的亚型肿瘤，和普通型骨肉瘤一样，肿瘤细胞中的成骨细胞及其形成的幼稚的肿瘤骨具有成骨活性，具有对<sup>99</sup>mTc-MDP的高度摄取能力，能够表现出放射性核素浓聚的影像表现，因此肿瘤无论位于髓腔、骨旁还是骨外，也无论肿瘤的组织学类型是成骨型、溶骨型还是混合型，全身骨扫描及SPECT/CT融合图像都表现为病



灶部位的肿瘤骨的高度放射性核素摄取,表现为放射性的异常浓集;也可以表现为在放射性核素的异常浓聚区的大小不等的减低区,伴或不伴有软组织的放射性核素浓集<sup>[18]</sup>;同时,由于肿瘤对骨质的破坏侵蚀,可以使得边缘骨质的产生反应性的成骨表现,当骨质破坏速度慢于成骨时,肿瘤边缘骨质亦可以表现为放射性核素浓聚。本组病例1骨旁GCRO仅表现为软组织内肿瘤骨的放射性异常浓聚;病例2表现为病变区边缘骨质及中心区不同程度的放射性核素异常浓聚,肿瘤术后假体外侧软组织肿块内可见不规则絮状高密度影,呈明显放射性异常浓聚,证实为肿瘤复发,与既往研究相似,图像表现提示该肿瘤属于可以成骨性肿瘤。在国内文献中,关于GCRO的SPECT图像融合诊断病例鲜有报道,我院经病理证实的仅有两例,且骨内骨旁仅各有一例,但笔者认为,现有病例的影像信息具有一定的特征及代表性,且与病理组织学特征相吻合,能够在CT、MRI常规影像做出初步诊断之后,再结合SPECT/CT融合图像可以进一步明确诊断,对于肿瘤的诊断及鉴别诊断具有一定的参考价值,但最终诊断需要病理协诊。

GCRO由于其骨内骨旁均可发生,且在病理组织学上细胞组成较为特殊,使其与多种疾病存在影像学表现的交叉,因此需要与多种肿瘤或非肿瘤性疾病鉴别,同时,股骨远端及胫骨近端是肿瘤好发部位,种类繁多,也加大了鉴别诊断难度。骨旁GCRO主要需要与骨化性肌炎、滑膜肉瘤等相鉴别。(1)骨化性肌炎:在SPECT/CT影像表现为骨外软组织的放射性核素浓聚,与GCRO的浓聚形态及浓度有一定的相似性,因此,鉴别诊断临床病史方面较为重要,一般有外伤史或手术史,病变区的骨化是由外周向中心发展,呈离心式成熟现象,即可表现为渐进式的骨化程度,CT影像表现为从外周到中心由高密度逐渐减低,也可表现为“骨壳”<sup>[19]</sup>;中期病灶多呈环状或团片状、高度放射性摄取,摄取范围多等于或大于CT显示骨化范围,晚期病变呈轻度或无放射性摄取。(2)滑膜肉瘤:分化程度高的滑膜肉瘤会出现“边缘性钙化”<sup>[20]</sup>,此征象是滑膜肉瘤的特性之一,故而在SPECT/CT融合图像中边缘钙化区会出现放射性核素异常浓聚,结合CT及MRI影像可提高诊断正确率。髓腔型GCRO需与骨巨细胞瘤鉴别,其中以侵袭性或恶性骨巨细胞瘤鉴别困难,此类肿瘤的影像表现与GCRO具有高度相似性,例如纯溶骨性骨质破坏、病灶边界不清、软组织肿块等表现,均增加了本病准确诊断的难度<sup>[21]</sup>。骨巨细胞瘤好发年龄是20~40岁,青壮年人群高发,多见于长骨的骨端,骨巨细胞瘤的骨嵴的存在是其特征之一<sup>[22]</sup>,SPECT/CT融合图像中肿瘤呈环状放射性摄取;而髓腔型GCRO好发于10~20岁年轻人,多见于长骨的干骺端和骨干,呈病灶部位的高度放射性摄取,其内见大小不等的减低区<sup>[4,6,8]</sup>。综上,笔者认为,SPECT/CT融合成像的特别贡献在于病变成骨特点的表现,且比CT影像表现更为敏感,主要为成骨分布区以及成骨能力的准确显示,因此在成骨与否以及成骨差异的疾病的诊断中具有一定的诊断及鉴别诊断价值。

总之,GCRO罕见,但其有一定的好发部位,影像学表现有一定的特征,应用多种影像学检查,综合分析各种影像学表现,能够提高本病的诊断能力,而且影像学对肿瘤的疾病分期、预后评估具有较大临床意义。但本研究病例较少,影像表现的信息不足以总结本病的共性特征性征象,因此,有必要将本组病例列出,继续研究,总结经验。

## 参考文献

- [1] 蒋小红,刘云,谢天裕,等.骨肉瘤骨溶解作用机制的研究进展[J].中华骨科杂志,2022,42(17):1156-1164.
- [2] 张懿明,雷璇,毛良浩,等.鼠双微体基因2在骨肉瘤中的研究进展[J].中华实验外科杂志,2022,39(5):1009-1014.

- [3] Mallick A, Shah N, Mahmud SA, et al. Giant cell-rich osteosarcoma-A rare case[J]. J Oral Maxillofac Pathol, 2020, 24(1): S67-S72.
- [4] Jot K, Roychoudhury A, Bhalla AS, et al. Rare case of primary giant cell-rich osteosarcoma in mandible[J]. Oral Oncol, 2022, 127: 105784.
- [5] 刘玉珂,李培岭,张斌青,等.富于巨细胞型骨肉瘤的影像学诊断[J].实用放射学杂志,2017,33(9):1473-1475.
- [6] Tseng CS, Wong CE, Huang CC. Spinal giant cell-rich osteosarcoma-diagnostic dilemma and treatment strategy: A case report[J]. World J Clin Cases, 2022, 10(21): 7565-7570.
- [7] Santana LADM, Felix FA, de Arruda JAA, et al. A rare case of a metastatic giant cell-rich osteosarcoma of the mandible: Update and differential diagnostic considerations[J]. Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol, 2021; 131: e163-e169.
- [8] Egea-Gómez RM, Galán-Olleros M, González-Menocal A, et al. Case Report: Giant cell-rich osteosarcoma of the cervical spine in the pediatric age. A rare entity to consider[J]. Front Surg, 2022, 9: 1001149.
- [9] Chow LT. Giant cell-rich osteosarcoma revisited—diagnostic criteria and histopathologic patterns, Ki67, CDK4, and MDM2 expression, changes in response to bisphosphonate and denosumab treatment[J]. Virchows Arch, 2016, 468(6): 741-55.
- [10] 黄瑾,蒋智铭,张惠斌.富于巨细胞的骨肉瘤和骨巨细胞瘤的临床病理鉴别诊断[J].中华病理学杂志,2014,43(6):379-382.
- [11] 吴传真,李成梅,方文昌,等.富于巨细胞的骨外骨肉瘤一例[J].中华病理学杂志,2011,40(9):640.
- [12] Choo JY, Lee JH, Lee JY, et al. Cutaneous Metastasis of Giant Cell-Rich Osteosarcoma[J]. Ann Dermatol, 2016, 28(2): 247-248.
- [13] Sun LM, Zhang QF, Tang N, et al. Giant cell-rich osteosarcoma of the mandible with abundant spindle cells and osteoclast-like giant cells mimicking malignancy in giant cell tumor[J]. Int J Clin Exp Pathol, 2015, 8(8): 9718-9722.
- [14] Mariano FV, Corrêa MB, da Costa MV, et al. Labial mucosa metastasis of fibule giant cell-rich osteosarcoma: an unusual presentation[J]. Quintessence Int, 2013, 44(10): 783-791.
- [15] Chow LTC. Fibular giant cell-rich osteosarcoma virtually indistinguishable radiographically and histopathologically from giant cell tumor—analysis of subtle differentiating features[J]. APMIS, 2015, 123(6): 530-539.
- [16] Wang CS, Yin QH, Liao JS, et al. Giant cell-rich osteosarcoma in long bones: clinical, radiological and pathological features[J]. Radiol Med, 2013, 118(8): 1324-1334.
- [17] 张雪辉,孔飏,肖国有,等. SPECT/CT显像对脊柱良恶性肿瘤变诊断的增益价值[J].中华核医学与分子影像杂志,2016,36(2):156-160.
- [18] 彭京京,张清,蔡伯,等.放射性核素显像在骨肉瘤诊断中的应用[J].中华核医学杂志,2000,20(2):65-67.
- [19] 罗晓,李文安,毕诗城.肌骨超声、多层螺旋CT应用于肱三头肌肌腱断裂伴骨化性肌炎临床诊断价值[J].中国CT和MRI杂志,2019,17(10):133-134,152.
- [20] 蔡玖明,王东,陈武标,等.滑膜肉瘤的CT和MRI表现及相关病理改变[J].罕少疾病杂志,2013,20(2):18-21.
- [21] 魏思达,方庆明,蒋云,等.儿童侵袭性骨巨细胞瘤1例并文献复习[J].罕少疾病杂志,2022,29(11):13-14.
- [22] 邓琦,徐志锋,周涛,等.长骨骨巨细胞瘤影像学表现与病理分期的相关性分析[J].中国CT和MRI杂志,2022,20(8):169-196.

(收稿日期:2023-03-25)

(校对编辑:孙晓晴)