

- [10] 中华医学会心血管病学分会结构性心脏病学组,中国医师协会心血管内科医师分会结构性心脏病专业委员会. 中国动脉导管未闭介入治疗指南 2017[J]. 中国介入心脏病学杂志, 2017, 25(5):241-248.
- [11] BACKES C H, HILL K D, SHELTON E L, et al. Patent ductus arteriosus: a contemporary perspective for the pediatric and adult cardiac care provider[J]. J Am Heart Assoc, 2022, 11(17):e025784.
- [12] FELTES T F, BACHA E, BEEKMAN R H, et al. Indications for cardiac catheterization and intervention in pediatric cardiac disease: a scientific statement from the American heart association[J]. Circulation, 2011, 123(22): 2607-2652.
- [13] GIROUD J M, JACOBS J P. Evolution of strategies for management of the patent arterial duct[J]. Cardiol Young, 2007, 17(Suppl. 2):68-74.
- [14] BARCROFT M, MCKEE C, BERMAN D P, et al. Percutaneous closure of patent ductus arteriosus[J]. Clin Perinatol, 2022, 49(1):149-166.
- [15] O'BYRNE M L, SMITH C L, GILLESPIE M J. Device closure of patent ductus arteriosus in adults[J]. Can J Cardiol, 2020, 36(6):795-796.
- (收稿日期:2022-11-30 修回日期:2023-03-08)
(编辑:张芃捷)

· 短篇及病例报道 ·

doi:10.3969/j.issn.1671-8348.2023.13.032

网络首发 <https://kns.cnki.net/kcms2/detail//50.1097.R.20230222.1738.014.html> (2023-02-23)

颈椎管内浆细胞肉芽肿 1 例报道并文献复习^{*}

潘柏宇, 汪逸凡, 邓幼文[△]

(中南大学湘雅三医院脊柱外科, 长沙 410013)

[关键词] 颈椎管内; 髓外硬膜下; 浆细胞肉芽肿

[中图法分类号] R739.42

[文献标识码] B

[文章编号] 1671-8348(2023)13-2077-04

浆细胞肉芽肿(PCG)是一种少见的炎性假瘤,以纤维结缔组织增生伴大量多克隆浆细胞浸润为组织形态学特点,多发生于肺,极少见于椎管内^[1]。本文回顾了 1 例椎管内 PCG 患者的临床资料,报道如下。

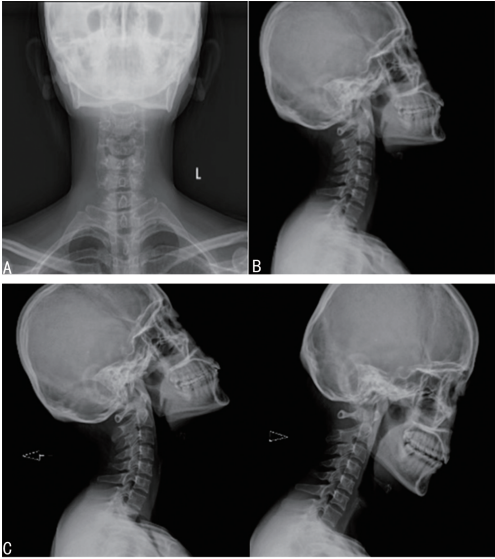
1 临床资料

患者,女,30 岁,幼儿教师。因“颈肩部及双上肢疼痛、乏力 6 d”,于 2020 年 12 月 19 日收入本院。既往无感染、创伤史,无肿瘤家族史。入院查体:颈椎前屈、后伸、左右旋转均未受限,颈段棘突及棘旁无明显压痛及叩击痛,四肢浅感觉对称无减退,双侧肱二头肌、肱三头肌、三角肌肌力Ⅳ级,肌张力不高,双侧膝反射、踝反射亢进,双侧霍夫曼征、巴彬斯基征阴性。实验室检查:血常规、血生化、红细胞沉降率、降钙素原、肿瘤标志物等检验均未见明显异常。血清免疫固定电泳显示免疫球蛋白(Ig)A 型 M 蛋白、IgG 型 M 蛋白、IgM 型 M 蛋白、轻链 Kappa 型 M 蛋白、轻链 Lambda 型 M 蛋白均阴性,未见明显单克隆条带。影像学检查:颈椎 X 线片检查未见明显异常,见图 1。

颈椎 CT 平扫检查显示 C_{6~7} 水平椎管内硬膜囊后缘见结节状稍高密度影,硬膜囊后缘受压,邻近椎体未见骨质破坏征象,见图 2。2020 年 12 月 16 日于长沙市中心医院进行颈椎增强磁共振成像(MRI)检查,矢状位显示 C_{6~7} 椎体层面椎管内后部见一丘形明显强化,密度不均,内见小片状低强化,可见脊膜尾征;横断位显示邻近脊髓受压,分界欠清,余未见异常,见图 3。结合患者一般资料、病史、体格检查及辅助检查,术前初步诊断为 C_{6~7} 椎管内肿瘤(脊膜瘤可能性大),拟行手术切除。2020 年 12 月 22 日在全身麻醉插管下行后路颈椎管内肿物切除联合 C_{6~T₁} 钉棒系统内固定术。术中患者取俯卧位,取颈后部正中切口,逐层剥离,显露 C_{6~T₁} 双侧椎板及关节突关节, C₆、C₇~T₁ 椎体双侧置侧块螺钉,咬除 C_{6~7} 后方椎板,沿中线纵行切开硬膜囊,可见一灰白色肿块,质地中等,大小为 1.5 cm×0.6 cm×0.8 cm,肿块基底与硬膜囊有粘连,钝性分离后将其完整切除送病理检查:多量增生的纤维、肉芽组织,多量浆细胞及区域部

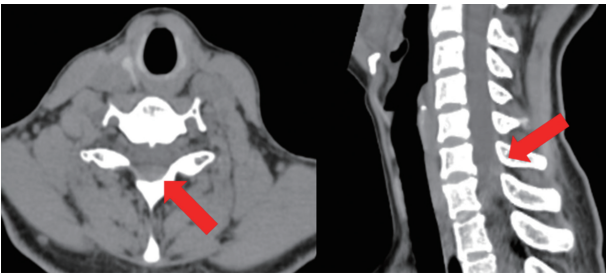
^{*} 基金项目:湖南省科技创新团队项目(2021RC4057)。 作者简介:潘柏宇(1998—),在读硕士,主要从事脊柱外科临床工作。 [△] 通信作者, E-mail: drywdeng@163.com。

分中性粒细胞浸润。免疫组织化学(IHC)检查:CD3(+),CD38(+),CD138(++),Kappa(+),Lambda(+),病理检查苏木素-伊红(HE)染色,见图4。结合病理和IHC检查结果考虑诊断为PCG。术后予以抗感染、止痛、脱水等对症处理,患者出院时双上肢疼痛症状消失,后颈部伤口处稍有疼痛。术后6个月复查颈椎X线片,过屈、过伸位显示内固定位置良好;MRI平扫显示颈椎管通畅,未见颈椎管内占位性病变,见图5、6。随访1年余无复发。



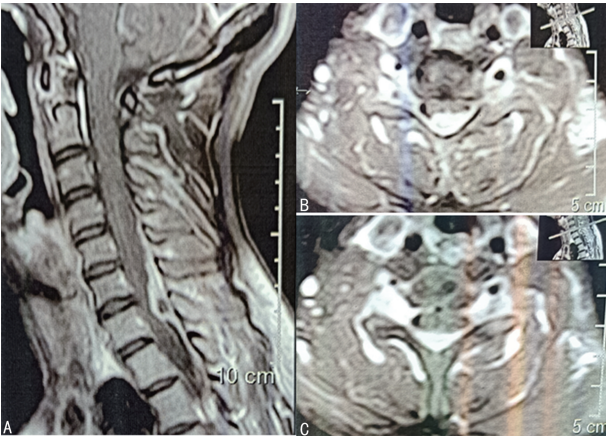
A:正位;B:侧位;C:过屈、过伸位。

图1 术前颈椎X线片检查



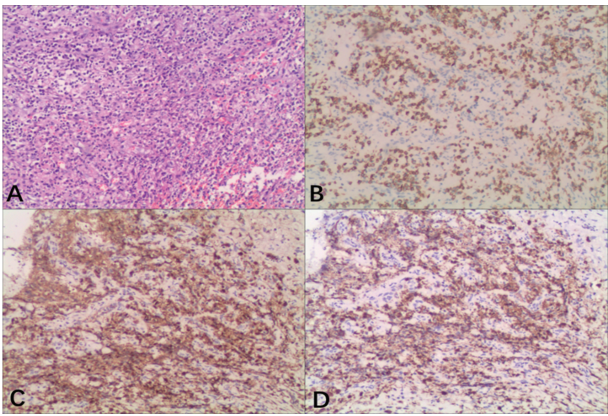
矢状位和冠状位显示椎管内一结节状高密度影(红色箭头)。

图2 术前颈椎CT平扫检查



A:矢状位;B、C:横断位。

图3 外院颈椎增强MRI检查



A:多量浆细胞浸润;B:CD138中等表达;C、D:Kappa、Lambda轻度表达。

图4 病理检查(HE染色,×100)

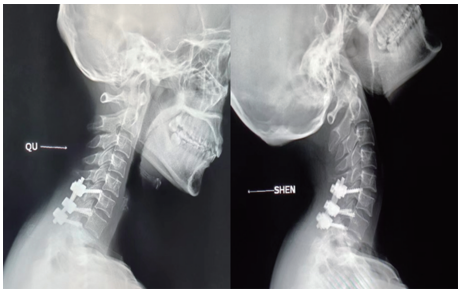


图5 术后6个月复查颈椎X线片

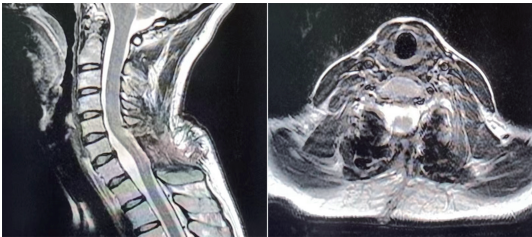


图6 术后6个月复查颈椎MRI平扫

2 讨论

1978年EIMOTO等^[2]首次报道了椎管内PCG,至今已有数篇文献报道^[3-11]。既往文献报道椎管内PCG患者一般资料见表1。总结既往文献患者临床特点:(1)男性(10例)多于女性(2例),发病年龄为16~57岁,病程长短不一,可短至两周,也可长达1年,疾病早期症状并不严重,可能被患者自身所忽视或被误诊为脊柱退行性疾病,进而延误病情;(2)椎管全段皆可发生PCG,以胸段最为多见,因PCG大小及所处椎管层面不同,可出现相应部位的疼痛或累及脊髓节段以下感觉运动功能异常;(3)按与硬脊膜的相对位置分类,PCG可见于髓内、髓外硬膜下及硬膜外;(5)椎管内PCG在T₁、T₂加权成像均可表现为低信号、等信号或高信号,注射造影剂后可得到明显强化,但这些影像学表现并没有特异性。本例患者椎管内PCG位于C_{6~7}层面,伴有肩背部及双上肢疼痛、乏力,体格检查发现有双上肢肌力下降,双下肢腱反射

亢进,符合既往文献报道椎管内 PCG 患者的临床表现。

表 1 既往文献报道椎管内 PCG 患者一般资料

文献来源	年份	<i>n</i>	性别	年龄 (岁)	病程	节段	与硬脊膜 关系	MRI 信号改变	瘤体特点	治疗方式
EIMOTO 等 ^[2]	1978	1	男	37	1 年	C _{4~5}	硬膜下	未报道	灰褐色	手术切除、放疗
王全美 ^[3]	1985	1	男	37	2 周	L _{3~S} ₂	硬膜外	未报道	灰白或棕色,质地偏硬	手术切除
HSIANG 等 ^[4]	1994	1	男	57	6 个月	T _{10~1} ₂	未报道	未报道	未报道	手术切除
HSIEH 等 ^[5]	1995	1	男	37	6 个月	T ₅ 、T _{12~1} ₁	硬膜下	T1 加权低信号	灰褐色	手术切除
黄俊等 ^[6]	1996	1	男	25	10 个月	T _{3~8}	硬膜外	T1、T2 加权较高信号,瘤内信号不均匀	条索状,灰白色,质地中等	手术切除
李定军等 ^[7]	2000	1	女	16	40 d	T _{6~11}	硬膜下	未报道	红褐色,鱼肉状,血供丰富	手术切除、放疗
KILINÇ 等 ^[8]	2002	1	男	34	1 个月	T _{11~12}	硬膜下	T1 加权低信号,均匀增强,T2 加权高信号	浅棕色,质地坚韧	手术切除
AIZAWA 等 ^[9]	2002	1	男	46	不详	C _{7~T} ₁	硬膜下	T1、T2 加权低信号	黄灰色,有包膜,血供不丰富	手术切除
李会生等 ^[10]	2009	1	男	55	40 ⁺ d	T _{3~4}	硬膜外	稍长 T1、T2 信号,压脂像混杂稍高信号	质地坚韧,血供中等	手术切除
刘宗霖等 ^[11]	2013	3	男 2 例, 女 1 例	37~56	1~6 个月	T _{1~4} 、T _{3~4} 、 T _{5~8}	硬膜下	T1 加权等信号,T2 加权等或低信号	黄白色,质地韧硬,血液循环中等	手术切除

PCG 发生于椎管内的病因及发病机制尚不清楚,既往文献报道,椎管外 PCG 可能是由于病毒感染、自身免疫性疾病、变态反应等所致^[12]。VISHNUDAS 等^[13]报道了 1 例服用氨氯地平 2 年诱发牙龈 PCG 的患者,提示药物和细胞相互作用可能是 PCG 的一种发病机制。KOJIMA 等^[14]报道了 2 例上颌窦 PCG 患者,IHC 检查结果显示 IgG4 阳性细胞占 IgG 阳性浆细胞的 40% 以上,同时,2 例患者血清 IgG4 水平均升高,提示 PCG 可能是 IgG4 相关疾病的一部分。

本例患者入院初步诊断为 C_{6~7} 椎管内肿瘤(脊膜瘤可能性大),因脊膜瘤是较为常见椎管内良性肿瘤,且多见于女性,在 MRI 增强扫描后脊膜瘤大多数表现为均匀强化,与硬膜面成钝角,并且 60.86% 的病例可出现“脊膜尾征”^[15]。故根据以上特征术前初步考虑本例患者为颈椎管内脊膜瘤,并行手术切除,但术后检查结果显示,为椎管 PCG。故在手术切除肿块前凭临床表现和影像学表现诊断椎管内 PCG 是极为困难的。此外,还需与椎管内浆细胞肿瘤性增生疾病相鉴别,如椎管内浆细胞瘤。既往文献报道缺乏明确 IHC 结果,以病理切片中发现 Russell 小体而诊断为 PCG,但 Russell 小体也可见于浆细胞瘤等,并非 PCG 所特有征象,故存在误诊可能^[2-10]。本例患者手术切除标本病理检查结果提示多量浆细胞及区域部分中

性粒细胞浸润,IHC 检查结果显示浆细胞最具特异性的免疫标记 CD138 表达,且 Kappa、Lambda 轻链的同时表达证实了浆细胞的多克隆性,结合病理和 IHC 最终诊断为椎管内 PCG。

目前,椎管内 PCG 的治疗方式主要为手术切除,术后可辅以放疗,也有极少数椎管外 PCG 无须处理可自行缩小^[16]。大多数患者手术切除后预后良好,也有少数患者术后几年内再次复发,故在术中应尽可能做到全切除,以降低术后复发率。对椎管外 PCG 还有其他的治疗方式,包括免疫抑制剂、激素治疗、利妥昔单抗等^[17]。IMPERATO 等^[18]报道了 2 例无法手术切除的肺部 PCG 患者,在接受长达 4 周多的放疗后最终均治愈。BANDO 等^[19]报道了 2 例肺部 PCG 患者,在接受 2~4 周中剂量皮质类固醇治疗后肿瘤完全消失,并且未再复发,提示激素作为一种替代治疗对多灶性、不可切除或复发病例是有效的。但以上治疗方式并未在椎管内 PCG 中得到应用,虽不能确定对其是否也有疗效,但也给椎管内 PCG 的治疗方式提供了参考。本例患者接受了颈椎后路开放手术,并完全切除肿块,术后 6 个月复查颈椎 MRI 未见颈椎管内占位性病变。

综上所述,PCG 发生于椎管内是罕见的,临床医师对此病认识不足容易误诊、误治。椎管内 PCG 起

病隐匿,待 PCG 进行性增大压迫脊髓时可出现不同程度感觉、运动功能障碍,其病因及发病机制仍不明确。椎管内 PCG 无特异影像学表现,结合术后病理和 IHC 检查结果可确诊。绝大多数患者手术切除即可取得满意疗效,对无法切除或切除不完全者可在术后辅以放疗等,患者总体预后良好。

参考文献

- [1] PATIL P A, DELELLIS R A. Plasma cell granuloma of the thyroid; review of an uncommon entity [J]. Arch Pathol Lab Med, 2018, 142 (8): 998-1005.
- [2] EIMOTO T, YANAKA M, KUROSAWA M, et al. Plasma cell granuloma (inflammatory pseudotumor) of the spinal cord meninges; report of a case [J]. Cancer, 1978, 41(5): 1929-1936.
- [3] 王全美. 第 136 例: 腰骶椎管内浆细胞性肉芽肿一例报告 [J]. 颈肩腰腿痛防治通讯, 1985 (4): 38.
- [4] HSIANG J, MOORHOUSE D, BARBA D. Multiple plasma cell granulomas of the central nervous system; case report [J]. Neurosurgery, 1994, 35(4): 744-747.
- [5] HSIEH P C, LIN C N. Multicentric plasma cell granuloma of spinal cord meninges [J]. Clin Orthop Relat Res, 1995(317): 188-192.
- [6] 黄俊, 谢威, 韩貽升, 等. MRI 发现硬脊膜外浆细胞肉芽肿一例报告 [J]. 中华骨科杂志, 1996, 16 (6): 59.
- [7] 李定君, 刘亮, 詹书良. 硬脊膜内浆细胞肉芽肿 1 例 [J]. 中国神经精神疾病杂志, 2000, 26 (6): 339.
- [8] KILINÇ M, ERTÜRK I O, UYSAL H, et al. Multiple plasma cell granuloma of the central nervous system; a unique case with brain and spinal cord involvement. Case report and review of literature [J]. Spinal Cord, 2002, 40 (4): 203-206.
- [9] AIZAWA T, SATO T, TANAKA Y, et al. Intramedullary plasma cell granuloma in the cervicothoracic spine. Case report [J]. J Neurosurg, 2002, 97(Suppl. 2): 235-238.
- [10] 李会生, 张杰. 硬膜外浆细胞肉芽肿 1 例 [J]. 中国 CT 和 MRI 杂志, 2009, 7(3): 78-79.
- [11] 刘宗霖, 陈红庆, 程新富. 胸椎管内浆细胞肉芽肿 3 例诊治分析 [J]. 中华实用诊断与治疗杂志, 2013, 27(7): 707-708.
- [12] UKUNAGA A, YOSHIDA K, OTANI M, et al. Plasma cell granuloma extending from the extracranial to the intracranial space associated with Epstein-Barr virus infection [J]. Neurol Med Chir(Tokyo), 1998, 38(5): 292-296.
- [13] VISHNUDAS B, SAMEER Z, SHRIRAM B, et al. Amlodipine induced plasma cell granuloma of the gingiva: a novel case report [J]. J Nat Sci Biol Med, 2014, 5(2): 472-476.
- [14] KOJIMA M, NAKAZATO Y, HIRABAYASHI K, et al. IgG4-related plasma cell granuloma of the maxillary sinus: A report of 2 cases [J]. Ear Nose Throat J, 2015, 94(9): E17-19.
- [15] 胡涛. MRI 对椎管脊膜瘤的应用价值研究 [J]. 中国 CT 和 MRI 杂志, 2017, 15(2): 140-142.
- [16] PEARSON P J, SMITHSON W A, DRIS COLL D J, et al. Inoperable plasma cell granuloma of the heart: spontaneous decrease in size during an 11-month period [J]. Mayo Clin Proc, 1988, 63(10): 1022-1025.
- [17] SCHNEIDER C, HENNING T D, FINK G R, et al. Primary intracranial plasma cell granuloma responsive to rituximab [J]. Neurology, 2014, 83(12): 1119-1120.
- [18] IMPERATO J P, FOLKMAN J, SAGERMAN R H, et al. Treatment of plasma cell granuloma of the lung with radiation therapy. A report of two cases and a review of the literature [J]. Cancer, 1986, 57(11): 2127-2129.
- [19] BANDO T, FUJIMURA M, NODA Y, et al. Pulmonary plasma cell granuloma improves with corticosteroid therapy [J]. Chest, 1994, 105(5): 1574-1575.

(收稿日期: 2022-10-18 修回日期: 2023-01-16)

(编辑: 刘绍兴)