

## 足部肿瘤样钙质沉着症一例报道

王振<sup>1</sup> 明晓锋<sup>1</sup> 葛立业<sup>1</sup> 俞光荣<sup>2</sup> 刘青<sup>1</sup> 王社言<sup>1</sup> 杨波<sup>1</sup> 冯彦江<sup>1</sup> 苏攀<sup>1</sup> 李东升<sup>1</sup>

肿瘤样钙质沉着症(tumoral calcinosis, TC)曾被称作钙化性胶原溶解、瘤样钙化症、臀石,为临床罕见病<sup>[1-2]</sup>,该病可见于所有年龄,最常见于青春期<sup>[3]</sup>。其发病率、病因和发病机制尚不明确。临床表现为关节周围软组织肿块,不累及关节滑膜,肿块主要由钙磷沉着形成,导致关节功能受限,病程缓慢、渐进<sup>[4]</sup>,属于罕见病<sup>[5]</sup>,发病机制尚未达成共识。既往报告的TC多发生于四肢大关节附近,以髋关节附近最为多见。本例病人发生于足部,较为罕见。本文报告河南省洛阳正骨医院(河南省骨科医院)2023年8月收治的一例足部TC病例。

### 临床资料

#### 一、病史

病人,女,51岁,以“左足背部肿块12年,疼痛不适5年”入院。病人12年前无明显诱因出现左足背肿块,无明显疼痛不适,未行特殊处理,5年前开始出现左足背部疼痛,晨起时疼痛加重,活动后疼痛稍缓解,休息后再活动疼痛加重,期间给予膏药外敷(具体不详),症状缓解不明显,为进一步治疗来诊。既往:有左足部外伤史,无心脑血管及其他疾病。

#### 二、体检

左足背内侧可见明显高突畸形,第1/2趾蹼间隙增宽。第1跖趾关节外侧可见高突,局部皮肤颜色无异常,局部皮温不高,无异常活动,按压时局部疼痛加重,未见明显浅表静脉曲张;距舟及第1跖楔关节周围可触及一质硬骨性突起,大小约7×3×1 cm,局部皮温不高,无异常活动,按压时疼痛,未见明显浅表静脉曲张。第1跖趾关节活动度消失,距舟、舟楔及第1跖楔关节活动度消失,踝关节跖屈40°,背伸0°,患肢末梢血运可,感觉可,足背动脉搏动可。足部外形见图1 a、b。

#### 三、检查

实验室检查,甲状腺球蛋白抗体(TG-Ab)为3205 IU/mL,参考值为0~115 IU/mL;抗甲状腺过氧化物酶抗体(TPO-Ab)为154.7 IU/mL,参考值为0~34 IU/mL。余无异常。

影像资料见图1 c~k,可见距骨颈至第1跖楔关节背侧骨性隆起,第1跖趾关节背外侧可见骨性隆起,局部有高密度增高影。

#### 四、诊断与治疗

综合体格检查及影像学检查,初步诊断为“左足部肿块(性质待查)”。考虑患肢疼痛症状明显,经系统保守治疗效果不佳,向病人及家属交代手术必要性并获得同意后行左足部肿块手术切除,术中切除组织行病理检查。

手术采用全身麻醉,病人取仰卧位,左大腿近端上止血带,左下肢常规消毒铺巾,下肢抬高2 min,止血带充气加压至38 kPa。取左足背切口从踝关节前正中沿着足背肿块背侧向远端延伸至第1/2趾蹼,逐层切开皮肤及皮下组织,电凝止血,保护足背内侧皮神经及足背血管束,切口远端保护足背静脉弓,暴露足背部第1跖趾关节,第1跖趾关节背侧及外侧可见大量骨赘增生形成,跖趾关节背侧撞击,骨性增生波及跖骨头背外侧,以跖骨头关节面为参考切除多余骨赘,跖骨颈及体部骨赘参考跖骨体外侧皮质修整光滑,骨赘质硬,与正常骨组织无明显边界,被动活动跖趾关节见第1跖趾关节背伸活动度恢复,用1枚1.5克氏针固定第1跖趾和趾间关节。向近端暴露整个足背部骨赘,足背部骨赘从距骨颈延伸至第1/2跖楔关节,以足背部骨质为参考用摆锯剔除足背多余骨赘,修正足背部骨面,打磨光滑足背骨面,被动活动见跖楔关节活动度恢复,舟楔关节活动恢复,用1枚2.0克氏针固定第1跖楔、舟楔、距舟关节,从第4跖骨基底置入一枚2.0克氏针固定跖楔关节,固定后足背部关节稳定,彻底止血,冲洗伤口,骨面用骨蜡处理,清点敷料器械无误后,逐层缝合伤口,术毕。术中图片见图1 l~o。

#### 五、结果

病人术后3天左足部疼痛不适明显缓解,术后复查影像资料见图1 p~t,组织病理学见图1 u、v,组织内为部分骨质和纤维增生。伤口一期愈合,术后2周伤口拆线。术后1个月拔出足部克氏针,病人逐步负重活动。

### 讨论

TC是一种罕见的代谢性骨病,是营养不良性钙沉着局限型的一个亚型<sup>[6]</sup>。世界卫生组织软组织肿瘤组织学新分类(1994)曾将其命名为肿瘤样钙化,现普遍通用TC。除部分原发性TC已经发现了明确的致病基因,大部分TC的病因和发病机制尚不明确。本病的文献报道主要来自非洲和中东地区<sup>[7]</sup>。

TC临床上常误诊为恶性肿瘤或结核,诊断需结合临床、影像和术中所见以及病理检查的特点,多数病因不明确,可分为原发性和继发性。其组织病理学特点为巨噬细胞、破骨细胞样巨细胞、成纤维细胞和慢性炎症细胞包裹钙化物质,

DOI:10.3969/j.issn.1674-8573.2024.01.018

作者单位:1. 河南省洛阳正骨医院(河南省骨科医院),郑州450000;2. 上海市同济医院,上海 200065

通信作者:明晓锋,E-mail:13613713115@163.com



图1 病人围手术期资料 a,b:术前外观,图中X形标记为足部痛点,足部外形可见内侧足背部隆起,第1跖趾关节背侧隆起;c-e:足正、侧、斜位X线片,可见距骨颈至第1跖楔关节背侧骨性隆起,第1跖趾关节背外侧可见骨性隆起,局部有高密度增高影;f-h:术前CT示足背距骨颈至第1跖楔关节背侧骨性突起,关节间隙变窄,跖趾及跗骨间关节背侧有撞击;i-k:术前磁共振示足部多余骨赘信号较正常骨组织信号弱;l:距骨颈至第1跖楔关节背侧骨性隆起暴露;m:第1跖趾关节背外侧骨性隆起暴露;n,o:术中切除组织;p,q:术后X线片,由于切除骨性突起导致跗骨间关节失稳,给予克氏针固定4周;r-t:术后CT示骨性突起切除彻底,第1跖趾关节隙好,跖趾关节及跗骨间关节背侧撞击切除;u,v:病理检查结果为骨质及纤维组织增生,镜下为非活动期,考虑TC

形成多结节性病变。镜下可分为活动期和非活动期。活动期时中央为钙化物,周围是增生的炎细胞;非活动期时仅见钙化物质,周围是纤维组织<sup>[8]</sup>。既往文献报道 TC 多发生于大关节周围的伸侧软组织内,常见的病灶位置依次是髌、肘和肩,其他位置包括腕、臀部、阴囊,而脊柱和远端肢体比较少见<sup>[9-10]</sup>。本例患肢发生于足部伸侧,较为罕见。

TC 的 X 线片主要表现为关节周围软组织中出现大小不等的结节状、分叶状致密团块,多数在伸肌侧呈椭圆形或圆形不等,边缘光滑,随着拍摄角度不同而纤维为“蜡滴状”或“流柱状”表现;也有学者报道影像学典型表现为“鸡笼”状、“桑葚”状或结节状致密影<sup>[11]</sup>,界限清楚。有时可发现附近骨质破坏,但无骨膜反应,团块内无骨小梁或分割透明带。

本病实验室检查多数无异常,有病例会出现血磷偏高或 1.25 二羟维生素 D 升高,或因伴发疾病不同(如甲状旁腺机能亢进,尿毒症等)可出现相应生化结果异常。有学者根据血磷水平分为高血磷型组和正常血磷型组<sup>[12]</sup>。本病例出现 TG-Ab、TPO-Ab 异常,请内分泌医师会诊专科治疗。

本病需要与其他类软组织钙化性疾病(如痛风、弥漫性或局限性钙质沉着症、转移性钙化、骨化性肌炎等)鉴别。痛风病人多有尿酸增高,急性发作时有关节的红肿热痛功能障碍,多侵犯第一跖趾关节,破坏关节面,而本病不破坏关节。随着近年来对 TC 的认识不断增加,根据临床表现和 X 线片表现多能对 TC 作出诊断。但确诊仍需要病理检查。

左庆瑶等<sup>[5]</sup>报道 32 例 TC 病人,3 例病灶位于面颊、臀部、肩关节内,尚未影响日常活动而未行手术治疗;29 例病人进行肿物切除术,术中可见钙化组织呈白色膏状、粉状或干酪样物,2 例表现为附着于韧带、滑膜和关节囊上的钙化斑,6 例肿物与周围组织粘连紧密。手术后疼痛、活动障碍、麻木等症状均缓解。

多数学者认为手术切除是治疗本病的有效方法<sup>[13]</sup>,且手术时应连包裹组织及钙化团块一并清除,否则易于复发或瘻道不易愈合。笔者认为需判断活动期和非活动期。活动期要彻底刮除病灶;非活动期时仅见钙化物质,周围为纤维组织,根据病人局部情况,可适当保留局部骨质,本病人属非活动期。再者若切除过度需考虑第一跖骨头重建问题,故保留部分钙化物质是可行的。

本病的预后比较好,存在一定的复发率,若复发无症状可不干预,若有症状要根据病情个性化处理。本病例提示左足部 TC,该病尚未得到充分的认识,病因、发病机理、分型、治疗还存在较多争议,故临床遇见本病要结合影像科、内分泌科、骨肿瘤科等多学科会诊,最终制定合理的治疗方案。

## 参 考 文 献

- [1] 敖锋,张自力,陈光斌,等. 肿瘤样钙质沉着症的影像学表现[J]. 医学影像学杂志, 2021, 31(6): 1059-1062.
- [2] Tiwari V, Goyal A, Nagar M, et al. Hyperphosphataemic tumoral calcinosis[J]. Lancet, 2019, 393(10167): 168.
- [3] 刘南楠,曾艳梅. 肿瘤样钙质沉着症临床特点与疾病风险因素[J]. 分子影像学杂志, 2023, 46(6): 1009-1014.
- [4] 纪涛涛,闵晓燕,徐官珍,等. 髌部肿瘤样钙质沉着症 1 例[J]. 医学影像学杂志, 2022, 32(4): 718-719.
- [5] 左庆瑶,刘宝岳,王红,等. 肿瘤样钙质沉着症 32 例临床和病理分析[J]. 中国医刊, 2021, 56(11): 1211-1214.
- [6] Benkő KJ, Arató E, Jillek T. [Tumoral calcinosis--a rare benign calcification of soft tissue] [J]. Orv Hetil, 1995, 136(26): 1393-1395.
- [7] Boyce AM, Lee AE, Roszko KL, et al. Hyperphosphatemic tumoral calcinosis: pathogenesis, clinical presentation, and challenges in management[J]. Front Endocrinol (Lausanne), 2020, 11: 293.
- [8] 李天英,郭春华,戚沛霖,等. 肿瘤样钙质沉着症 10 例临床病理分析[J]. 中华老年医学杂志, 2013, 32(7): 766-768.
- [9] Ramnitz MS, Gourh P, Goldbach-Mansky R, et al. Phenotypic and genotypic characterization and treatment of a cohort with familial tumoral calcinosis/hyperostosis-hyperphosphatemia syndrome [J]. J Bone Miner Res, 2016, 31(10): 1845-1854.
- [10] Fathi I, Sakr M. Review of tumoral calcinosis: a rare clinico-pathological entity[J]. World J Clin Cases, 2014, 2(9): 409-414.
- [11] Olsen KM, Chew FS. Tumoral calcinosis: pearls, polemics, and alternative possibilities[J]. Radiographics, 2006, 26(3): 871-885.
- [12] Sandomenico F, Corvino A, Ronza FM, et al. Recurrence of tumoral calcinosis: a case report[J]. Acta Biomed, 2019, 90(4): 587-594.
- [13] 王铭,杨学桥,刘会欣,等. 双髂部巨大瘤样钙盐沉积症一例报告[J]. 骨科, 2015, 6(2): 107-108.

(收稿日期: 2023-09-11)

(本文编辑: 龚哲妮)

## 引用格式

王振,明晓锋,葛立业,等. 足部肿瘤样钙质沉着症一例报道[J]. 骨科, 2024, 15(1): 86-88. DOI: 10.3969/j.issn.1674-8573.2024.01.018.