

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]. 中国临床影像学杂志, 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)

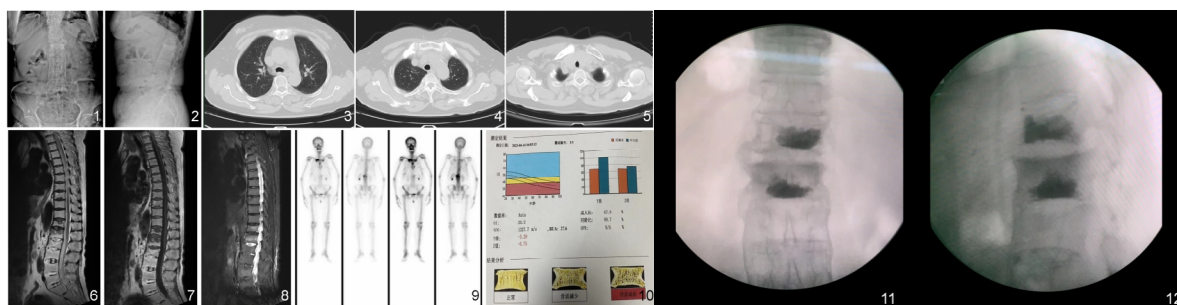


图1-图12 SAPHO综合征合并脊柱压缩性骨折患者,女,69岁。图1-图2 腰椎正侧位提示T12、L1变扁,腰椎竹节样改变;图3-图4 CT示胸骨角、右侧锁骨近端、左侧第一前肋骨质密度增高;图5-图8 T12、L1压缩性骨折伴骨水肿,腰骶椎及椎间盘异常改变;图9 全身骨显像示右侧锁骨近心端、双侧第一前肋、胸骨、T12、L1椎体符合骨炎、骨肥厚表现,其中T12、L1压缩性骨折;图10 骨密度检测示重度骨质疏松。

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

椎间盘水平脊髓中央见类圆形大小约 $0.8 \times 0.9 \times 1.0$ cm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 $0.8 \times 0.9 \times 1.0$ cm³,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瘤,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(+).

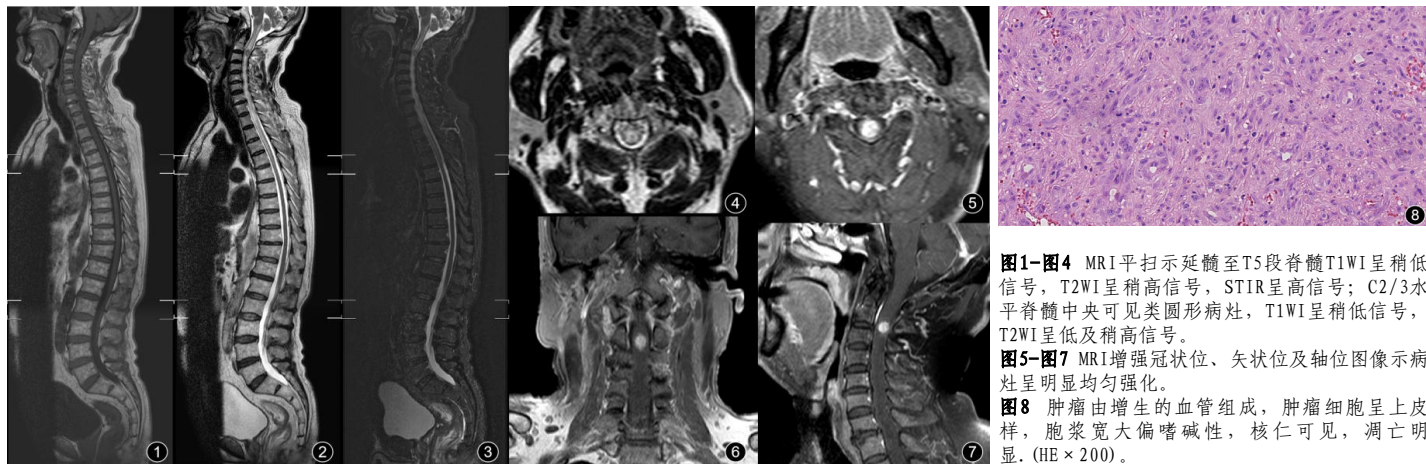


图1-图4 MRI平扫示延髓至T5段脊髓T1WI呈稍低信号,T2WI呈稍高信号,STIR呈高信号;C2/3水平脊髓中央可见类圆形病灶,T1WI呈稍低信号,T2WI呈低及稍高信号。
图5-图7 MRI增强冠状位、矢状位及轴位图像示病灶呈明显均匀强化。
图8 肿瘤由增生的血管组成,肿瘤细胞呈上皮样,胞浆宽大偏嗜碱性,核仁可见,凋亡明显。(HE×200)。

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瘤,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综合征有关^[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。

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]Pancet 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, Johns 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)