

## · 病例报告 ·

## 手术治疗髋关节色素沉着绒毛结节性滑膜炎一例

邹鹏<sup>1</sup> 张龙<sup>1</sup> 王敏<sup>2</sup> 黄小强<sup>2</sup>

色素沉着绒毛结节性滑膜炎(pigmented villonodular synovitis, PVNS)是一种较为罕见的滑膜增生病变<sup>[1,2]</sup>,其病理特征为关节滑膜呈广泛绒毛状增生或肉芽肿结节状增生,肉芽结节内细胞及血管丰富,含大量铁血黄素沉着及纤维基质、脂质、多核巨细胞、淋巴细胞、泡沫细胞以及大量吞噬细胞,滑膜间质肥厚充血,组织细胞浸润。据文献统计,PVNS发病率为1.8/100万<sup>[3]</sup>,好发年龄段为30~40岁<sup>[4]</sup>。PVNS具有骨侵蚀性,可能会侵蚀、破坏滑膜周围的关节软骨和骨<sup>[5-7]</sup>。PVNS发病部位一般为单关节,膝关节较为常见,其次为髋关节和踝关节。其中,髋关节PVNS发病率约为15%<sup>[2]</sup>,复发率为6.98%<sup>[8]</sup>。西安交通大学医学院附属红会医院中西医结合骨科于2018年2月21日收治1例髋关节弥散型PVNS病人,行开放式滑膜切除术治疗,术后1年髋关节功能恢复良好。

## 临床资料

病人,男,29岁,左髋疼痛1年,2018年2月21日收治入院。体格检查:左髋关节轻度压痛,以外侧和腹股沟为主;左下肢肌肉无明显萎缩;左髋关节叩痛及轴向叩击痛(+),4字实验(+),屈曲内旋疼痛(+),外展、内收可。双髋X线片:左髋髋臼圆形低密度灶,髋臼骨质稍硬化,边缘模糊不清(图1 a)。双髋MRI:左髋关节腔及周围软组织异常信号,左侧髋臼、股骨头、股骨颈、大粗隆皮质受累,周围骨髓腔反应性水肿(图1 b)。术前诊断:左髋关节PVNS。

入院3 d后,在全身麻醉下行左髋关节PVNS清理术。以大转子顶点为中心,取左髋关节后外侧,作一长约15 cm的切

口,逐层切开皮肤、皮下组织及阔筋膜。将臀大肌拉向后方,同时将左下肢内旋,定位臀中肌后缘,从大粗隆后方作一标记,向远端延伸至股外侧肌后缘,使用摆锯沿此标记作股骨粗隆截骨术,最大厚度约1.5 cm,截骨近端止于臀中肌止点最后缘前方。游离截骨块,将股外侧肌移至前方。充分松解梨状肌腱性纤维,屈曲病人大腿并轻微外旋,将股外侧肌和股中间肌从股骨外侧拉起,牵拉臀中肌后缘,暴露梨状肌肌腱;分离臀小肌下缘,掀起肌骨瓣暴露关节囊;“Z”形切开发节囊,并将其拉开,暴露孟唇,屈曲外旋小腿,使关节脱位。术中见髋臼及股骨头局部铁锈色病灶(图1 c、d),将其充分清理;探查周围关节囊,将可视病灶充分清理。于股骨头及髋臼骨缺损处植骨;予以充分清洗,关节复位;于大粗隆截骨处予以螺钉固定截骨。术中标本送病理学检查。

术后诊断:左髋关节PVNS。术后病理学检查结果:可见大量纤维性渗出及含铁血黄素沉着(图2)。术后即刻X线片示病灶清除完整。病人拒绝辅助放疗未予以放疗。术后3个月X线片示病灶愈合好,未见复发病灶(图1 e)。术后1年复查,病人髋关节无疼痛、不适,功能活动良好,生活质量良好。

## 讨论

PVNS分为局部型和弥散型两种,弥散型PVNS发病率为局部型的3.1倍<sup>[3]</sup>。目前,PVNS主要治疗方法为关节镜滑膜切除术或开放式滑膜切除术。关节镜滑膜切除术具有切口小、手术时间短和创伤小等优点。局部型PVNS关节镜滑膜切除术的复发率要低于开放式滑膜切除术<sup>[9]</sup>。但对于弥

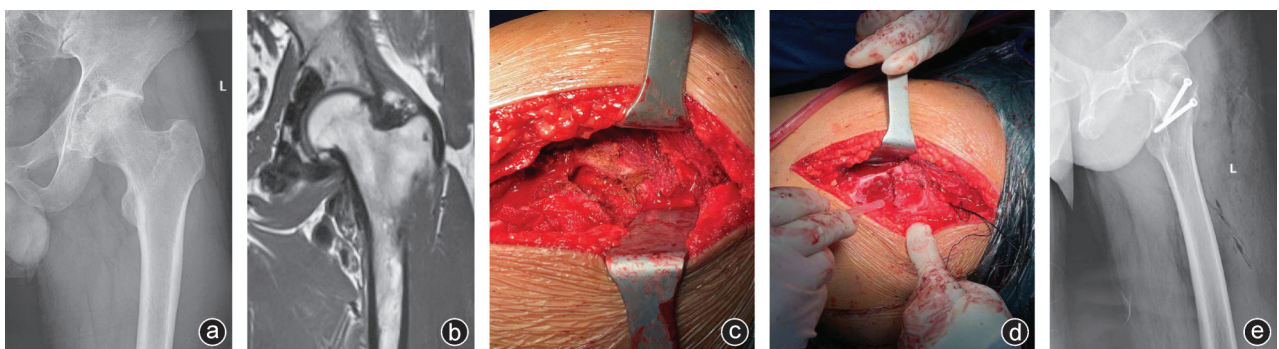


图1 病人,男,29岁,左髋疼痛1年 a:术前X线片示左髋髋臼圆形低密度灶,髋臼骨质稍硬化,边缘模糊不清;b:术前MRI示左髋关节腔及周围软组织异常信号,左侧髋臼、股骨头、股骨颈、大粗隆皮质受累,周围骨髓腔反应性水肿;c、d:术中探查,可见铁锈色病灶;e:术后3个月X线片示病灶愈合好,未见复发病灶

DOI:10.3969/j.issn.1674-8573.2019.06.018

基金项目:陕西省重点研发计划(2018SF-195)

作者单位:1. 西安医学院,西安 710068;2. 西安交通大学医学院附属红会医院中西医结合骨科,西安 710054

通信作者:黄小强,E-mail:huangxq73@163.com

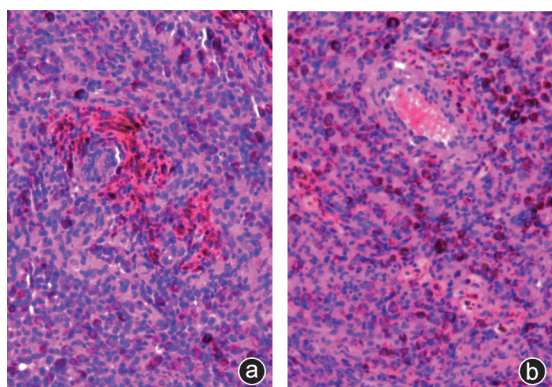


图2 病理学检查结果 a、b:可见大量纤维性渗出及含铁血黄素沉着(×100)

散型 PVNS 的治疗方法尚存争议,理论上 PVNS 有可能广泛侵入相邻的关节外结构,如肌肉、肌腱和骨骼,尤其是弥散型 PVNS<sup>[5-7]</sup>,使用关节镜很难进入 PVNS 组织。考虑到 PVNS 的复发特性,术中尽量完全清除病变滑膜组织及其侵犯结构,开放式滑膜切除术完成以上要求的可能性更高,可考虑为治疗弥散型 PVNS 的主要方案<sup>[10-12]</sup>。

PVNS 术后复发率高,但复发因素尚不清楚。目前,普遍认为小动脉滑膜切除术导致的弥漫性变异和残留疾病是导致 PVNS 复发的原因。一方面是术中病灶切除不彻底,另一方面是小血管的污染。所以,手术经验丰富、操作熟练的医师通过术中准确、彻底地切除病灶可降低复发率,但又涉及术者个体化差异,所以并不能成为降低 PVNS 整体复发率的有效因素。

对于 PVNS 术后是否进行辅助放疗,笔者认为除去具有争议的儿童病人(放疗会破坏骨骺的发育<sup>[13]</sup>),在成年病人知情同意的前提下,可以考虑进行低剂量的辅助放疗以降低 PVNS 的复发率。Park 等<sup>[14]</sup>报道了一项术后低剂量辅助放疗(4 MV 或 6 MV 外照射放疗)治疗 PVNS 的研究,23 例病人经过 9 年随访仅 4 例局部复发,并在翻修术中得到了良好的控制,没有病人罹患更高的辐射相关毒性或辐射诱发的继发性恶性肿瘤,与其他研究<sup>[15-20]</sup>报道结果相似。

本文病人为弥散型 PVNS,并已侵入部分骨质,故采用开放式滑膜切除术配合股骨大粗隆截骨术,较大幅度暴露手术视野,尽可能清除病变组织。由于该病人拒绝术后辅助放疗,未给予辅助放疗;术后 1 年复查,未复发 PVNS,病人生活质量良好。该病人的长期治疗效果还需要进一步随访,以期临床手术治疗 PVNS 提供参考依据。

## 参 考 文 献

- [1] Verspoor FG, van der Geest IC, Vegt E, et al. Pigmented villonodular synovitis: current concepts about diagnosis and management [J]. *Future Oncol*, 2013, 9(10): 1515-1531.
- [2] Botez P, Sirbu PD, Grierosu C, et al. Adult multifocal pigmented villonodular synovitis — clinical review [J]. *Int Orthop*, 2013, 37(4): 729-733.
- [3] Myers BW, Masi AT. Pigmented villonodular synovitis and tenosynovitis: a clinical epidemiologic study of 166 cases and literature review [J]. *Medicine (Baltimore)*, 1980, 59(3): 223-238.
- [4] Chin KR, Brick GW. Extraarticular pigmented villonodular synovitis: a cause for failed knee arthroscopy [J]. *Clin Orthop Relat Res*, 2002(404): 330-338.
- [5] Ray RA, Morton CC, Lipinski KK, et al. Cytogenetic evidence of clonality in a case of pigmented villonodular synovitis [J]. *Cancer*, 1991, 67(1): 121-125.
- [6] Young G, Marshall H. Pigmented villonodular synovitis involving bone. A case report and literature review [J]. *J Am Podiatr Med Assoc*, 1989, 79(7): 345-347.
- [7] Kindblom LG, Gunterberg B. Pigmented villonodular synovitis involving bone. Case report [J]. *J Bone Joint Surg Am*, 1978, 60(6): 830-832.
- [8] Xie GP, Jiang N, Liang CX, et al. Pigmented villonodular synovitis: a retrospective multicenter study of 237 cases [J]. *PLoS One*, 2015, 10(3): e121451.
- [9] Flandry FC, Jacobson KE, Andrews JR. Localized pigmented villonodular synovitis of the knee mimicking meniscal injury [J]. *Arthroscopy*, 1986, 2(4): 217-221.
- [10] Vastel L, Lambert P, De Pinieux G, et al. Surgical treatment of pigmented villonodular synovitis of the hip [J]. *J Bone Joint Surg Am*, 2005, 87(5): 1019-1024.
- [11] Wu CC, Pritsch T, Bickels J, et al. Two incision synovectomy and radiation treatment for diffuse pigmented villonodular synovitis of the knee with extra-articular component [J]. *Knee*, 2007, 14(2): 99-106.
- [12] Zvijac JE, Lau AC, Hechtman KS, et al. Arthroscopic treatment of pigmented villonodular synovitis of the knee [J]. *Arthroscopy*, 2005, 15(6): 613-617.
- [13] Ottaviani S, Ayril X, Dougados M, et al. Pigmented villonodular synovitis: a retrospective single-center study of 122 cases and review of the literature [J]. *Semin Arthritis Rheum*, 2011, 40(6): 539-546.
- [14] Park G, Kim YS, Kim JH, et al. Low-dose external beam radiotherapy as a postoperative treatment for patients with diffuse pigmented villonodular synovitis of the knee: 4 recurrences in 23 patients followed for mean 9 years [J]. *Acta Orthop*, 2012, 83(3): 256-260.
- [15] Blanco CE, Leon HO, Guthrie TB. Combined partial arthroscopic synovectomy and radiation therapy for diffuse pigmented villonodular synovitis of the knee [J]. *Arthroscopy*, 2001, 17(5): 527-531.
- [16] Horoschak M, Tran PT, Bachireddy P, et al. External beam radiation therapy enhances local control in pigmented villonodular synovitis [J]. *Int J Radiat Oncol Biol Phys*, 2009, 75(1): 183-187.
- [17] Berger B, Ganswindt U, Bamberg M, et al. External beam radiotherapy as postoperative treatment of diffuse pigmented villonodular synovitis [J]. *Int J Radiat Oncol Biol Phys*, 2007, 67(4): 1130-1134.
- [18] O'Sullivan B, Cummings B, Catton C, et al. Outcome following radiation treatment for high-risk pigmented villonodular synovitis [J]. *Int J Radiat Oncol Biol Phys*, 1995, 32(3): 777-786.
- [19] Heyd R, Micke O, Berger B, et al. Radiation therapy for treatment of pigmented villonodular synovitis: results of a national patterns of care study [J]. *Int J Radiat Oncol Biol Phys*, 2010, 78(1): 199-204.
- [20] Chin KR, Barr SJ, Winalski C, et al. Treatment of advanced primary and recurrent diffuse pigmented villonodular synovitis of the knee [J]. *J Bone Joint Surg Am*, 2002, 84(12): 2192-2202.

(收稿日期: 2019-03-29)

(本文编辑:孙琴)