

现,结合临床SAPHO综合征可能,其中T12/L1椎体伴压缩性骨折(图9)。骨密度检测提示右踝关节T值-3.28, Z值-0.75,属于重度骨质疏松(见图10)。结合上述表现,诊断为SAPHO综合征合并脊柱压缩性骨折。治疗上,本病例采取椎体成形手术改善患者疼痛和功能障碍,术中X线片可见T12、L1椎体骨水泥弥散可(图11-12)。术后患者症状明显改善。

讨论:SAPHO综合征是一种临床罕见的慢性自身免疫性疾病,发病率低且无特异性检查指标^[1]。SAPHO一词首见于1987年,由法国风湿病学家Chamot等人提出,取自Synovitis(滑膜炎)、Acne(痤疮)、Pustulosis(脓疱病)、Hyperostosis(骨肥厚)和Osteomyelitis(骨髓炎)这5种临床表现的首字母缩写,主要影响皮肤、关节、脊柱。据估计,SAPHO综合征的患病率约0.01%^[2]。青年或中年发病居多,10岁至50岁最常见。SAPHO综合征病因尚不清楚,可能与感染、免疫炎症、遗传原因相关^[3]。

SAPHO综合征以皮肤病变和骨关节受累为主。20至60%患者会出现掌跖脓疱病,痤疮和银屑病样皮损,90%患者会出现骨肥厚、滑膜炎和骨炎,是SAPHO综合征的标志^[4]。SAPHO综合征缺乏特异性的血清学和免疫学检查,往往需要影像学检查辅助诊断。患者红细胞沉降率、白细胞、C反应蛋白可出现轻中度升高,仅30%患者的HLA-B27呈现阳性,而类风湿因子、抗核抗体多为阴

性^[5]。影像学检查是诊断SAPHO综合征的重要方法,包括X线、CT、MRI、ECT、PET-CT等。其中,ECT作为诊断SAPHO综合征的首选检查,显影剂常常浓聚于胸锁区,呈现“牛头征”,具有高度的特异性。本病例患者既往没有皮肤损害,而影像学检查充分展示SAPHO综合征的特征。X线呈现椎体竹节样改变,CT和ECT清晰显示骨质侵犯的范围,胸骨、第一肋骨、锁骨、椎体均有骨质侵蚀伴骨肥厚增生,MRI显示腰骶和椎间盘的异常改变,T12/L1椎体压缩性骨折伴骨髓水肿。综合以上表现,该例患者符合SAPHO综合征,同时合并T12、L1椎体压缩性骨折,比较罕见。

参考文献

- [1]Rukavina I. SAPHO syndrome: a review [J]. J Child Orthop, 2015, 9(1): 19-27.
- [2]Zimmermann P, Curtis N. Synovitis, acne, pustulosis, hyperostosis, and osteitis (SAPHO) syndrome—A challenging diagnosis not to be missed [J]. J Infect, 2016, 72 Suppl: S106-S114.
- [3]石素雨,刘晓红,宋来涛,等. SAPHO综合征的研究进展 [J]. 中国矫形外科杂志, 2020, 28(19): 1783-1787.
- [4]张雨涵,陈艳丽,成杰,等. 成人SAPHO综合征的临床及影像表现分析 [J]. 中国临床医学影像杂志, 2021, 32(10): 738-741.
- [5]王卫涛,郑朝晖,谢荣华,等. SAPHO综合征患者临床特征分析 [J]. 中国全科医学, 2019, 22(36): 4482-4487.

(收稿日期: 2024-02-01)

(校对编辑: 韩敏求)

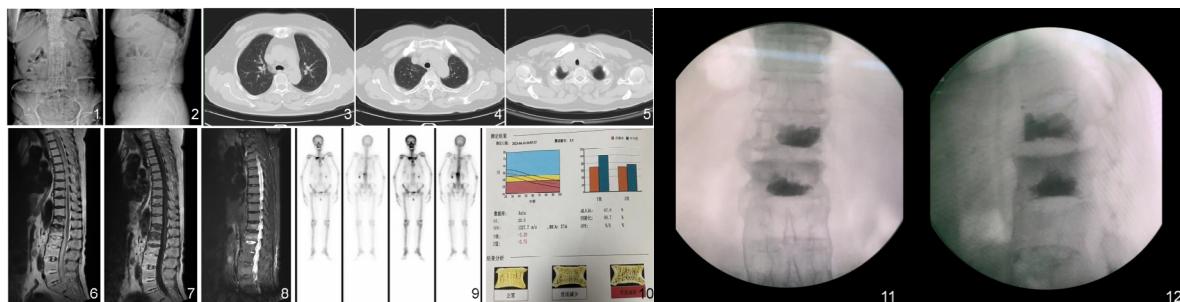


图1-图10 SAPHO综合征合并脊柱压缩性骨折患者,女,69岁。图1-图2 腰椎正侧位提示T12、L1变扁,腰椎竹节样改变;图3-图4 CT示胸骨角、右侧锁骨近端、左侧第一前肋骨质密度增高;图6-图8 T12、L1压缩性骨折伴骨水肿,腰骶椎及椎间盘异常改变;图9 全身骨显像示右侧锁骨近心端、双侧第一前肋、胸骨、T12、L1椎体符合骨炎、骨肥厚表现,其中T12、L1压缩性骨折;图10 骨密度检测示重度骨质疏松。

图11-图12 术中T12、L1正侧位X线片示骨水泥弥散可

· 短篇报道 ·

脊髓叶状毛细血管瘤1例并文献复习

武晓雯 张涛*

聊城市人民医院磁共振室(山东 聊城 252000)

第一作者:武晓雯,女,主治医师,主要研究方向:心胸影像学。E-mail: 498775123@qq.com

通讯作者:张涛,男,主治医师,主要研究方向:心胸影像学。E-mail: yiyiyaya123123@163.com

【关键词】脊髓;叶状毛细血管瘤;化脓性肉芽肿;磁共振成像

【中图分类号】R445.2

【文献标识码】D

DOI:10.3969/j.issn.1672-5131.2025.01.073

Intramedullary Spinal Cord Lobular Capillary Hemangiomas: A Case Report and Literature Review

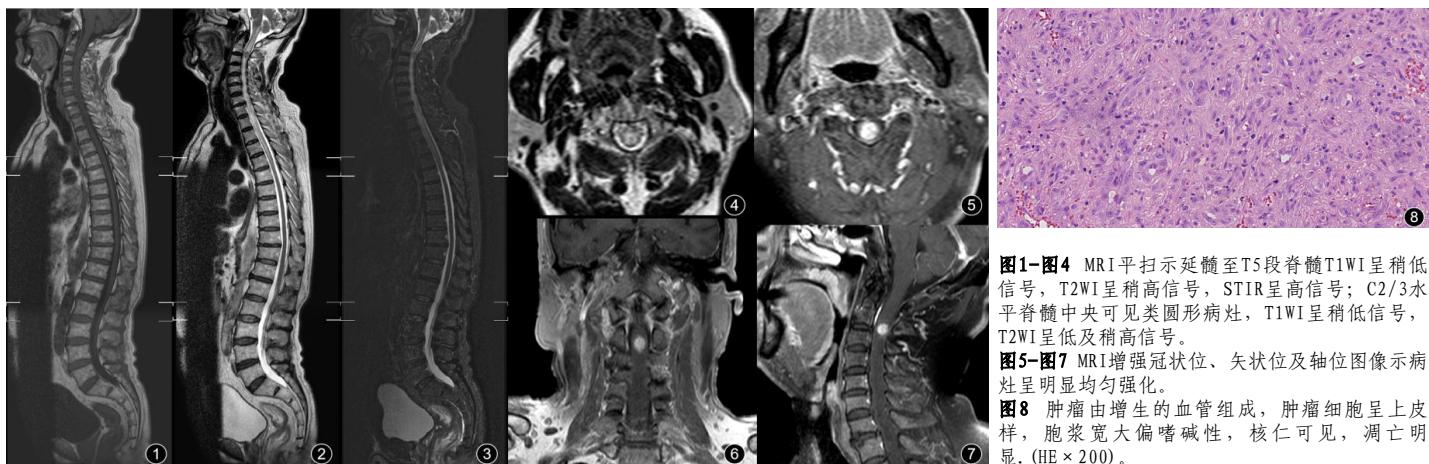
WU Xiao-wen, ZHANG Tao*.

MRI Room of Liaocheng People's Hospital, Liaocheng 252000, Shandong Province, China

Keywords: Spinal Cord; Lobular Capillary Hemangiomas; Pyogenic Granulomas; MR Imaging

叶状毛细血管瘤(lobular capillary hemangiomas)又称化脓性肉芽肿(pyogenic granuloma, PG), 是毛细血管瘤的一种特殊亚型, 由Poncet和Dor于1897年^[1]首次描述, 好发于皮肤和粘膜表面, 很少见于髓内^[2], 易误诊成其他髓内肿瘤。1例脊髓叶状毛细血管瘤报告如下, 并结合相关文献复习, 旨在进一步提高对本病的认识。

病例资料: 患者, 男, 67岁。因“右侧肢体麻木2月余”就诊。患者2月余无明显诱因出现右侧肢体麻木, 伴活动不灵, 自服中药治疗, 起初麻木见减轻, 后逐步出现颈部疼痛。查体: 四肢肌张力不高, 双上肢肌力3级, 双下肢肌力4+, 右侧肢体痛觉过敏, 左侧肢体痛温觉减退, 左侧巴氏征(+)。(1)影像学检查: MR平扫示: 延髓-T5水平脊髓膨大, 呈略长T1、略长T2信号, 压脂呈高信号(图1-4); C2/3椎间盘水平脊髓中央见类圆形占位, 呈略长T1、短及略长T2; 注入Gd-DTPA15mL后增强扫描示C2/3



讨论: 叶状毛细血管瘤多发生于20岁以上成年人, 男女均可发生, 男性多见。它的发生与各种因素有关: 感染、女性性激素水平的升高、原有血管病变、病毒、药物治疗和创伤等^[3]。镜下由簇状或分叶状叶状毛细血管瘤偶可发生于静脉内, 好发于颈部和上肢, 病变位于血管内, 易被误认为是机化性血肿, 肿瘤起自静脉壁, 向腔内突出。在组织学上, 周围的血管壁经常不能很好地可视化, 这通常使病理诊断较为困难; 小叶增生样紧密排列的毛细血管, 以及周围已存在的血管壁的残余, 可以帮助诊断^[4]。

脊髓毛细血管瘤MRI图像上T1WI呈等信号, T2WI呈高信号, 增强扫描后显著均匀强化, 瘤周无水肿, 此征象无可靠定性特征, 有时见肿瘤的粗大供血动脉和引流静脉呈条状低信号, 为流空效应^[5]。然而, 这些影像学表现是非特异性的, 常需要与常见的原发性髓内脊髓髓内肿瘤相鉴别, 如室管膜瘤, 星形细胞瘤, 血管母细胞瘤。(1)脊髓室管膜瘤, 是脊髓中最常见的神经胶质肿瘤, 起源于椎管内室管膜细胞, 常位于脊髓中央, 好发年龄40~50岁, 男性略多于女性。在MRI平扫图像上, 脊髓内室管膜瘤在T1WI上呈低或等信号, 在T2WI上肿瘤实质、囊变部分及周围水肿带均呈高信号, 实质部分信号常较囊变和水肿部分信号低。增强扫描时肿瘤实质部分常显著强化, 但由于肿瘤本身易于囊变, 导致强化不均匀, 另外, 强化有助于判断肿瘤与正常脊髓分界是否清楚, 分界清楚有助于室管膜瘤的诊断^[6]。(2)脊髓星形细胞瘤好发于儿童, MR平扫T1WI呈等低信号, T2WI呈高信号; 高级别星形细胞瘤常呈不均匀强化, 低级别星形细胞细胞瘤通常不强化且信号较均匀; 肿瘤边缘较清, 中心位于脊髓可呈偏心性生长并伴有脊髓膨大。(3)血管母细胞瘤占髓内肿瘤2%-6%, 常与von Hippel-Lindau综合症有关^[7], MR平扫T1WI呈等低信号, T2WI呈高信号, 在肿块内部及周围可见流空血管影, 提示供血动脉或引流静脉。增强扫描肿瘤实质性部分呈明显均匀强化; 肿瘤亦可伴有囊变及脊髓空洞。因脊髓叶状毛细血管瘤过于罕见且影像表现缺乏特异性, 此例患者术前误诊为室管膜瘤。

椎间盘水平脊髓中央见类圆形大小约0.8×0.9×1.0cm明显均匀强化瘤体, 边界清(图5-7)。考虑: C2/3间盘水平脊髓占位, 室管膜瘤可能性大。(2)手术所见: 脊髓肿胀明显, 镜下纵行切开脊髓显露肿瘤, 肿瘤位于髓内, 边界尚清晰, 血运中等, 大小约0.8×0.9×1.0cm³, 小心分离肿瘤, 分块全切肿瘤。(3)病理诊断: 多形性增生性病变, 周边粘连脊髓组织, 其下为增生明显毛细血管, 炎细胞, 纤维母细胞, 间质水肿明显, 再下方为上皮样肿瘤细胞, 细胞质宽大, 偏嗜碱, 细胞核核膜可见, 核仁明显, 核凋亡多见, 核仁可见, 不能排除肿瘤性病变, IHC结果不支持室管膜瘤, 不支持恶性肿瘤的诊断, 结合HE切片, 符合叶状毛细血管瘤。免疫组化结果: CK(AE1/AE3)(-), EMA(-), GFAP(散在+), Olig-2(-), CD31(+), Ki-67(+20%), S-100(-), D2-40(-), SMA(+).

图1-图4 MRI平扫示延髓至T5段脊髓T1WI呈稍低信号, T2WI呈稍高信号, STIR呈高信号; C2/3水平脊髓中央可见类圆形病灶, T1WI呈稍低信号, T2WI呈低及稍高信号。

图5-图7 MRI增强冠状位、矢状位及轴位图像示病灶呈明显均匀强化。

图8 肿瘤由增生的血管组成, 肿瘤细胞呈上皮样, 细胞质宽大偏嗜碱性, 核仁可见, 凋亡明显。(HE × 200)。

毛细血管瘤虽然为良性病变, 但可引起脊髓或马尾神经压迫, 以及椎孔外延伸^[8], 也有罕见的出血性风险。故即使没有神经系统症状, 也应考虑进行手术。若诊断性MRI提示病灶内有血管流空, 为了减少术中出血, 应进行术前血管造影和/或栓塞^[9-10]。在大多数情况下, 全手术切除预后良好且少有复发。

参考文献

- [1]Poncet A, Rev Chir. Botryomycose humaine[J]. Rev Chir (Paris), 18, 1897: 996-997.
- [2]Babu Ranjith, Owens Timothy R, Karikari Isaac O, et al. Spinal cavernous and capillary hemangiomas in adults[J]. Spine (Phila Pa 1976), 2013, 38: e423-e430.
- [3]杨慧. 化脓性肉芽肿的研究治疗进展[J]. 临床医学进展, 2022, 12 (4): 3475-3480.
- [4]Dermawan JK, Ko JS, Billings SD. Intravascular lobular capillary hemangioma (intravascular pyogenic granuloma): a clinicopathologic study of 40 cases[J]. Am J Surg Pathol, 2020, 44 (11): 1515-1521.
- [5]侯秋萍, 戴捷, 曹俊华, 等. 椎管硬膜内毛细血管瘤1例并文献复习[J]. 中国CT和MRI杂志, 2015, 13 (10): 119-120.
- [6]王琪, 李军, 曹庆勇. 脊髓内室管膜瘤的MRI表现[J]. 中国CT和MRI杂志, 2016, 14 (01): 8-9, 26.
- [7]Tirado-Ornelas Héctor Alonso, Olivares-Peña Jorge Luis, Olivares-Camacho Jorge Luis, et al. Intramedullary cervical spinal cord and cerebellar hemangioblastoma: a case report[J]. Surg Neurol Int, 2022, 13: 294.
- [8]Rajpal Sharad, Johs Stephen, Zaronias Callista, et al. Spinal epidural capillary hemangioma with intrathoracic extension: case report and review of the literature[J]. Cureus, 2020, 12: e9358.
- [9]Chung SK, Nam TK, Park SW, et al. Capillary hemangioma of the thoracic spinal cord[J]. J Korean Neurosurg Soc, 2010, 48 (3): 272-275.
- [10]Roncaroli F, Scheithauer BW, Krauss WE. Capillary hemangioma of the spinal cord. Report of four cases[J]. J Neurosurg, 2000, 93 (1): 148-151.

(收稿日期: 2024-01-07)
(校对编辑: 韩敏求)