

# 一例少见的胸椎后纵韧带骨化症合并弥漫性特发性骨肥厚症病人的手术治疗:病例报告及文献回顾

周政纲<sup>1</sup> 黄浩然<sup>1</sup> 沈世彬<sup>1</sup> 李亮<sup>1</sup> 马建林<sup>1</sup> 周盛源<sup>2</sup> 陈雄生<sup>2</sup>

**【摘要】** 报道一例40岁男性病人,因进行性双下肢无力入院,其他伴随症状主要包括双下肢麻木,大小便费力。入院诊断为胸椎后纵韧带骨化症合并弥漫性特发性骨肥厚症并进行手术治疗。回顾病史发现,该病人5年前因胸椎后纵韧带骨化症于我院住院并行手术治疗,术后病人原手术减压区域再次发生骨化并出现其他部位后纵韧带骨化加重,导致胸椎椎管狭窄。病人第一次住院时身体质量指数(BMI)46.3 kg/m<sup>2</sup>,体重150 kg;第二次住院时,其BMI达到了惊人的49.33 kg/m<sup>2</sup>,体重也升至160 kg。我们回顾分析整理了该病人的手术资料并予以汇报。胸椎后纵韧带骨化症合并弥漫性特发性骨肥厚症的临床病例少见,该病人超大体重给治疗带来了挑战,手术减压治疗是治疗此类疾病的有效手段。

**【关键词】** 后纵韧带骨化;弥漫性特发性骨肥厚症;胸椎

后纵韧带骨化是指脊柱韧带结构的异位骨化现象<sup>[1]</sup>,韧带结构呈现一种骨质增生的状态。临床报道中后纵韧带骨化好发于颈椎,胸腰椎后纵韧带骨化的发生率较低<sup>[2-3]</sup>。后纵韧带骨化症主要表现为脊髓症状或根性症状,严重者可出现神经病变导致的肢体麻木或功能障碍,严重影响病人的生活质量。迄今为止,外科减压手术仍是治疗后纵韧带骨化症的首选治疗方案。弥漫性特发性骨肥厚症是指由于骨赘形成引起的相邻椎体的融合性改变,其病理机制目前仍然不明确。本文报道一例少见的胸椎后纵韧带骨化症合并弥漫性特发性骨肥厚症病人两次手术治疗过程,并进行文献回顾,为此类疾病的诊治提供参考。

## 临床资料

病人,男,40岁,因“双下肢无力3个月,加重伴行走困难1个月”于2019年12月6日初次就诊。病人于3个月前搬重物后出现双下肢无力伴麻木,长时间行走后症状加重,休息后症状缓解,自行予以药物治疗,效果欠佳。近1个月内,感双下肢麻木、乏力症状加重,有“踩棉感”,小便费力。遂到青岛市城阳区人民医院就诊。该病人既往身体健康,有吸烟史,已婚,育有1女。

体格检查:生命体征平稳,脊柱四肢无畸形,自脐平面以下皮肤痛觉迟钝,双上肢各肌群肌力5级,双下肢各肌群肌力3级,双下肢肌张力增高,双侧膝腱反射及跟腱反射活跃,双侧 Hoffmann 征阴性,双侧 Babinski 征阴性。实验室检查无异常。影像学检查(图1 a~d):完善全脊柱X线片可见L<sub>2-4</sub>水

平椎体前方明显连续的骨赘形成并呈现融合状态,胸腰椎CT及MRI检查提示T<sub>10</sub>、T<sub>11</sub>水平后纵韧带骨化,导致严重的椎管狭窄,脊髓受压表现;T<sub>5-7</sub>水平轻度后纵韧带骨化改变。入院诊断为胸椎后纵韧带骨化症(T<sub>9-11</sub>),胸椎椎管狭窄症。完善术前检查并讨论后,2019年12月10日我们为其实施了胸椎后路T<sub>8-11</sub>节段的椎板切除减压术,术中将T<sub>8-11</sub>椎板磨除,见T<sub>10</sub>、T<sub>11</sub>水平严重后纵韧带骨化,用磨钻将骨化物大部磨除,360°环形减压满意,手术历时约6 h,过程顺利。术后CT示T<sub>8-11</sub>骨化的后纵韧带被完全切除,椎管扩大(图1 e、f)。

术后予以营养神经,减轻脊髓水肿及预防感染等药物治疗,并及时行康复锻炼。术后7天,病人脐以下平面皮肤感觉部分恢复,双下肢肌力恢复到4级。术后第8天,病人转到康复科继续行康复治疗。病人术后6个月随访,病人双下肢肌力恢复到4+级,生活工作基本正常。复查CT可见T<sub>5-7</sub>水平的后纵韧带骨化(图1 g、h)。

第一次术后5年,该病人因“进行性双下肢麻木、无力15天”于2024年4月27日再次入院。病人15天前无诱因出现双下肢麻木、无力,不能站立及行走,有“踩棉感”,伴有大小便费力。

体格检查:生命体征平稳,胸背部伤口愈合良好,病人自剑突平面以下皮肤痛觉迟钝,双上肢各肌群肌力5级,双下肢各肌群肌力2级,双下肢肌张力增高,双侧膝腱反射及跟腱反射亢进,双侧 Hoffmann 征阴性,双侧 Babinski 征阴性。实验室检查提示糖化血红蛋白值轻度增高。影像学检查(图2 a~d):完善全脊柱X线片可见T<sub>10</sub>~L<sub>4</sub>水平椎体前方明显的连续的骨赘形成并呈现融合状态,胸椎CT及MRI提示T<sub>10</sub>~L<sub>4</sub>水平椎体前方明显的连续骨赘形成并呈现融合状态,T<sub>5-7</sub>节段后纵韧带骨化较第一次住院时明显增大,脊髓受压明显。原T<sub>8-11</sub>后方减压水平出现弥漫性骨质增生并再次导致椎管狭窄。入院诊断为胸椎后纵韧带骨化症(T<sub>5-7</sub>),弥漫性特发性骨肥厚症(T<sub>9-11</sub>、T<sub>12</sub>~L<sub>2</sub>),胸椎椎管狭窄症。经过完善术前

DOI: 10.3969/j.issn.1674-8573.2024.05.016

作者单位:1. 青岛市城阳区人民医院脊柱外科,山东青岛266109;2. 海军军医大学第二附属医院(上海长征医院)脊柱外科,上海200001

通信作者:陈雄生, E-mail: 17866622542@163.com



图1 第一次住院时的影像资料 a,b:术前全脊柱X线片,侧位片可见L<sub>2-4</sub>水平椎体前方明显且连续的骨赘形成并呈现融合状态;c,d:CT及MRI图像显示多个区域的骨赘形成及T<sub>9-11</sub>、T<sub>12</sub>~L<sub>1</sub>水平的后纵韧带骨化,此时CT影像上可见T<sub>5-7</sub>水平的轻度后纵韧带骨化改变;e,f:第一次术后CT示T<sub>8-11</sub>骨化的后纵韧带被完全切除,椎管扩大;g,h:第一次术后6个月复查CT可见T<sub>5-7</sub>水平的后纵韧带骨化



图2 第二次住院时影像资料 a,b:术前全脊柱X线片,侧位片可见T<sub>10</sub>~L<sub>4</sub>水平椎体前方明显的连续的骨赘形成并呈现融合状态;c,d:CT及MRI显示胸腰椎前方连续多节段骨赘形成呈称融合状态,T<sub>5-7</sub>节段后纵韧带骨化较第一次住院时明显增大,脊髓受压明显,原T<sub>8-11</sub>后方减压水平出现弥漫性骨质增生并再次导致椎管狭窄;e:第二次手术切除的T<sub>5-8</sub>的椎板和T<sub>9-11</sub>水平增生肥厚的骨质;f,g:第二次手术后CT表现

检查及讨论后,2024年4月30日我们为其施行胸腰椎后路椎板切除减压内固定术(T<sub>5</sub>~L<sub>5</sub>),术中用磨钻磨除T<sub>5-8</sub>的椎板和T<sub>9-11</sub>水平增生肥厚的骨质,扩大椎管减压,行T<sub>5</sub>~L<sub>5</sub>椎弓根钉内固定术。手术历时约8 h,出血1 500 mL,输血700 mL。麻醉苏醒后病人双下肢肌力0级,术后予以营养神经,减轻脊髓水肿及预防感染等药物治疗,并及时行康复锻炼。术后7天,病人剑突以下平面皮肤感觉部分恢复,双下肢肌力恢复到2级。术后第8天,病人转到康复科继续行康复治疗。

### 讨 论

胸椎后纵韧带骨化是相对罕见的疾病,其压迫胸段脊髓可出现胸部束带感、下肢麻木、无力以及大小便功能障碍等脊髓受压症状<sup>[4-5]</sup>。许多文献表明后纵韧带骨化是一种特发性多因素疾病,有基因因素,也有诸如饮食、肥胖、后纵韧带结构的机械应力,年龄以及糖代谢异常等非遗传因素的影响<sup>[6-9]</sup>。尽管胸椎后纵韧带骨化症的发生率不高,但是其病情进展缓慢,致残率高,手术风险大,术后麻木发生率高<sup>[10]</sup>。文献报道对颈椎或胸腰椎后纵韧带骨化症病人,手术治疗可以有效地改善临床症状,促进脊髓恢复<sup>[11]</sup>。

弥漫性特发性骨肥厚症是一种系统性非感染性疾病,病因不明,其特征性的表现为大量表浅而不规则的椎体前缘和侧缘骨质增生,相互融合形成椎体前广泛肥厚的骨块<sup>[12]</sup>。对弥漫性特发性骨肥厚症目前没有统一的诊断标准,仍沿用Resnick和Niwayama<sup>[13]</sup>于1976年提出的诊断标准:至少连续4个椎体的前外侧缘出现钙化和骨化,伴或不伴有明显的赘生物;椎间隙存在,缺少典型的退行性椎间盘疾病广泛的改变;无关节突关节的骨强直、侵袭硬化,或骶髂关节融合。时至今日,我们对弥漫性特发性骨肥厚症的病因学及病理机制知之甚少;也有作者报道了该疾病和年龄增加、高血压、肥胖以及2型糖尿病存在相关性<sup>[14]</sup>。有文献报道了弥漫性特发性骨肥厚症和代谢性疾病及心血管疾病存在相关性<sup>[15]</sup>。在弥漫性特发性骨肥厚症病人的自然病史研究中发现,其具有强大的骨质再生能力。尸体标本研究也发现,和正常人相比,弥漫性特发性骨肥厚症病人在骨桥形成部位存在大量新

生幼稚骨<sup>[16]</sup>。有学者提出弥漫性特发性骨肥厚症也是胸椎脊髓疾病的危险因素之一<sup>[17-18]</sup>。

Kim等<sup>[19]</sup>在对164例全脊柱CT的影像学研究中发现,弥漫性特发性骨肥厚症发生率为颈椎7.9%,上胸椎10.4%,中胸椎21.9%,下胸椎21.3%,腰椎7.3%。日本学者Ikuma等<sup>[20]</sup>在对1 519例日本人群研究中发现,265人诊断为弥漫性特发性骨肥厚症,占比17.4%。好发于胸腰段,尤其在T<sub>9</sub>水平。我们回顾有关弥漫性特发性骨肥厚症的相关文献并汇总如表1所示。

基于对胸椎后纵韧带骨化症及弥漫性特发性骨肥厚症的学习和理解,我们诊断并治疗了一例罕见的胸椎后纵韧带骨化症合并弥漫性特发性骨肥厚症病人。其胸椎后纵韧带骨化主要出现在T<sub>5-7</sub>和T<sub>9-11</sub>水平,而其弥漫性特发性骨肥厚症的病变部位主要位于T<sub>9</sub>~L<sub>5</sub>水平。该病人存在严重的肥胖症,两次住院期间,该病人的体重在持续增加,脊柱承受的机械压力也相应增加。我们分析其重度肥胖以及脊柱承受的过量机械应力是导致其发生后纵韧带骨化及弥漫性特发性骨肥厚症的诱因之一,这也和文献提到的非基因因素相契合。我们为其施行两次手术,手术效果均良好。减压及固定手术是治疗胸椎脊髓疾病的常用手术方式。对于该病人,第一次手术我们采用360°环形减压手术,术中切除椎板,凿除致压的骨化后纵韧带,术中发现后纵韧带骨化物与腹侧硬膜囊粘连,手术操作难度大,风险高,手术时间长,出血多。术后5年病人出现邻近节段的后纵韧带骨化及弥漫性骨肥厚,原减压部位再次出现弥漫的骨质增生导致多节段椎管狭窄。考虑新发后纵韧带骨化不在胸椎后凸顶点,以及病人的体重因素、脊柱曲度变化、手术创伤、手术时间、手术风险等因素,第二次手术我们为其行T<sub>5</sub>~L<sub>5</sub>后路椎板骨化物切除减压及内固定手术。术后短期疗效显著,目前仍在康复治疗过程中。

总之,该病例对外科医生来说是一个不小的挑战,由于是少见案例,我们的研究有待于进一步深入。比如后纵韧带骨化和弥漫性特发性骨肥厚症是否存在相关性,超高身体质量指数对该疾病进展的影响情况也有待于进一步研究。外科治疗手段及方法有待于进一步探讨。我们期待更多的相

表1 弥漫性特发性骨肥厚症与后纵韧带骨化症个案报道文献

| 第一作者                      | 国家  | 报告例数 | 性别[男/女,(例)] | 是否合并后纵韧带骨化 | 平均年龄(岁) | 是否行手术治疗 | 报告年份 |
|---------------------------|-----|------|-------------|------------|---------|---------|------|
| Murayama <sup>[21]</sup>  | 日本  | 1    | 1/0         | 是          | 70      | 是       | 2015 |
| Takagi <sup>[22]</sup>    | 日本  | 1    | 1/0         | 是          | 78      | 是       | 2017 |
| Giammalva <sup>[23]</sup> | 意大利 | 1    | 1/0         | 是          | 65      | 是       | 2018 |
| Yoshioka <sup>[24]</sup>  | 日本  | 4    | 4/0         | 是          | 67.3    | 是       | 2018 |
| Matsumo <sup>[25]</sup>   | 日本  | 1    | 0/1         | 是          | 48      | 是       | 2019 |
| Soejima <sup>[26]</sup>   | 日本  | 1    | 1/0         | 是          | 66      | 是       | 2019 |
| Chitten <sup>[27]</sup>   | 印度  | 1    | 0/1         | 否          | 33      | 否       | 2019 |
| Miyoshi <sup>[28]</sup>   | 日本  | 1    | 1/0         | 否          | 74      | 是       | 2021 |
| Anshori <sup>[29]</sup>   | 印尼  | 1    | 0/1         | 是          | 59      | 否       | 2020 |
| Umegaki <sup>[30]</sup>   | 日本  | 3    | 1/2         | 是          | 73.3    | 是       | 2022 |

关病例得到研究和报道。

### 参 考 文 献

- [1] Boody BS, Lendner M, Vaccaro AR. Ossification of the posterior longitudinal ligament in the cervical spine: a review [J]. *Int Orthop*, 2019, 43(4): 797-805.
- [2] Saetia K, Cho D, Lee S, et al. Ossification of the posterior longitudinal ligament: a review [J]. *Neurosurg Focus*, 2011, 30(3): E1.
- [3] Kawaguchi Y, Nakano M, Yasuda T, et al. Ossification of the posterior longitudinal ligament in not only the cervical spine, but also other spinal regions: analysis using multidetector computed tomography of the whole spine [J]. *Spine (Phila Pa 1976)*, 2013, 38(23): E1477-E1482.
- [4] Yonenobu K, Ebara S, Fujiwara K, et al. Thoracic myelopathy secondary to ossification of the spinal ligament [J]. *J Neurosurg*, 1987, 66(4): 511-518.
- [5] Hou X, Sun C, Liu X, et al. Clinical features of thoracic spinal stenosis-associated myelopathy: a retrospective analysis of 427 cases [J]. *Clin Spine Surg*, 2016, 29(2): 86-89.
- [6] Iwasaki K, Furukawa KI, Tanno M, et al. Uni-axial cyclic stretch induces Cbfa1 expression in spinal ligament cells derived from patients with ossification of the posterior longitudinal ligament [J]. *Calcif Tissue Int*, 2004, 74(5): 448-457.
- [7] Kobashi G, Washio M, Okamoto K, et al. High body mass index after age 20 and diabetes mellitus are independent risk factors for ossification of the posterior longitudinal ligament of the spine in Japanese subjects: a case-control study in multiple hospitals [J]. *Spine (Phila Pa 1976)*, 2004, 29(9): 1006-1010.
- [8] Stapleton CJ, Pham MH, Attenello FJ, et al. Ossification of the posterior longitudinal ligament: genetics and pathophysiology [J]. *Neurosurg Focus*, 2011, 30(3): E6.
- [9] Kawaguchi Y, Nakano M, Yasuda T, et al. Characteristics of ossification of the spinal ligament; incidence of ossification of the ligamentum flavum in patients with cervical ossification of the posterior longitudinal ligament - Analysis of the whole spine using multidetector CT [J]. *J Orthop Sci*, 2016, 21(4): 439-445.
- [10] Chen G, Fan T, Yang X, et al. The prevalence and clinical characteristics of thoracic spinal stenosis: a systematic review [J]. *Eur Spine J*, 2020, 29(9): 2164-2172.
- [11] Head J, Rymarczuk G, Stricsek G, et al. Ossification of the posterior longitudinal ligament: surgical approaches and associated complications [J]. *Neurospine*, 2019, 16(3): 517-529.
- [12] Forestier J, Rotes-Querol J. Senile ankylosing hyperostosis of the spine [J]. *Ann Rheum Dis*, 1950, 9(4): 321-330.
- [13] Resnick D, Niwayama G. Radiographic and pathologic features of spinal involvement in diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH) [J]. *Radiology*, 1976, 119(3): 559-568.
- [14] Mader R, Verlaan JJ, Buskila D. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis: clinical features and pathogenic mechanisms [J]. *Nat Rev Rheumatol*, 2013, 9(12): 741-750.
- [15] Mader R, Novofestovski I, Adawi M, et al. Metabolic syndrome and cardiovascular risk in patients with diffuse idiopathic skeletal hyperostosis [J]. *Semin Arthritis Rheum*, 2009, 38(5): 361-365.
- [16] Kuperus JS, Westerveld LA, Rutgers JP, et al. Histological characteristics of diffuse idiopathic skeletal hyperostosis [J]. *J Orthop Res*, 2017, 35(1): 140-146.
- [17] Nakasuka M, Morino T, Hino M, et al. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis: a potential factor in the induction of thoracic spondylotic myelopathy [J]. *J Orthop Sci*, 2021, 26(1): 75-78.
- [18] Takagi Y, Yamada H, Ebara H, et al. Thoracic spondylolisthesis and spinal cord compression in diffuse idiopathic skeletal hyperostosis: a case report [J]. *J Med Case Rep*, 2017, 11(1): 90.
- [19] Kim BS, Moon MS, Yoon MG, et al. Prevalence of diffuse idiopathic skeletal hyperostosis diagnosed by whole spine computed tomography: a preliminary study [J]. *Clin Orthop Surg*, 2018, 10(1): 41-46.
- [20] Ikuma H, Hirose T, Nakamura D, et al. The prevalence and characteristics of diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH): a cross-sectional study of 1 519 Japanese individuals [J]. *Diagnostics (Basel)*, 2022, 12(5): 1088.
- [21] Murayama K, Inoue S, Tachibana T, et al. Ossified posterior longitudinal ligament with massive ossification of the anterior longitudinal ligament causing dysphagia in a diffuse idiopathic skeletal hyperostosis patient [J]. *Medicine (Baltimore)*, 2015, 94(32): e1295.
- [22] Takagi Y, Yamada H, Ebara H, et al. Thoracic spondylolisthesis and spinal cord compression in diffuse idiopathic skeletal hyperostosis: a case report [J]. *J Med Case Rep*, 2017, 11(1): 90.
- [23] Giammalva GR, Iacopino DG, Graziano F, et al. Clinical and radiological features of Forestier's disease presenting with dysphagia [J]. *Surg Neurol Int*, 2018, 9: 236.
- [24] Yoshioka K, Murakami H, Demura S, et al. Surgical treatment for cervical diffuse idiopathic skeletal hyperostosis as a cause of dysphagia [J]. *Spine Surg Relat Res*, 2018, 2(3): 197-201.
- [25] Matsumoto K, Uei H, Tokuhashi Y. Progressive diffuse idiopathic spinal hyperostosis: a case report [J]. *J Int Med Res*, 2019, 47(8): 3955-3962.
- [26] Soejima Y, Arima J, Doi T. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis: a case with dysphonia, dysphagia and myelopathy [J]. *Am J Case Rep*, 2019, 20: 349-353.
- [27] Chitten JJ, James B. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis in a 33-year-old woman with PCOS and metabolic syndrome: a rare scenario [J]. *BMJ Case Rep*, 2019, 12(10): e223740.
- [28] Miyoshi S, Morino T, Takeda H, et al. Thoracic spondylotic myelopathy presumably caused by diffuse idiopathic skeletal hyperostosis in a patient who underwent decompression and percutaneous pedicle screw fixation [J]. *SAGE Open Med Case Rep*, 2021, 9: 2050313X20987796.
- [29] Anshori F, Hutami WD, Tobing SDAL. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis (DISH) with ossification of the posterior longitudinal ligament (OPLL) in the cervical spine without neurological deficit - a case report [J]. *Ann Med Surg (Lond)*, 2020, 60: 451-455.
- [30] Umegaki M, Fukunaga T, Ninomiya K, et al. Diffuse idiopathic skeletal hyperostosis with severely displaced spine fracture managed with posterior approach alone: case reports and literature review [J]. *NMC Case Rep J*, 2022, 9: 401-405.

(收稿日期: 2024-05-25)

(本文编辑: 陈姗姗)

### 引用格式

周政纲, 黄浩然, 沈世彬, 等. 一例少见的胸椎后纵韧带骨化症合并弥漫性特发性骨肥厚症病人的手术治疗: 病例报告及文献回顾 [J]. *骨科*, 2024, 15(5): 468 - 471. DOI: 10.3969/j.issn.1674 - 8573.2024.05.016.