

·论著·

# 儿童关节内/近关节与关节外骨样骨瘤的特点及手术疗效分析



全文二维码



开放科学码

方建文<sup>1</sup> 王达辉<sup>2</sup> 郑一鸣<sup>2</sup>

**【摘要】 目的** 通过对比骨骼未成熟儿童关节内/近关节与关节外骨样骨瘤的临床及影像学特点,探讨儿童关节内/近关节部位骨样骨瘤的临床特点、手术疗效及预后。**方法** 对复旦大学附属儿科医院收治的43例儿童骨样骨瘤病例的临床资料进行分析,其中男31例,女12例,平均年龄8.9岁(1.8~16岁)。根据骨样骨瘤瘤巢部位分成关节内/近关节组(16例)和关节外组(27例),回顾以上病例的临床特点、影像学特点及治疗方法,运用SPSS22.0进行统计学分析。**结果** 关节内/近关节组16例中仅6例存在骨样骨瘤的典型症状,13例存在关节滑膜炎症状,10例误诊,9例存在特征性瘤巢,8例关节周围骨骼出现异常改变;关节内/近关节组平均延迟诊断17个月,与关节外组对比在延迟诊断时间上存在统计学差异( $P < 0.05$ )。关节外的骨样骨瘤临床症状和影像学表现更典型,肿瘤受累骨骼存在过度生长现象,但未见跛行等显著临床症状。**结论** 儿童关节内/近关节骨样骨瘤与关节外的骨样骨瘤存在不同的临床表现及影像学特征,同时缺乏典型的骨样骨瘤临床特征,而滑膜炎表现相对较多,跛行或者骨膜反应程度轻,硬化骨不显著,需要与炎症、剥脱性骨软骨炎等鉴别诊断,同时需要更精准的手术治疗。

**【关键词】** 关节;骨样骨瘤/病理学;骨样骨瘤/外科学;治疗结果

**【中图分类号】** R726.8 R738.1

**Characteristics and efficacy analysis of intra-/juxta-articular versus extra-articular osteoid osteoma in childhood.** Fang Jianwen<sup>1</sup>, Wang Dahui<sup>2</sup>, Zheng Yiming<sup>2</sup>. 1. Department of Orthopedic, Children's Hospital of Fudan University XiaMen Branch, 361000, China; 2. Department of Orthopedic, Children's Hospital of Fudan University, 201102, China. Corresponding author: Wang Dahui, Email: dr. wangdahui@163.com

**【Abstract】 Objective** To compare the clinical and radiological features of intra-/juxta-articular osteoid osteoma and extra-articular osteoid osteoma in skeletally immature patients. Discussing about characteristics, efficacy and prognosis of osteoid osteoma in intra-/juxta-articular. **Methods** Osteoid osteoma in 43 cases, 31 boys and 12 girls, mean age at diagnosis was 8.9 years (range 1.8 to 16 years). They were dichotomized according to the location of the nidus as intra-/juxta-articular (16 children) or extra-articular (27 children) or spine (3 children), review its distribution, clinical features, imaging features and treatment, then data using SPSS22.0 for statistical analysis. **Results** In this group of 16 cases of intra-/juxta-articular osteoid osteoma, only 6 cases had typical symptoms of osteoid osteoma, 13 cases had synovial inflammation of the joint, 10 cases had misdiagnosis, 9 cases had characteristic nidus, and 8 cases had abnormal changes in bone around joint, indicating that the difference between the above data and the extra-articular group was statistically significant, which lead to an average of 17 months delayed diagnosis in this group. the p-value was less than 0.05, indicating that the difference in delay diagnosis between intra-/juxta-articular and extra-articular group was statistically significant. However, the clinical symptoms and imaging manifestations of extra-articular group were more typical, with excessive growth of tumor affected bones, but no significant clinical symptoms such as claudication. **Conclusion** Intra-/juxta-articular osteoid osteoma exhibit different clinical and radiological features from extra-articular osteoid osteoma. No typical clinical features, effects of synovitis, limp, an absence or minimal degree of osteo-

DOI:10.3969/j.issn.1671-6353.2020.09.012

**作者单位:**1. 复旦大学附属儿科医院厦门分院骨科(福建省厦门市, 361000); 2. 复旦大学附属儿科医院骨科(上海市, 201102)

**通信作者:** 王达辉, Email: dr. wangdahui@163.com

sclerosis with subtle periosteal reaction, which is initially assigned to more common differential diagnoses, including inflammatory joint diseases or osteochondritis dissecans. Easy delay diagnosis, need precision surgery.

**【Key words】** Joints; Osteoid osteoma/PA; Osteoid Osteoma/SU; Treatment Outcome

骨样骨瘤(osteoid osteoma, OO)是由骨母细胞及其所产生的骨样组织形成的成骨性肿瘤。该病好发于儿童和青少年,是一种良性骨肿瘤,约占所有良性骨肿瘤的1.81%,男女发病率之比约为2:1<sup>[1,2]</sup>。典型病例多发生在骨干,有典型临床症状及影像学特征,容易诊断。临床中发现部分骨样骨瘤病灶位于关节内/近关节区,症状不典型,有时存在误诊、误治的情况。现总结复旦大学附属儿科医院骨科2013年6月至2017年6月治疗的43例骨样骨瘤患儿临床资料,并进行回顾性分析。

## 材料与方法

### 一、一般资料

43例中男31例,女12例;年龄1.8~16岁,中位年龄8.9岁;依据瘤巢发生部位分为两组,第一组为关节外组(共27例,其中股骨干13例,胫骨干12例,肱骨干2例);第二组为关节内/近关节组(共16例,其中股骨颈6例,股骨粗隆间3例,大转子2例,小转子2例,肱骨髁间窝1例,胫骨骨骺1例,跟骨1例)。

### 二、临床表现

骨样骨瘤典型症状为患处疼痛,夜间疼痛明显,服用非甾体类抗炎药可缓解症状,呈间歇性发作,后期疼痛加重,呈持续性,药物不能缓解。关节外组27例中有24例存在典型症状,而关节内/近关节组16例中仅有6例存在典型症状。在关节内/近关节组16例中有13例存在滑膜炎症状,而关节外组中

无一例发现滑膜炎症状。因为关节内/近关节组临床症状不典型,导致16例中有10例发生平均17个月(3~26个月)的延迟诊断;而关节外组平均延迟诊断时间为6个月(2~15个月)。

### 三、影像学表现

瘤巢是诊断骨样骨瘤的关键,X线平片是诊断骨样骨瘤的重要检查方法,CT是显示瘤巢的最佳方法,MRI能敏感显示瘤巢周围骨髓内及软组织的炎性水肿,关节内/近关节组骨样骨瘤可见滑膜增厚、积液<sup>[3]</sup>。所有患儿常规行X线、CT、ECT检查,部分行MRI检查(关节外组20例,关节内/近关节组10例),见表1。X线及CT可见典型瘤巢(关节外组24例,关节内/近关节组9例),大小0.5~2.0 cm,显示密度增高的不透亮阴影。瘤巢中心部有钙化,钙化灶周围有一透亮圈,瘤巢周围骨质有增生硬化改变(图1)。MRI诊断瘤巢的价值不如CT,瘤巢的MRI信号强度不等,与钙化、纤维组织含量有关(图2)。在关节内/近关节组中有8例观察到骨骼异常(病变部位骨骼增粗、过度生长等),而关节外组仅有3例。ECT上骨样骨瘤的特征性表现为“双活性特征”,即病灶中央瘤巢部位核素活性强,而其周边硬化区核素活性弱(图3)。

### 四、治疗过程及随访

入选病例均在全麻下行肿瘤病灶切除术,其中单纯行肿瘤病灶切除术2例,肿瘤病灶切除加自体松质骨植骨术10例,肿瘤病灶切除加同种异体骨植骨术30例,肿瘤病灶切除加骨蜡填塞1例。病灶切

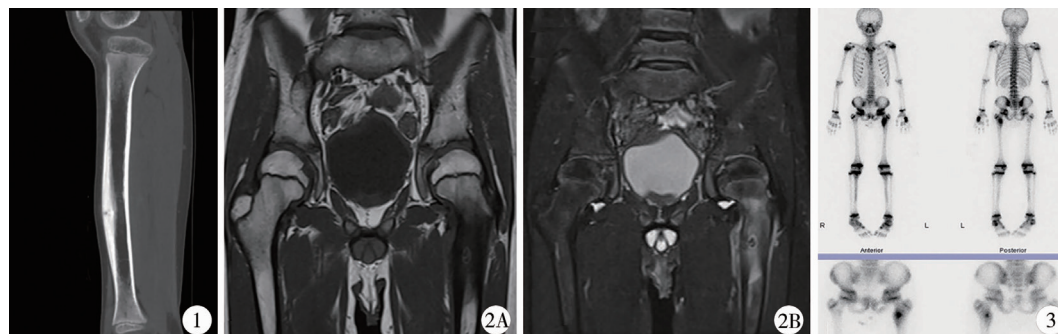


图1 CT平扫矢状位重建显示胫骨干骨样骨瘤,可见瘤巢,瘤巢边缘骨质硬化明显 图2 左侧股骨小转子区骨样骨瘤 A:T1WI 病灶呈等T1信号,周缘反应区呈长T1信号; B:T2WI 病灶呈短T2信号,瘤巢及周缘反应区呈长T2信号 图3 同位素扫描显示股骨小转子区骨样骨瘤病灶中央瘤巢部位核素活性强而其周边硬化区核素浓度低

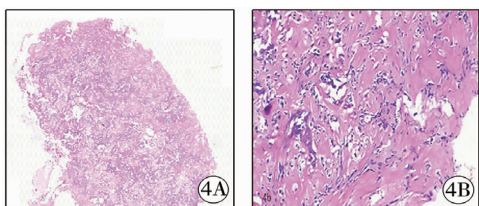
Fig.1 Nidus of Osteoid osteomas are located in the shaft of tibia Fig.2 MR manifestations of Osteoid osteomas

Fig.3 ECT manifestations of Osteoid osteomas

**表 1** 关节内/近关节骨样骨瘤与关节外骨样骨瘤的临床特征**Table 1** Demographic characteristics of the intra-/juxta and extra-articular

分组	例数	性别 (男/女,例)	诊断时年龄 (岁)	随访时间 (年)
关节内/ 近关节组	16	11/5	10.1(4.8~16.0)	2.4(1.8~3.5)
关节外组	27	20/7	8.4(1.8~13.9)	2.9(2.4~3.9)
<i>P</i> 值		0.980	0.153	0.013

除后均送病理检查。病理报告均为“骨样骨瘤”或者符合“骨样骨瘤”特征(图4)。随访内容包括:手术切口愈合情况、疼痛缓解情况、四肢及关节活动受限改善情况、复查X线评估有无复发等。



**图 4** 病理切片结果 A:4×10 倍镜下见骨样骨瘤通常很小,呈圆形或椭圆形,新鲜时切面呈红色或粉红色; B:20×10 倍镜下见骨母细胞和骨样基质

**Fig.4** Pathologic findings of Osteoid osteomas

### 五、统计学分析

采用 SPSS 22.0 进行统计分析,正态分布的计量资料用( $\bar{x} \pm s$ )表示,两组间计量资料比较依据数据是否服从正态分布分别采用 *t* 检验或秩和检验,两个分类变量间的关联性分析采用  $\chi^2$  检验,以  $P < 0.05$  为差异有统计学意义。

## 结 果

骨样骨瘤多见于长管状骨干,本组 43 例中病变发生于胫骨干、股骨干、肱骨干者达 27 例(52.2%),

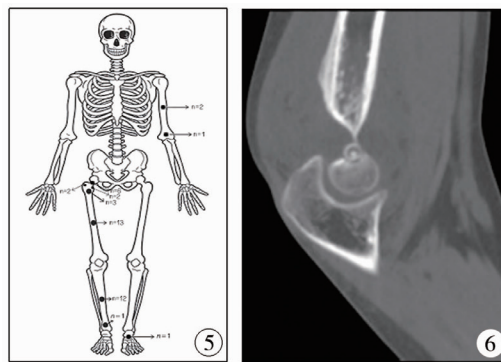
**表 2** 两组骨样骨瘤的临床及影像学特征比较

**Table 2** Comparison of clinical and radiological features between the intra-/juxta and extra-articular OO

分组	例数	典型症状(例)	滑膜炎(例)	误诊(例)	特征性瘤巢(例)	骨骼异常(例)	延迟诊断时间(月)
关节内/近关节组	16	6	13	10	9	8	17(3~26)
关节外组	27	24	0	6	24	3	6(2~15)
$\chi^2/Z$ 值		12.578	31.444	6.976	5.997	7.981	-4.355
<i>P</i> 值		0.001	<0.001	0.008	0.038	0.014	<0.001

关节外的骨样骨瘤临床症状和影像学表现更典型(图6),肿瘤受累骨骼存在过度生长现象,但没有跛行等显著临床症状。术中可见位于关节内的滑膜明显增厚、水肿,术中可刮出明显的瘤巢样病变。采用肿瘤切除加植入异体骨为主的治疗方案,

16 例病灶均分布于关节内/近关节,且发病位置分散,见图5。其临床表现不典型,本组 16 例关节内/近关节骨样骨瘤病例中仅 6 例存在骨样骨瘤典型症状,13 例存在关节滑膜炎症状,10 例出现误诊,9 例存在特征性瘤巢,8 例关节周围骨骼出现异常改变( $P < 0.05$ );关节内/近关节组导致平均 17 个月的延迟诊断,与关节外组对比,在延迟诊断时间上差异存在统计学意义( $P < 0.05$ ),见表2。



**图 5** 43 例骨样骨瘤分布位置 **图 6** CT 平扫矢状位重建显示肱骨髁间窝骨样骨瘤,瘤巢可见,周缘无明显骨质硬化

**Fig.5** Absolute numbers of osteoid osteomas for skeletal region

**Fig.6** Intra-/juxta-articular osteoid osteoma have no obvious osteosclerosis around the edges



**图 7** A、B 为 CT 矢状位及 X 线平片正位片显示术前胫骨远端骨骺内骨样骨瘤,病灶切除并植入骨蜡, C 为术后 1 年复查 X 线,未见骨桥形成,无踝内外翻畸形

**Fig.7** Comparison of radiological finds between preoperative and postoperative of osteoid osteoma

考虑到应避免植骨后骨桥形成,本病中 1 例累及胫骨骨骺病例植入骨蜡,随访中未发现骨桥形成,未出现踝内外翻畸形(图7),以上病例均没有因关节活动受限而再次手术。

43 例术后均无复发,随访病例疼痛均缓解:关



节外组疼痛症状消失,关节内/近关节组跛行等滑膜炎症状消失,无病理性骨折、关节畸形,无植骨反应,切口均一期愈合。

## 讨 论

骨样骨瘤多位于四肢长骨骨干(关节外),以股骨干和胫骨干最常见,关节内/近关节分布者多位于髌关节、踝关节、肘关节周围,二者临床表现及影像学特征存在不同。Kayser等<sup>[4]</sup>根据瘤巢发生的部位,将骨样骨瘤分为皮质骨型、松质骨型、骨膜下型。

骨样骨瘤的影像学特征性表现为瘤巢,伴周围骨质明显硬化,CT在发现瘤巢方面相对X线及MRI更有优势。但关节内/近关节者病灶周缘骨质硬化少,可有病变部位骨骼增粗、过度生长等骨骼畸形,滑膜炎症状明显,临床常考虑为滑膜炎、剥脱性骨关节炎等导致诊断延迟,应注意与关节滑膜炎、骨髓炎等鉴别<sup>[5]</sup>。

本病的治疗以开放手术切除为主,以透视下准确定位瘤巢、彻底切除病灶为宜<sup>[6]</sup>。病灶切除同时植入自体或者异体骨能预防病理性骨折,促进骨切除部分愈合,但当涉及到骨髓时则可植入自体脂肪或者骨蜡,保护骨髓板,预防骨桥形成(图7)。

近年来,人们开始尝试采用创伤较小的方式进行治疗。利用CT等引导下经皮穿刺至瘤巢,然后采取不同的方法处理瘤巢(如环钻或磨钻磨削手术、射频消融术),射频消融术对周围组织的热损伤不易控制,导致骨坏死<sup>[7]</sup>。因此,许多医生仍坚信只有开放手术才是最保险的治疗手段,在治疗的同时又能取病灶组织进行病理检查以明确诊断。同时,儿童不能耐受局麻手术,瘤巢局部邻近关节、骨髓部,这些因素也影响了上述微创治疗方法在儿童骨样骨瘤外科治疗中的应用。

结合本次回顾性分析,我们认为骨骼未成熟儿童关节内/近关节骨样骨瘤的临床和影像学特点与发生在关节外的骨样骨瘤有所不同,只有当我们了解到关节内/近关节骨样骨瘤有跛行、关节活动受限等滑膜炎症状及瘤巢周缘硬化不明显、存在骨骼异常的影像学特点,才能在临床工作中尽量避免延迟诊断。

## 参 考 文 献

- 冯乃实,李瑞宗,张学军,等. 骨与关节肿瘤及瘤样病变4327例统计分析[J]. 中华骨科杂志,1997,17(12):760-765.
- Feng NS, Li RZ, Zhang XJ, et al. Analysis of 4 327 Cases of Tumors and Tumor-like Lesions of the Bone and Joint[J]. Chin J Orthop, 1997, 17(12):760-765.
- Westhovens R, Dequeker J. Musculoskeletal manifestations of benign and malignant tumors of bone[J]. Curr Opin Rheumatol, 2003, 15(1):70-75.
- 孟俊非,肖利华,陈应明,等. 骨样骨瘤的影像学诊断[J]. 中华放射学杂志,2003,37(7):615-619. DOI:10.3760/j.issn:1005-1201.2003.07.011.
- Meng QF, Xiao LH, Chen YM, et al. Imaging diagnosis of osteoid osteoma[J]. Chin J Radiol, 2003, 37(7):615-619. DOI:10.3760/j.issn:1005-1201.2003.07.011.
- Kayser F, Resnick D, Haghighi P, et al. Evidence of the subperiosteal origin of osteoid osteomas in tubular bones: analysis by CT and MR imaging[J]. AJR Am J Roentgenol, 1998, 170(3):609-614.
- Mi Hyun Song, Won Joon Yoo, Tae-Joon Cho, et al. Clinical and radiological features and skeletal sequelae in childhood intra-/juxta-articular versus extra-articular osteoid osteoma[J]. BMC Musculoskelet Disord, 2015, 16(1):3. DOI:10.1186/s12891-015-0456-y.
- 刘喜平,刘宏. 儿童骨样骨瘤的诊断及治疗体会[J]. 临床小儿外科杂志,2005,4(2):97-100. DOI:10.3969/j.issn.1671-6353.2005.02.006.
- Liu XP, Liu H. Experience of Diagnosis And Treatment For Osteoid Osteoma In Children[J]. J Clin Ped Sur, 2005, 4(2):97-100. DOI:10.3969/j.issn.1671-6353.2005.02.006.
- Rolvien T, Zustin J, Mussawy H, et al. Intra-articular osteoid osteoma as a differential diagnosis of diffuse mono-articular joint pain[J]. BMC Musculoskelet Disord, 2016, 17(1):455. DOI:10.1186/s12891-016-1313-3.

(收稿日期:2018-09-15)

**本文引用格式:**方建文,王达辉,郑一鸣. 儿童关节内/近关节与关节外骨样骨瘤的特点及手术疗效分析[J]. 临床小儿外科杂志,2020,19(9):821-824. DOI:10.3969/j.issn.1671-6353.2020.09.012.

**Citing this article as:** Fang JW, Wang DH, Zheng YM. Characteristics and efficacy analysis of intra-/juxta-articular versus extra-articular osteoid osteoma in childhood[J]. J Clin Ped Sur, 2020, 19(9):821-824. DOI:10.3969/j.issn.1671-6353.2020.09.012.