

· 病例报道 ·

儿童脊柱侵袭性血管瘤1例

倪沙¹, 马雪英², 马悦¹, 赵鹏飞², 乔鹏飞^{2*}

(1. 内蒙古医科大学第一临床医学院, 内蒙古 呼和浩特 010059;

2. 内蒙古医科大学附属医院 影像诊断科 内蒙古 呼和浩特 010050)

【摘要】目的 脊柱侵袭性血管瘤是脊柱血管瘤的一种临床类型, 仅占脊柱血管瘤的1%; 少数侵袭性血管瘤并无典型影像学特征, 难以与其他类型血管瘤相鉴别, 因此诊断难度增加。本研究就本院收治的1例儿童患者的影像学表现进行观察, 为该病的影像诊断提供参考。**方法** 回顾性分析1例脊柱侵袭性血管瘤。**结果** 病理活检显示为T₈椎体侵袭性血管瘤。**结论** 脊柱侵袭性血管瘤在脊柱血管瘤中的占比小, CT和MRI是主要的影像检查手段, CT显示骨质破坏更具优势, MRI可清晰显示病灶及受累范围, 但MRI信号表现多样, 与病变组成成分所占的比例有关, 不典型病例的影像学分析有助于提高对病人的诊断。

【关键词】 血管瘤; 侵袭性血管瘤; 儿童脊柱肿瘤; 病例报告

中图分类号: R732.2

文献标识码: B

文章编号: 1673-9388(2023)02-0151-03

DOI: 10.19891/j.issn1673-9388.(2023)02-0151-03

脊柱血管瘤占所有脊柱肿瘤的2%~3%^[1], 多发生于胸椎, 根据临床特点分为三类: 无症状血管瘤、仅有疼痛等局部症状性血管瘤、侵袭性血管瘤^[2]。大部分患者一般无明显临床症状, 一旦患者长时间持续疼痛, 且脊髓、神经根受压加重, 渐进性出现神经缺损症状, 应考虑可能发展成脊柱侵袭性血管瘤^[3,4], 部分脊柱侵袭性血管瘤缺乏典型影像学表现, 是临床诊断工作中的一个难题。本研究回顾性分析了2022年1月就诊于我院的1例儿童脊柱侵袭性血管瘤患者的临床资料, 现报道如下。

1 临床资料

患儿, 女, 14岁, 1月前劳累后出现双下肢无力伴走路不稳, 休息后症状无明显缓解, 遂就诊于外院, 腰椎核磁未见异常, 为进一步诊治, 神经内科以“双下肢无力1月余”收治入本院。体格检查: 肌张力、双下肢腱反射亢进, 余无异常; 实验室检查: 脑脊液免疫球蛋白52.7 mg/L; 潘氏试验(+); 甲胎蛋白0.67 ng/mL, 脑脊液蛋白0.517 g/L; MRI检查: C₃₋₇椎体水平髓内见条状高

信号, STIR呈稍高信号; T₈椎体、附件见斑片状长T₁、长T₂信号(见图1、图2), 相应水平椎管内见软组织信号(见图1、图3), 相应水平脊髓受压(见图1、图2、图3), 髓内见稍长T₂信号, STIR呈高信号(见图1)。增强扫描显示T₈椎体、附件及椎管内硬膜外软组织呈明显强化(见图2、图3), 相应水平脊髓受压。诊断意见: (1)



图1: MRI扫描 T₂WI、T₂WI STIR SAG, 可见T₈椎体T₂WI呈高信号, 相应水平椎管内见软组织信号(黄色箭头), 脊髓受压(红色箭头), 髓内见稍长T₂信号, STIR呈高信号(绿色箭头)。

收稿日期: 2022-10-15; 修回日期: 2023-02-18

第一作者: 倪沙(1997—), 女, 2022级在读硕士研究生。E-mail: 2675934745@qq.com

*通信作者: 乔鹏飞, 男, 医学博士, 主任医师, 硕士研究生导师。研究方向: 中枢神经系统功能磁共振成像。

E-mail: qpff@126.com

C₃₋₇椎体水平髓内中央管扩张;(2)T₈椎体附件占位。PET-CT检查:T₈椎体及附件密度欠均匀,相邻脊髓受压,T₈椎体显像剂摄取减低,相邻脊髓可见显像剂摄取增高,最大SUV约2.3,T₁₂及L₁脊髓内条状显像剂摄取增高,最大SUV约1.6,CT相应部位可见低密度影。诊断意见:(1)T₈椎体及附件密度欠均匀,伴代谢减低;(2)T₁₂~L₁脊髓低密度影伴代谢增高,不排除血管细胞来源肿瘤,建议外科活检。

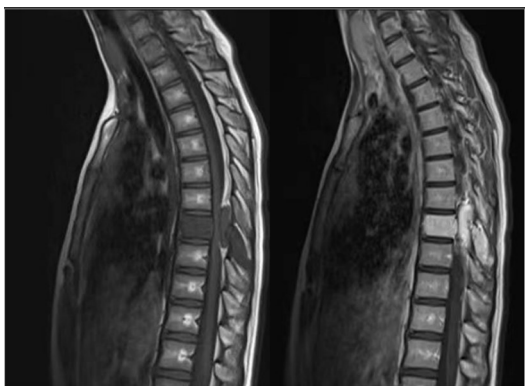


图2 MRI扫描 T1WI、T1WI+C SAG,T₈椎体、附件呈长T1信号,相应水平脊髓明显受压,增强扫描显示T₈椎体、附件及椎管内硬膜外软组织呈明显强化。

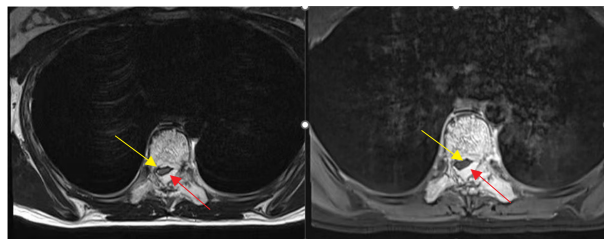


图3 T2WI、T1WI+C TRA,T₈椎体、附件病变在T2WI上呈不均匀高信号,增强扫描明显强化;T₈椎体水平见脊髓受压(黄色箭头),椎管内见软组织信号影(红色箭头)。

2 结果

患者后于上级医院行T₈腰椎穿刺活检并行外科治疗,病理活检结果为T₈血管瘤。

3 讨论

脊柱血管瘤属于血管畸形,是常见的脊柱良性肿瘤,胸椎是最常累及的部位,尤其是上胸椎^[5]。疾病分布具有性别差异特点,女性较男性多见,男女发病比约为1:1.3~1:2.25,并且发病的年龄峰值多

为40~50岁^[4,5]。脊柱侵袭性血管瘤占脊柱血管瘤的1%^[6],按照Enneking分期属于S3^[7],是指脊柱血管瘤呈侵袭性生长,不仅造成椎体骨质破坏,而且突破骨间室,向周围附件、椎管侵袭,导致脊髓和神经根等受压^[5,8];组织学上按组成成分不同分为:海绵状血管瘤、毛细血管血管瘤、混合型血管瘤,以海绵状血管瘤最为常见^[9]。典型临床表现为肿瘤所在的腰背部疼痛以及神经功能缺损症状^[4,8],如肢体麻木、肌张力减退或增强、腱反射亢进等,一旦肿瘤压迫马尾,还可出现马尾综合征。目前,外科手术依然被认为是最有效的治疗手段,常见治疗方式是穿刺椎体成形术^[10]。Ji等^[7]的研究表明,全脊椎整块切除术是骨破坏和神经功能缺损的侵袭性血管瘤患者的良好治疗选择。近年来儿童的发病率有所增加,国外学者研究发现,对于儿童的颈胸椎过渡段侵袭性血管瘤,开放穿刺椎体成形术治疗具有一定作用^[10]。

影像学方法是诊断脊柱侵袭性血管瘤的重要手段,除典型的圆点征、蜂窝状、栅栏样^[11]改变之外,可疑为脊柱侵袭性血管瘤的影像学表现还包括:发生于T₃₋₉的病变;椎体骨质破坏,但无典型影像学征象;病灶侵及附件;椎体外有软组织肿块;病变或软组织肿块纵向累及范围超过1个节段^[12,12]。MRI对于软组织结构显示更具优势,可清晰显示病变累及的附件范围,对椎管狭窄程度、脊髓受压和变性程度都有良好显示,作为CT的补充检查手段,能够在很大程度上提高病变检出率,提高诊断的准确率。病变在MRI表现复杂,信号强度与血管、脂肪细胞等所占比例相关,若血管成分多,脂肪成分少,则MRI信号减低,强化明显;若脂肪成分多,血管成分少,则MRI信号增高,强化程度减低。另外,如果肿瘤有急性出血,则T1WI及T2WI信号均减低。大多数侵袭性血管瘤在MRI上的信号为T1WI低信号、T2WI高信号,STIR上显示为高信号。增强扫描显著强化,提示血管成分丰富,脂肪所占比例少,是侵袭性血管瘤MRI强化的特征表现^[3]。椎旁软组织肿块影因椎间孔结构而呈哑铃状,软组织肿块增强后可见点状或条状低信号影,这种低信号影对于侵袭性血管瘤的诊断具有提示意义^[9]。

脊柱侵袭性血管瘤需与下列几种疾病相鉴别:

(1)脊柱孤立性浆细胞瘤:男性多于女性,本质为单克隆浆细胞的病理性增殖,肿瘤易发生于骨髓造血丰富的中轴骨,胸椎最常受累。MRI显示T1WI等

(下转第157页)

- development is delayed in jaws with short distal space: An early impaction sign? [J]. Arch Oral Biol, 2019, 106(C): 104475
- [15] Umale, Vinay. Molar Distalization A Review[J]. Indian Journal of Orthodontics and Dentofacial Research, 2020, 4(3): 146-150
- [16] Bowman S. Upper-Molar Distalization and Distal Jet[J]. Journal of clinical orthodontics: JCO, 2016, 50(3): 159
- [17] Kaur S, Soni S, Garg V, et al. Pendulum appliance and its modifications- A review[J]. Int J Curr Res Med Sci, 2018, 4(3): 1-9
- [18] Caprioglio, Alberto. Comparative Evaluation of Molar Distalization Therapy Using Pendulum and Distal Screw Appliances[J]. Korean Journal of Orthodontics, 2015, 45(4): 171-179
- [19] Yadav D, Kumar A, Chaudhary V. Molar distalization by different intraoral device in orthodontics: A review[J]. Int J Appl Dent Sci, 2021, 7(2): 432-436
- [20] 周小渝, 王梦琳, 王红梅, 等. Invisalign 无托槽隐形矫治技术推磨牙向远中的研究进展[J]. 临床和实验医学杂志, 2020, 19(11): 1230-1233
- [21] Ravera S, Castroflorio T, Garino F, et al. Maxillary molar distalization with aligners in adult patients: A multicenter retrospective study[J]. Prog Orthod, 2016, 17(1): 1-9
- [22] Caruso S, Nota A, Ehsani S, et al. Impact of Molar Teeth Distinction with Clear Aligners on Occlusal Vertical Dimension: a retrospective study[J]. BMC Oral Health. 2019, 19(1): 182
- [23] Jones, Jason P. Temporary Skeletal Anchorage Techniques[J]. Oral and Maxillofacial Surgery Clinics of North America, 2020, 32(1): 27-37
- [24] Khyati N, Siddarth S. Dentoalveolar Distalisation in Class III Skeletal Base Using Buccal Shelf Mini-Implants-A Case Report[J]. Orthod J Nepal, 2019, 9: 74-78
- [25] Bhardwaj A, Kumar Sharma A, Mishra K, et al. Skeletal Anchorage System [Miniplates] - An Orthodontic Perspective - A Review[J]. Acta Scie Dental, 2020, 4(10): 3-10

(上接第152页)

或稍高信号, T2WI 高信号, 病灶区内可见增厚且不规则的线样骨小梁^[13]; (2) 脊柱骨母细胞瘤: 是骨肉瘤的常见类型, 青少年居多, 于颈椎附件者中多见, 大部分人会出现骨和软组织水肿, CT 诊断价值较高, 可见膨胀性骨质破坏, 软组织肿块影, 硬化边以及病灶内散在或局灶性的钙化^[14, 15]; (3) 脊柱结核: 腰椎为最常见受累部位, 影像学上表现为不规则溶骨性骨质破坏。脊柱结核会影响机体的骨代谢进而影响骨质密度, 甚至造成骨质疏松。除此之外, 影像学表现还包括椎体变扁或塌陷, 椎间隙狭窄或消失, 脊柱旁常可见冷脓肿, 病灶内可见钙化影^[15]。

综上所述, 脊柱侵袭性血管瘤仅占脊椎血管瘤的 1%, 一般因脊髓及神经根受压而产生相应临床症状。本文报道病例与该病发生的常见年龄并不相符, 且实验室指标无特异性改变, 因此增加了疾病的诊断难度。CT 对于椎体骨质破坏的显示更佳, MRI 对于病变累及周围软组织和附件范围、椎管狭窄程度、脊髓受压程度和变性程度都有良好显示, 对于 CT 疑为侵袭性血管瘤但影像表现不典型, 或者难与其他病变鉴别时, MRI 检查可以作为有益的补充手段。但侵袭性血管瘤在 MRI 上的信号表现复杂, 因病变的不同组成成分而表现出不同的信

号, 掌握病变的病理组成对于 MRI 的信号分析有较大帮助。CT 与 MRI 检查各有优势, 两种影像学检查手段结合, 可明显提高该病的诊断准确率。

参考文献

- [1] 彭龙, 赵红卫, 刘扬, 等. 椎体侵袭性血管瘤 1 例[J]. 中国矫形外科杂志, 2019, 27(23): 2204-2206
- [2] Wang B, Zhang L, Yang S, et al. Atypical Radiographic Features of Aggressive Vertebral Hemangiomas [J]. The Journal of Bone and Joint Surgery. American Volume. 2019, 101(11): 979-986
- [3] 陆重元. CT 与 MRI 诊断脊柱侵袭性血管瘤的临床价值[J]. 系统医学, 2018, 3(7): 103-105
- [4] 王奔, 翟书珩, 姜亮, 等. 脊柱侵袭性血管瘤的诊断与治疗研究进展[J]. 中国脊柱脊髓杂志, 2022, 32(2): 184-188
- [5] Corniola MV, C Schonauer, G. Bernava, et al. Thoracic aggressive vertebral hemangiomas: multidisciplinary management in a hybrid room [J]. European Spine Journal: Official Publication of the European Spine Society, the European Spinal Deformity Society, and the European Section of the Cervical Spine Research Society. 2020, 29(12): 3179-3186
- [6] Qiu B, Joo P, Ajabnoor R, et al. Surgical management of aggressive hemangiomas of the spine [J]. Journal of Clinical Neu-

(下转第162页)

- [17]Valmiki S, Ahuja V, Puri N, et al. miR-125b and miR-223 contribute to inflammation by targeting the key molecules of NFκB pathway [J]. Front Med (Lausanne), 2019, 6: 313
- [18]Zhang L, Jiao GJ, Ren SW et al. Exosomes from bone marrow mesenchymal stem cells enhance fracture healing through the promotion of osteogenesis and angiogenesis in a rat model of nonunion [J]. Stem Cell Res Ther, 2020, 11(1): 38
- [19]Takeuchi R, Katagiri W, Endo S et al. Exosomes from conditioned media of bone marrow-derived mesenchymal stem cells promote bone regeneration by enhancing angiogenesis [J]. PLoS One, 2019, 14(11): e0225472
- [20]Jia YC, Zhu Y, Qiu S, et al. Exosomes secreted by endothelial progenitor cells accelerate bone regeneration during distraction osteogenesis by stimulating angiogenesis [J]. Stem Cell Res Ther, 2019, 10(1): 12
- [21]Lee YK, Kim HJ, Park CK et al. MicroRNA-124 regulates osteoclast differentiation [J]. Bone, 2013, 56(2): 383-389
- [22]Qiu XY, Liu J, Zheng C, et al. Exosomes released from educated mesenchymal stem cells accelerate cutaneous wound healing via promoting angiogenesis [J]. Cell Prolif, 2020, 53(8): e12830
- [23]Cui YG, Fu SL, Sun D, et al. EPC-derived exosomes promote osteoclastogenesis through LncRNA-MALAT1 [J]. J Cell Mol Med, 2019, 23(6): 3843-3854
- [24]Zhang S, Chu WC, Lai RC, et al. Exosomes derived from human embryonic mesenchymal stem cells promote osteochondral regeneration [J]. Osteoarthritis Cartilage, 2016, 24(12): 2135-2140
- [25]唐月颖, 王静, 赵娜, 等. 老年人肌肉减少症的研究现状及应对 [J]. 内蒙古医科大学学报, 2020, 42(1): 96-99

(上接第 157 页)

- rosience : Official Journal of the Neurosurgical Society of Australasia. 2020, 78: 67-72.
- [7]Ji XS Wang , Oner FC, et al. Surgical Management of Enneking Stage 3 Aggressive Vertebral Hemangiomas With Neurological Deficit by One-stage Posterior Total En Bloc Spondylectomy: A Review of 23 Cases [J]. Spine. 2020, 45(2): E67-E75
- [8]Huang Y, Xu W, Chen Q, et al. Treatment of Typical Enneking Stage 3 Thoracic Aggressive Vertebral Hemangiomas with Pain and Neurologic Deficits: Results After at Least 36 Months of Follow-Up [J]. World Neurosurgery. 2020, 134: e642-e648
- [9]连媛媛, 徐琦, 杨志涛, 等. 脊柱侵袭性血管瘤典型影像表现 [J]. 医学影像学杂志, 2022, 32(9): 1564-1566
- [10]Zaretskov VV, Arsenievich VB, Likhachev SV, et al. Surgical treatment of aggressive hemangiomas of the transitional cervical-thoracic spine in children (clinical observations, preliminary results) [J]. Pediatric Traumatology, Orthopaedics and Reconstructive Surgery. 2019, 7(2): 79-86
- [11]杨欢, 高剑波, 梁盼. 脊柱侵袭性血管瘤的 CT 和 MRI 影像学特点分析 [J]. 中国实用医刊, 2019, 46(2): 36-39
- [12]刘孝萍, 吴春根, 李明华, 等. 脊柱血管瘤的病理、临床及影像学分型与 PVP 的应用 [J]. 中国医学计算机成像杂志, 2011, 17(6): 565-568
- [13]兰晓飞, 樊成虎. 5 例脊柱孤立性浆细胞瘤的诊疗体会 [J]. 世界最新医学信息文摘, 2019, 19(99): 201-202+206
- [14]Mohammad S, Farzad MS, Hooman BM, et al. Osteoblastoma of C2 vertebrae presented with lymphadenopathy and torticollis: Case report and review of literature [J]. Interdisciplinary Neurosurgery: Advanced Techniques and Case Management. 2022.29: 101557
- [15]姬少绯, 杨黎, 牛军杰, 等. MRI 在脊柱血管瘤临床诊断中的应用 [J]. 中国医药科学, 2013, 3(4): 107-108+114