

· 综 述 ·

月骨内表皮囊肿误诊为内生软骨瘤：1例报告和综述

文祖洲¹, 蓝奉军¹, 赵奎¹, 段宜强^{2*}

(1. 贵州医科大学临床医学院, 贵州贵阳 550004; 2. 贵州医科大学附属医院骨科, 贵州贵阳 550004)

摘要: 骨内表皮样囊肿 (intraosseous epidermoid cyst, IEC) 是一种罕见的、非肿瘤性的良性病变, 最常见的部位是远端指骨。骨内表皮样囊肿在影像学上易与内生性软骨瘤相混淆。本文报告了本院骨科诊治的 1 例月骨内表皮样囊肿误诊为内生性软骨瘤的患者, 采用病灶刮除、无水酒精灭活、胶原蛋白海绵填充术进行治疗。作者通过对该例患者的诊治体会, 并结合文献回顾对 IEC 的临床特点、诊断标准与治疗原则进行总结, 旨在为月骨内表皮样囊肿的研究与诊治提供参考。

关键词: 月骨, 表皮样囊肿, 内生性软骨瘤, 病例报告, 文献综述

中图分类号: R738.1 **文献标志码:** A **文章编号:** 1005-8478 (2023) 08-0710-04

Epidermal cyst of lunate bone misdiagnosed as endophytic chondroma: a case report and literature review // WEN Zu-zhou¹, LAN Feng-jun¹, ZHAO Kui¹, DUAN Yi-qiang². 1. Clinical Medical College, Guizhou Medical University, Guiyang 550004, China; 2. Department of Orthopaedics, The Affiliated Hospital, Guizhou Medical University, Guiyang 550004, China

Abstract: Intraosseous epidermoid cyst (IEC) is a rare, non-neoplastic benign lesion with the most common site involving the distal phalanx. Intraosseous epidermoid cyst is prone to be confused with endophytic chondroma in imaging. In this paper, we reported a case of epidermoid cyst of lunate misdiagnosed as endophytic chondroma in the orthopedic department of our hospital. We used lesion curettage, anhydrous alcohol inactivation and collagen sponge filling to treat the patient. In addition, a thorough literature review was done to summarize the clinical features, diagnostic criteria and treatment principles of IEC to provide reference for diagnosis and treatment of epidermoid cyst of lunate.

Key words: lunate, epidermoid cyst, enchondroma, case report, literature review

骨内表皮样囊肿 (intraosseous epidermoid cyst, IEC) 是一种良性非肿瘤病变^[1]。囊肿充满角质样物质, 偶可见囊壁衬有扁平的鳞状上皮, 也被称为溶瘤或假瘤, 是一种及其罕见的病变。通常好发于手指远端指骨及颅骨^[2, 3], 这种现象是由于独特的区域解剖结构所致, 因为甲下骨床附着在下面的骨膜上。IEC 为中心性的单纯溶骨性病变, 很难与其他肿瘤或病灶相鉴别, 需病理组织学检查确诊, 因此, 极易与其他肿瘤混淆被误诊。目前发病机制尚不明确, 有文献研究表明, 可能是先天性的、创伤性的或医源性的^[4], 但目前创伤后起源仍是最普遍的假说^[5]。影像学 X 线片主要表现为中心性的单纯溶骨性病变, 皮质变薄或破碎, 边界清楚, 一般无骨膜反应, 与内生性软骨瘤、单房性骨囊肿等类似^[6, 7]。组织学病理检查主要表现为囊壁有复层鳞状上皮及纤维组织生长并含有角化细胞碎片^[8]。

1 病例报告

患者, 男, 62 岁, 因左腕部疼痛伴活动受限 2 个月, 于 2021 年 10 月 29 日入院。患者自诉 2 个月前无明显诱因出现左腕部疼痛伴活动受限, 无明显感觉减退、肢端麻木等不适。院外经多次口服非甾体止痛药物治疗后疼痛症状未见明显缓解, 为求进一步诊治, 遂就诊于本院, 门诊以“左侧月骨内生性软骨瘤”收住入院。患者自诉既往左手有长期慢性手部支撑史。入院查体: 体温 36.2℃, 脉搏 78 次/分, 呼吸 19 次/分, 血压 136/74 mmHg, 体重 55 kg, 身高 172 cm, 体重指数 18.6 kg/m², 心肺腹阴性, 左腕无明显畸形肿胀, 皮肤完整无破溃及色素沉着, 张力不高, 腕背月骨窝处压痛 (图 1a), 未扪及骨擦感, 左腕关节受限, 伸直 0°, 屈曲 20°, 尺、桡动脉可扪及搏动, 四肢肌力 IV 级, 肌张力正常, 生理反射存在,

DOI:10.3977/j.issn.1005-8478.2023.08.08

作者简介: 文祖洲, 在读研究生, 研究方向: 人工关节置换, (电话)15108508310, (电子信箱)2587476229@qq.com

* 通信作者: 段宜强, (电子信箱)78485398@qq.com

病理征未引出，肢端血运、感觉、动度可。实验室检查：血常规、二便常规、肝肾功、血凝及传染病筛查等未见明显异常。心电图示：窦性心律，心率69次/min。影像学检查：X线片示左腕月骨见类圆形骨质密度减低影，大小约0.8 cm，左腕月骨骨质破坏（图1b）。CT示左腕月骨见骨质破坏，中心见结节状高密度影，边缘骨质密度增高，考虑：（1）内生软骨瘤；（2）血管瘤；（3）骨囊肿（图1c）。MRI示左腕月骨见圆形异常信号，大小约10 mm×11 mm，呈不均匀长T1、T2信号影，抑脂像呈高信号，内见小片状低信号，边界清晰，考虑内生软骨瘤（图1d, 1e）。根据病史、体征、症状、实验室检查及影像学检查，初步诊断：左侧月骨内生性软骨瘤。

入院后与患者及家属详细沟通并取得患方同意签

署手术知情同意后，于2021年11月29日在臂丛神经阻滞麻醉下手术。以月骨窝为中心，于腕背作长约5 cm纵向手术切口（图1f），术中打开瘤腔见大量淡黄色、豆腐渣样液体渗出，无明显异味，月骨仅剩下一层包壳，予刮匙充分刮除坏死组织，将囊壁打磨干净，大量生理盐水冲洗后，无水酒精浸润灭活瘤腔，胶原蛋白海绵填充骨腔并压实。手术过程顺利，术中生命体征平稳，无明显出血，术后切口一期愈合，病理组织学检查提示骨内表皮样囊肿（图1g），故而月骨内表皮样囊肿诊断明确。术后予石膏托固定1个月，术后1个月复查X线片示局部未见复发征象（图1h），疼痛症状明显减轻。术后3个月随访，无围手术期及术后相关并发症发生，疼痛症状完全消失，腕关节活动正常。



图1 患者，男，62岁，因左腕部疼痛伴活动受限2个月余，于2021年10月29日入院 1a: 入院查体腕背月骨窝处压痛（红色箭头） 1b: X线片示月骨见类圆形骨质密度减低影，骨质破坏（红色箭头） 1c: CT检查显示月骨见骨质破坏，中心见结节状高密度影（红色箭头） 1d, 1e: MRI示月骨见圆形异常信号，呈不均匀长T1、T2信号影，抑脂像呈高信号，内见小片状低信号，边界清晰（红色箭头） 1f: 术中充分暴露月骨，切开月骨可见大量淡黄色、豆腐渣样液体渗出（红色箭头） 1g: 术后病理组织学检查示骨内表皮样囊肿 1h: 术后1个月复查X线片局部未见复发征象

2 讨论

2.1 IEC的临床特点

骨内表皮样囊肿于1923年首次报道，常为长期慢性劳损所致表皮基底细胞层进入皮下生长而形成的

囊肿，多见于外伤或长期受压磨损部位^[6, 9]。IEC目前发病机制尚不明确，一般认为可能是先天性、创伤性或医源性等相关因素造成^[4]，但目前创伤后起源仍是最普遍的假说^[5]。骨内表皮样囊肿是一种非常罕见的病变，至今鲜有报道，男性多于女性，好发于30~

50岁,通常生长较缓慢^[10, 11]。而月骨内表皮样囊肿更为罕见,以至于国内外文献至今未见报道,本例术后通过病理组织学确诊为月骨内表皮样囊肿,也是首例报告月骨内表皮样囊肿的病例。

2.2 IEC 的诊断标准

IEC患者既往一般有长期慢性劳损和(或)陈旧性外伤史,临床表现主要为局部疼痛不适,无特异性。当然,影像学在骨与软组织肿瘤诊断中也必不可少,它可以提供肿瘤的特点,并显示肿瘤对宿主骨及对周围组织的侵犯。IEC在超声中大多呈圆形或椭圆形低回声囊性病变,边界清晰,内无血流回声^[12, 13]。X线及CT上多呈类圆形低密度影,骨质破坏,骨皮质变薄,边缘清晰的溶骨性病变,无任何骨小梁形态,亦缺乏特异性^[14]。MRI上呈不均匀长T1、T2信号影,抑脂像呈高信号,边界清晰^[2]。因此,对于骨内表皮样囊肿诊断时需结合上述特点进行全面分析,最终确诊还需依靠病理学检查。显微镜下显示上皮细胞由充满角蛋白的腔体组成,腔体由正常成熟分化良好的层状鳞状上皮细胞包围,囊壁被一层纤维组织包围,将骨与囊肿分离,免疫组化染色下显示全细胞角蛋白阳性的囊肿内膜^[15]。穿刺细胞学检查吉氏染色显示以无核鳞状细胞为主,有核鳞状细胞较少,如果合并感染,则以中性粒细胞为主,少量巨噬细胞、无核鳞状细胞、有核细胞和偶见多核细胞^[16]。

2.3 IEC 的鉴别诊断

IEC须与单纯骨囊肿、内生性软骨瘤、骨血管瘤

等鉴别,尤其是内生性软骨瘤,因为骨内表皮样囊肿在影像学上与内生性软骨瘤极其相似,临床中极易混淆误诊为内生性软骨瘤,组织病理学检查有助于明确诊断:(1)单纯性骨囊肿:是一种非肿瘤性囊性病,起病隐匿,以男性多见,多好发于儿童和青少年长骨干骺端,又称单房性骨囊肿或孤立性骨囊肿^[17, 18]。X线表现为边界清楚的卵形囊肿,囊肿均匀透光,骨皮质变薄,偶尔伴有边缘硬化^[19];(2)内生性软骨瘤:是一种发生于软骨内化骨的最常见软骨良性肿瘤,是由于生长过程中软骨细胞终末分化失调发展而来,好发于掌骨和指骨^[20, 21]。X线表现为边界清楚椭圆形骨透亮影,很少波及骨骺,当病变位于中央时,骨皮质较少膨胀,当偏于一侧时,骨皮质变薄膨胀^[22];(3)骨血管瘤:是一种呈瘤样增生的血管组织,掺杂于骨小梁之间,不易将其单独分离,多见于脊椎骨的椎体,是一种起源于血管的良性肿瘤^[23]。MRI一般表现为T1加权像上为中信号、T2加权像上为高信号,呈周围性、充盈性或弥漫性强化,其强度与血管相似^[24, 25]。

2.4 IEC 的治疗原则

IEC大多为良性病变,治疗方式和其他骨病相同(表1),主要包括病灶刮除,刮除术结合自体松质骨或合成植骨填塞骨腔是公认的治疗选择,复发风险低^[26]。本例采用病灶刮除结合医用胶原蛋白海绵填塞骨腔,为了降低该病术后复发率,术中应予以刮匙充分刮除坏死组织,予刮匙将囊腔打磨干净,大量生理盐水冲洗后,无水酒精灭活瘤腔。

表1 骨内表皮样囊肿治疗病例总结

作者	年份	病变部位	治疗方式	结果	复发
Sasaki等 ^[2]	2017	指骨	病灶刮除+植骨	治愈	无
Park等 ^[8]	2015	掌骨	病灶刮除	治愈	无
Mimura等 ^[27]	2019	桡骨	病灶刮除+抗生素骨水泥填塞	治愈	无
潘叶等 ^[28]	2002	眼眶	病灶刮除	治愈	无
D'Andrea等 ^[29]	2021	颅骨	病灶刮除	治愈	无
张晓辉等 ^[9]	2020	胫骨	病灶刮除+植骨	治愈	无
Wang等 ^[30]	2003	趾骨	病灶刮除	治愈	无

3 小结

骨与软组织肿瘤诊断与治疗是一个多学科的问题,需多学科协作。一般来说,明确诊断是进行治疗的前提。骨与软组织肿瘤的诊断有时会非常困难,综合临床、影像、病理学表现,往往可以明确诊断,并

降低误诊风险。了解骨与软组织肿瘤的发展历史和流行病学特点也有利于更好地认识诊断。评估一个可能患有肿瘤的患者,最开始工作应该是详细询问病史及全面物理检查。在进行其他有助于诊断的检查之前要完成问诊及检查肿瘤的物理特性。这样可以避免不必要的检查,并使医师决定进行最有助诊断的检查,尽早对疾病进行有必要的治疗。

IEC 的诊断在临床上和影像学上都具有挑战性。由于未能认识到这一疾病,放射科医师或外科医师很少在手术前对 IEC 作出准确的判断。此外,其临床表现和影像学表现与其他肿瘤非常相似,只有通过组织病理学检查才能作出明确诊断^[31]。综上所述,临床骨科医师在接诊既往手部有长期慢性劳损和(或)陈旧性外伤史患者时,应充分利用病史、临床症状及影像学资料为该病寻找诊断依据,与引起溶骨性的疾病相鉴别,进一步规范诊断与治疗流程,制定最合适的个性化手术方案。

参考文献

- [1] Arora A, Srivastava D, Gupta H, et al. Sonographic diagnosis of subungual intraosseous epidermoid cyst [J]. *J Clin Ultrasound*, 2013, 41 (Suppl 1): 35-37.
- [2] Sasaki H, Nagano S, Shimada H, et al. Intraosseous epidermoid cyst of the distal phalanx reconstructed with synthetic bone graft [J]. *J Orthop Surg (Hong Kong)*, 2017, 25 (1): 612344384.
- [3] Connolly JE, Ratcliffe NR. Intraosseous epidermoid inclusion cyst presenting as a paronychia of the hallux [J]. *J Am Podiatr Med Assoc*, 2010, 100 (2): 133-137.
- [4] Hamad AT, Kumar A, Anand KC. Intraosseous epidermoid cyst of the finger phalanx: a case report [J]. *J Orthop Surg (Hong Kong)*, 2006, 14 (3): 340-342.
- [5] Saikia A, Garg S, Dey P. Letter to the editor: Digital intraosseous epidermoid inclusion cyst of the distal phalanx [J]. *Diagn Cytopathol*, 2016, 44 (12): 1130-1131.
- [6] Simon K, Leithner A, Bodo K, et al. Intraosseous epidermoid cysts of the hand skeleton: a series of eight patients [J]. *J Hand Surg Eur Vol*, 2011, 36 (5): 376-378.
- [7] 郭林, 王植, 宫可同, 等. 手部骨肿瘤和肿瘤样病变的影像学诊断及鉴别诊断 [J]. *中国中西医结合外科杂志*, 2017, 23 (3): 323-327.
- [8] Park IJ, Kim HM, Lee JY, et al. An intraosseous epidermal cyst developing in a metacarpal bone after K-wire fixation: a case report [J]. *Skeletal Radiol*, 2015, 44 (10): 1523-1527.
- [9] 张晓辉, 翁文炉, 李建文. 胫骨骨内原发表皮样囊肿 1 例报告 [J]. *实用骨科杂志*, 2020, 26 (3): 287-288.
- [10] 马福元, 潘俊博, 王鹏. 末节指骨骨内表皮样囊肿误诊为慢性骨髓炎 1 例 [J]. *宁夏医科大学学报*, 2020, 42 (11): 1187-1188.
- [11] Richardson MP, Foster JR, Logan DB. Intraosseous epidermal inclusion cyst of the proximal phalanx of the fifth toe and review of the literature: a case study [J]. *Foot Ankle Spec*, 2017, 10 (5): 470-472.
- [12] Lee YH, Song HT, Suh JS. Use of strain ratio in evaluating superficial soft tissue tumors on ultrasonic elastography [J]. *J Med Ultrason (2001)*, 2014, 41 (3): 319-323.
- [13] Twede JV, Patterson MC, Anderson ML. Intraosseous epidermoid cyst of the skull: case study and radiological imaging considerations [J]. *Dermatol Online J*, 2018, 24 (7): 13030.
- [14] Mattiassich G, Ensaf F, Hager M, et al. A suspected malignancy in osteolytic bone tumour of the thumb [J]. *BMJ Case Rep*, 2012, 2012: 23338184.
- [15] Vagias M, Cassidy JP, Skelly C, et al. Intraosseous epidermoid cysts of adjacent digits in a dog [J]. *BMC Vet Res*, 2020, 16 (1): 323.
- [16] Kumar U, Lamba S. Intraosseous epidermal inclusion cyst of the great toe: masquerading as bone tumour [J]. *J Clin Diagn Res*, 2017, 11 (6): J1-J2.
- [17] Jaiswal LS, Sah B, Pandit N, et al. Simple bone cyst of rib [J]. *Ann Thorac Surg*, 2019, 108 (1): e39-e41.
- [18] 雍明, 楼跃. 弹性髓内针留置引流治疗儿童单纯性骨囊肿的疗效分析 [J]. *中国矫形外科杂志*, 2016, 24 (21): 2007-2009.
- [19] Mascard E, Gomez-Brouchet A, Lambot K. Bone cysts: unicameral and aneurysmal bone cyst [J]. *Orthop Traumatol Surg Res*, 2015, 101 (1 Suppl): S119-S127.
- [20] Zhang H, Alman BA. Enchondromatosis and growth plate development [J]. *Curr Osteoporos Rep*, 2021, 19 (1): 40-49.
- [21] 王程, 王文军, 晏怡果. 胸椎内生性软骨瘤 1 例报告 [J]. *中国矫形外科杂志*, 2009, 17 (1): 77-78.
- [22] 王苏龙, 李强, 杨光, 等. 多发内生性软骨瘤病 (Ollier 病) 一例 [J]. *中华手外科杂志*, 2020, 36 (1): 36-37.
- [23] 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.
- [24] 赵志刚, 谢林, 丁凡. 腰椎滑脱合并椎体血管瘤 1 例报道 [J]. *中国矫形外科杂志*, 2016, 24 (5): 477-480.
- [25] Zhou Q, Lu L, Yang Z, et al. Hemangioma of long tubular bone: imaging characteristics with emphasis on magnetic resonance imaging [J]. *Skeletal Radiol*, 2020, 49 (12): 2029-2038.
- [26] Memon F, Panjwani TR, Patankar H. Intraosseous epidermoid inclusion cyst of distal phalanx: a rare entity [J]. *J Clin Diagn Res*, 2016, 10 (1): J1-J2.
- [27] Mimura T, Yamazaki H, Hayashi M, et al. Intraosseous epidermoid cyst of the radius [J]. *J Hand Surg Am*, 2019, 44 (11): 991-996.
- [28] 潘叶, 宋国祥, 何彦津. 眼眶骨内表皮样囊肿 [J]. *中国实用眼科杂志*, 2002, 20 (10): 787.
- [29] D'Andrea M, Musio A, Fuschillo D, et al. Epidermoid cyst of the anterior clinoid process: report of a unique finding and literature review of the middle cranial fossa locations [J]. *Clin Neurol Neurosurg*, 2021, 200: 106381.
- [30] Wang BY, Eisler J, Springfield D, et al. Intraosseous epidermoid inclusion cyst in a great toe. A case report and review of the literature [J]. *Arch Pathol Lab Med*, 2003, 127 (7): e298-e300.
- [31] Sugimoto H, Yasue K, Hara M, et al. Intraosseous epidermal cyst of the great toe that was difficult to distinguish from chronic osteomyelitis: A case report and literature review [J]. *Clin Case Rep*, 2021, 9 (4): 1890-1895.

(收稿:2022-06-23 修回:2022-11-25)
(同行评议专家:于秀淳 张开亮)
(本文编辑:宁桦)