

· CASE ANALYSES ·

· 临床病例讨论 ·



DOI:10.11817/j.issn.1672-7347.2019.190055

<http://xbyxb.csu.edu.cn/xbwk/fileup/PDF/201908935.pdf>

## 颞骨巨细胞修复性肉芽肿1例

宋剑, 梅凌云, 蔡鑫章

(中南大学湘雅医院耳鼻咽喉头颈外科, 长沙 410008)

**[摘要]** 巨细胞修复性肉芽肿是一种临床上少见的非肿瘤性病变。因其症状、体征及辅助检查缺乏特异性, 容易导致误诊, 影响患者的治疗和预后。2018年7月中南大学湘雅医院收治了1例以“左耳听力下降4年伴耳前肿胀2个月”为首发症状的巨细胞修复性肉芽肿患者, 颞骨高分辨率CT及MRI均提示左侧颅底肿瘤性质待查, 术中完整切除肿瘤并局部修复, 病理证实为巨细胞修复性肉芽肿, 免疫组织化学示肿瘤细胞表达CD68和CD163。术后患者恢复良好, 无并发症, 按期拆线出院。

**[关键词]** 巨细胞修复性肉芽肿; 颞骨; 诊断

## Giant cell reparative granuloma of the temporal bone: A case report

SONG Jian, MEI Lingyun, CAI Xinzhang

(Department of Otolaryngology Head and Neck Surgery, Xiangya Hospital, Central South University, Changsha 410008, China)

### ABSTRACT

Giant cell reparative granuloma (GCRG) is a type of non-neoplastic lesion that can be rarely found in clinical practices. Due to the lack of specificity in symptoms, signs and auxiliary examinations, it is likely to be misdiagnosed, and thereby affecting the treatment and prognosis. In July 2018, a GCRG patient who was described with “4 years of hearing loss in the left ear, accompanied by 2 months of preauricular swelling” as the first symptom was admitted in our hospital. Both the HRCT and MRI scans for the temporal bone suggested the presence of tumor at the left lateral skull base, but the nature still needed further examination. Intraoperatively, the tumor was completely removed and repaired locally. Pathological examination confirmed the symptoms as GCRG. Immunohistochemistry showed the expression of CD68 and CD163 in the tumor cells. Postoperatively, the patient recovered well without complications, and had the stitches removed

收稿日期(Date of reception): 2019-01-19

第一作者(First author): 宋剑, Email: entsj@csu.edu.cn, ORCID: 0000-0002-8447-8647

通信作者(Corresponding author): 蔡鑫章, Email: zeiss93@163.com, ORCID: 0000-0003-3211-7521

基金项目(Foundation item): 国家自然科学基金(81170923)。This work was supported by the National Natural Science Foundation of China (81170923).

before being discharged on schedule.

## KEY WORDS

giant cell reparative granuloma; temporal bone; diagnose

巨细胞修复性肉芽肿(giant cell reparative granuloma, GCRG)是一种类似巨细胞瘤的非肿瘤性疾病,有局部侵袭性,可对周围骨质造成破坏,具有恶性肿瘤的生物学特性。Jaffe等<sup>[1]</sup>于1953年首次提出并命名此病。该病在临床上罕见,约占骨良性病变的7%<sup>[2]</sup>。其发病年龄多在20~40岁之间,女性发病率较高,也有学者<sup>[3]</sup>认为男女发病率无明显差别。

## 1 临床资料

患者,男,45岁,因“左耳听力下降4年伴耳前肿胀2个月”于2018年7月3日入住中南大学湘雅医院。患者4年前无明显诱因出现左耳听力下降,无耳溢液、耳鸣、耳闷、头晕、头痛等伴随症状,右耳无上述症状。当时未予以重视,之后听力下降逐渐加重。曾就诊于当地医院,予以对症治疗,自觉听力下降症状无明显好转。近2个月来发现左侧耳前肿胀并逐渐加重,偶有头晕,无张口受限、眩晕、头痛等症状。遂来中南大学湘雅医院就诊,颞骨高分辨率CT及磁共振提示左侧颞颥骨占位性病变,考虑恶性肿瘤。

体格检查:患者一般情况可,左侧外耳道皮肤充血,可见红色新生物,表面有部分痂皮附着;外耳道深部闭锁,鼓膜不能窥清。左耳屏前方可扪及一鸡蛋大小局部隆起,约3 cm×4 cm。质地硬,活动差,表面皮肤正常,无张口受限。

辅助检查:纯音测听检查显示右耳平均听阈约25 dB,左耳平均听阈约90 dB,提示左耳重度混合性聋,以传导性为主。声导抗检查显示右耳鼓室A型图,左耳鼓室B型图。耳内镜检查显示右外耳道干洁,右鼓膜完整,标志清,左外耳道可见红色新生物,表面可见痂皮,左外耳道深部闭锁,鼓膜结构不能窥及。耳乳突高分辨率CT检查显示左侧颞颥骨局部有骨质膨胀性破坏,并见软组织形成,其内可见散在斑片状高密度灶。增强无明显强化,病变局部突破鼓室壁进入中耳,包绕听小骨,左侧乳突可见液样密度灶填充(图1A, B)。耳乳突磁共振平扫+增强:左侧颞颥骨可见团片状短T1长T2信号灶,增

强后未见明显强化,范围约3.8 cm×4.0 cm,左颞叶受压,左侧乳突内可见斑片状长T2信号,左侧内耳结果显示欠清(图1C~1F)。

术前诊断考虑:1)左侧侧颅底肿瘤性质待查(骨巨细胞瘤?骨肉瘤?骨纤维异常增生症?其他?);2)左侧重度混合性耳聋。

手术过程:完善术前检查,排除手术禁忌证,在全麻下行左侧颞骨肿瘤切除+颅底缺损修补+颞骨次全切除+腹壁取脂术。术中取耳后大C型切口,充分暴露颞骨鳞部、乳突部及颞骨颧突。肿瘤病变骨质呈黄褐色,骨质疏松,其范围主要位于颞鳞前部、颞骨颧突,向后累及鼓室(上鼓室、前鼓室为主)、鼓室及外耳道前壁骨质。鼓室内砧骨、锤骨破坏,镫骨完整。鼓室前下壁骨质破坏。外耳道前壁向内压迫致外耳道变窄,乳突腔内骨质未受累及,气房内可见黄色积液及胆固醇结晶。面神经外膝段骨质部分破坏吸收,面神经鞘完整。软组织肿瘤呈黄褐色鱼肉样,向前侵犯颞下颌关节的颞骨关节面骨质,但未累及颞颌关节囊;向颅底内侧至棘孔,与脑膜中动脉轻微粘连;向内下方侵犯颞下窝,贴近翼突外侧板。彻底开放乳突气房,沿肿瘤边缘小心分离周围正常组织结构,完整清除肿瘤。术中注意保留面神经残留骨管,封闭咽鼓管鼓口。轮廓化融合术腔后,取腹壁脂肪填塞术腔,颞肌瓣回位缝合覆盖术腔。缝合皮下组织及皮肤,加压包扎伤口。

术后予以定期局部换药、抗炎、止血等对症治疗。术后复查CT及磁共振,结果提示病变完整切除(图2)。患者术后恢复良好,左侧口角无明显歪斜,闭眼可,无眼震。颞区及腹壁切口I/甲级愈合,术后第7天拆除缝线并出院。6个月后随访复查,患者无特殊不适,无局部疼痛、面瘫等症状。CT及磁共振显示手术区域局部未见复发及扩散,骨面术腔完整无破溃(图3)。

病检报告:术中快速病检结果提示送检组织中可见大量巨细胞。术后病检报告示送检组织富于巨细胞病变,巨细胞分布不均匀,可见较多含铁血黄素分布,免疫组织化学:P63(-),CD68(+),CD163(+).结合免疫组织化学结果,病理诊断倾向巨细胞修复性肉芽肿(图4)。

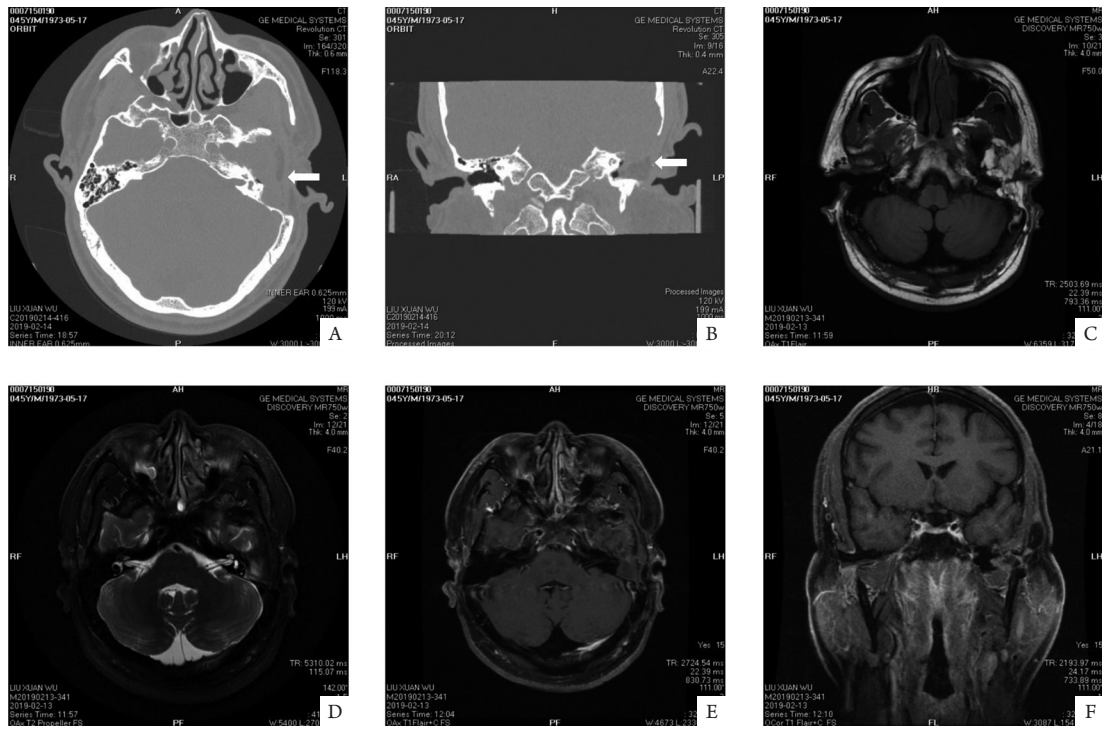


图1 患者术前CT及MRI影像学表现

Figure 1 Preoperative CT and MRI scans of the patient

A: Horizontal position; B: Sagittal position; C: T1WI; D: T2WI; E: Enhanced T1 imaging at horizontal position; F: Enhanced T1 imaging at sagittal position. CT shows a soft tissue mass in the left temporal region, with expansive destruction and absorption, accompanied by local osteosclerosis found in the temporal bone (A–B). MRI presents low signal intensity on the T1- and T2-weighted MR images in the mass without obvious changes observed in enhanced scanning, and patchy high signal intensity on the T2-weighted MR image in the mastoid region(C–F).

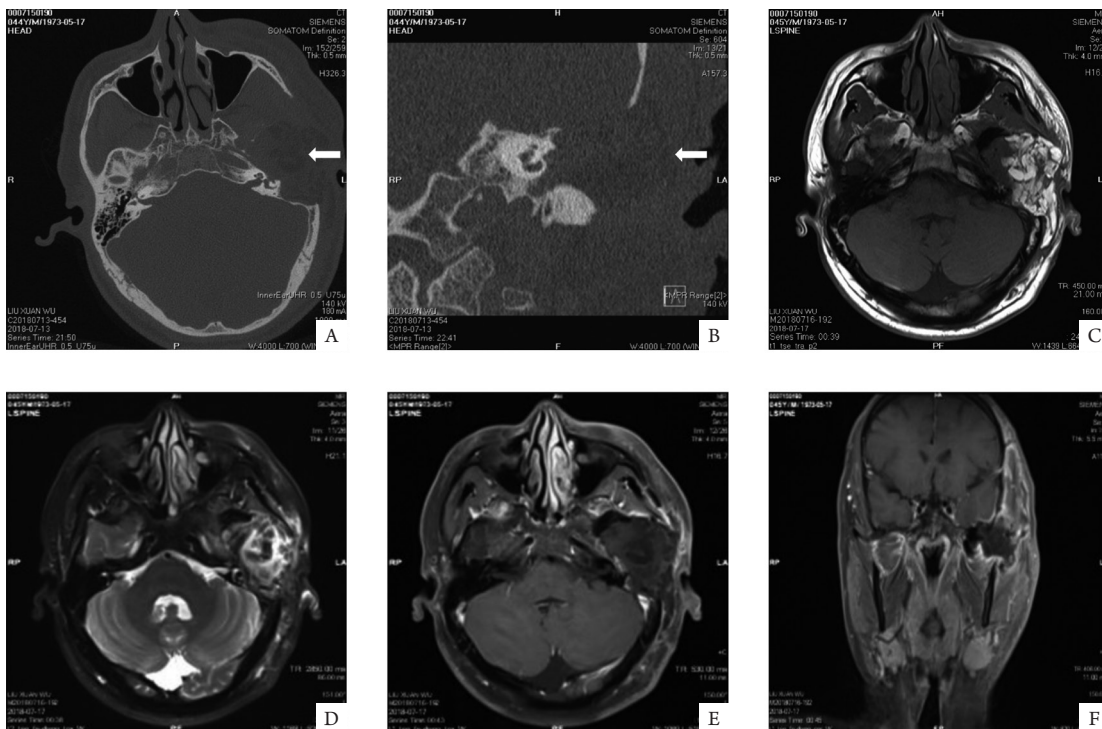


图2 患者术后CT及MRI影像学表现

Figure 2 Postoperative CT and MRI scans of the patient

A: CT horizontal position; B: CT sagittal position; C: MRI T1WI; D: MRI T2WI; E: MRI enhanced T1 imaging at horizontal position; F: MRI enhanced T1 imaging at sagittal position. It is suggested that the lesion was completely resected without local residua

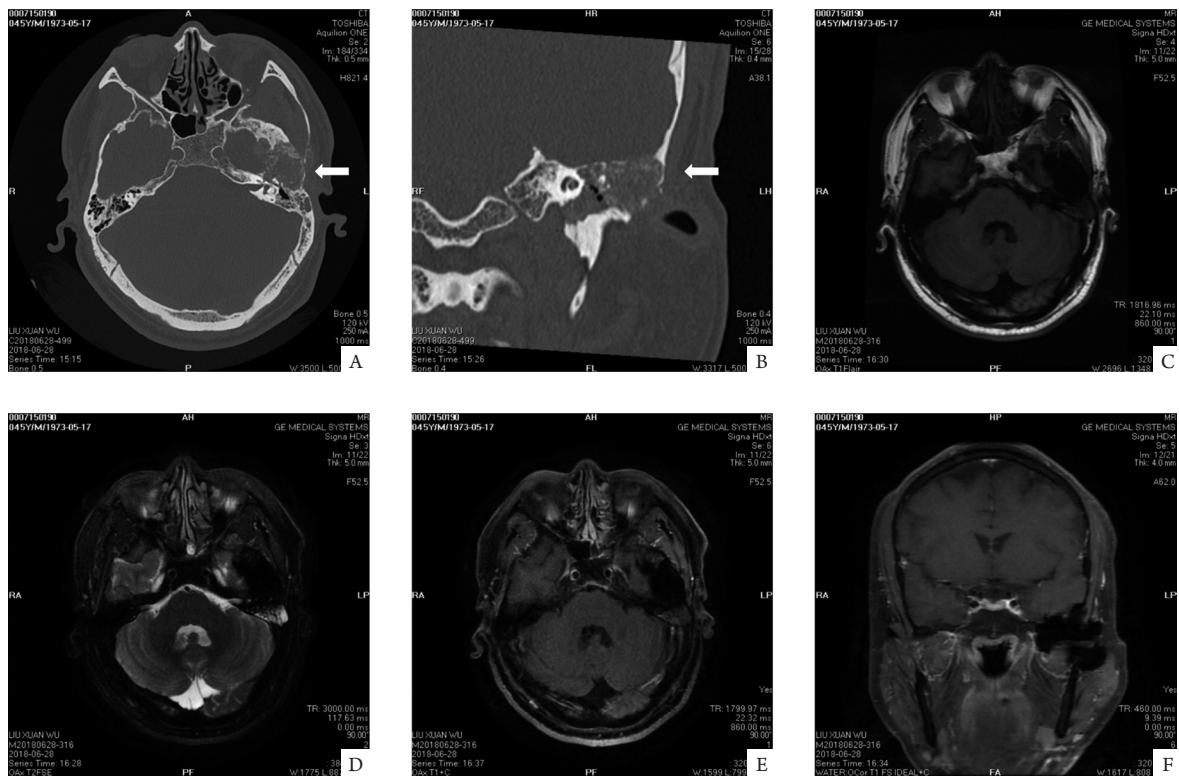


图3 患者术后6个月CT及MRI影像学表现

Figure 3 CT and MRI scans of the patient six months after surgery

A: CT horizontal position; B: CT sagittal position; C: MRI T1WI; D: MRI T2WI; E: MRI enhanced T1 imaging at horizontal position; F: MRI enhanced T1 imaging at sagittal position

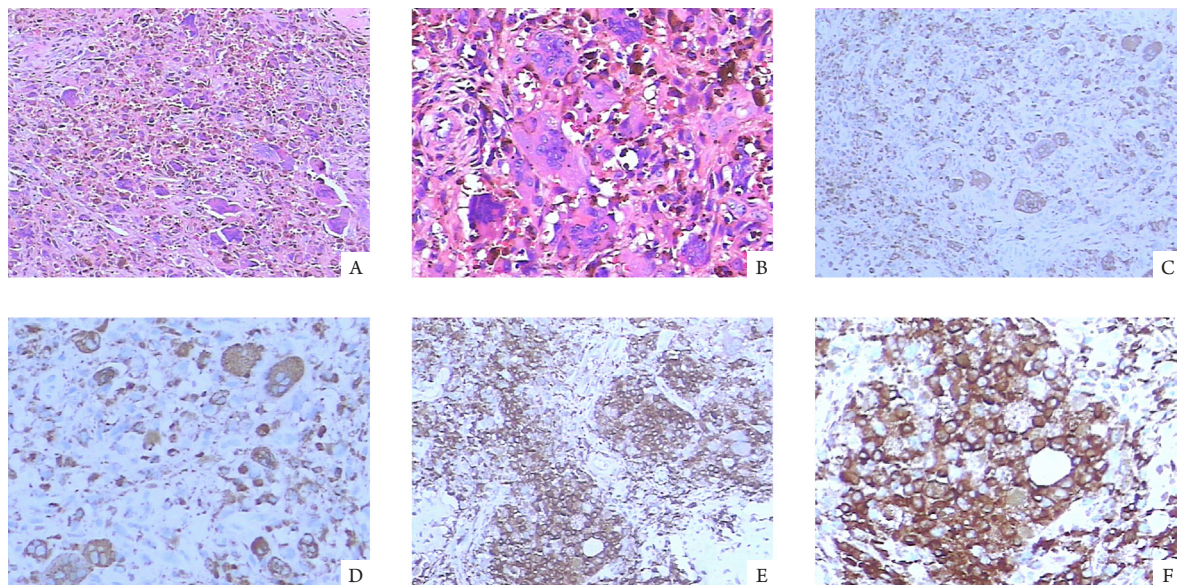


图4 病理检查结果

Figure 4 Results of the pathological examination

A: HE staining (×100); B: HE staining (×200); C: Immunohistochemical staining CD68(+) (×100); D: Immunohistochemical staining CD68(+) (×200); E: Immunohistochemical staining CD163(+) (×100); F: Immunohistochemical staining CD163(+) (×200). The tissue is rich in giant cell lesions. The distribution of giant cells is uneven. High levels of hemosiderin are observable

## 2 讨论

GCRG的病因及发病机制存在多种学说, 包括外伤导致骨内出血或骨膜反应出现增生性修复<sup>[4]</sup>; 慢性炎症反应引起局部血流动力学变化并增加骨内出血, 增生导致肉芽肿形成<sup>[5]</sup>。此外, 有文献<sup>[6]</sup>报道妊娠导致的雌激素水平变化可影响GCRG的发生和生长, 导致其易复发和进展。本病例为中年男性, 既往否认有局部外伤史。

GCRG最常发生于颌骨, 以下颌骨多见。多为单个部位发生, 也有报道累及多个部位。临床症状视发生的部位和病变大小而表现不同。原发于颞骨的GCRG主要以耳部的非特异性症状为主, 常表现为局部肿块、耳痛、听力下降、耳闷胀感、耳鸣等。早期听力下降呈轻中度传导性听力损失, 易误诊为中耳炎。因其具有局部骨质破坏及侵袭等特点, 随着病变发展, 可出现面神经、内耳前庭损伤表现, 如面瘫、眩晕等症状<sup>[7]</sup>。本例患者出现听力下降, 以传导性为主, 分析认为是由GCRG侵犯中耳, 破坏听骨链导致; 该患者入院前没有面部麻木、口角歪斜等面瘫表现, 说明GCRG未侵袭面神经。术中也证实面神经骨管部分吸收破坏, 但面神经鞘膜完整。

GCRG的CT平扫主要表现为局部软组织肿块影, 骨质呈现膨胀性、溶骨性破坏, 也可表现为周围骨质硬化, 密度不均。病变内可有囊状密度影及细小分隔。MRI典型表现为T1, T2及加权像均呈低信号改变, 而病变有囊变时在T2WI可呈高信号。增强扫描后, 病灶明显不均匀强化, 与其他恶性肿瘤影像学表现大体相似<sup>[8]</sup>。本例患者影像学表现与既往文献报道描述基本一致, 主要表现为非特异性溶骨性骨质破坏, 骨皮质膨胀变薄及软组织肿块, 局部伴有坏死及骨化, 骨质破坏显著但边界清晰, 周围硬化, 部分累及颞颌关节。

由于GCRG的影像学缺乏特异性改变, 术前诊断较困难, 目前确诊仍以病理组织学检查为主。GCRG的主要病理特点为病变组织纤维化明显, 成纤维细胞大量增生。核巨细胞分布不规则, 多集中在新鲜和陈旧性出血区周围。有类骨样组织或新生骨小梁形成。此外, 可出现较多炎性单核细胞浸润, 含铁血黄素的沉积为陈旧性出血表现<sup>[8]</sup>。

临床上, GCRG应与骨巨细胞瘤、动脉瘤样骨囊肿等骨源性肿瘤相鉴别。骨巨细胞瘤为低度恶性肿瘤, 其起源于骨髓结缔组织细胞, 多发生于长骨的干垢端, 很少发生于颅面骨, 属于真性恶性肿瘤, 具有较高的复发率(45%~62%), 可出现全身转移, 有肉瘤样恶性变的可能。CT表现为膨胀性骨质破坏, 多为偏心性, 其内常见分隔; 病理学特征主要表

现为细胞核分裂能力强, 核分裂象多, 细胞分布均匀, 形态大小一致, 间质中可见较多死骨形成<sup>[3]</sup>。而动脉瘤样骨囊肿与GCRG都具有非肿瘤修复过程的表现, 可观察到广泛的融骨样破坏和边缘硬化形成。在组织病理学方面, 肿瘤中可见大量血窦形成, 囊性变表现明显。因此, MRI的T1, T2加权可表现为典型的高信号影像<sup>[8]</sup>。总结GCRG的诊断依据应包括良性的起病过程、局部外伤或炎症的病史和典型病理组织学表现。

GCRG暂无恶变及转移的报道, 治疗方法以手术彻底切除为主。文献<sup>[9]</sup>统计手术治愈率为80%, 但也存在一定的复发率(10%~15%)。有学者主张对复发的或未完全切除的GCRG行放射治疗, 但有放射治疗后肉瘤样变性的报道<sup>[10-11]</sup>。除手术及放射治疗外, 抗血管形成药物被推荐使用, 尤其是GCRG复发病例的治疗<sup>[12]</sup>。

**利益冲突声明:** 作者声称无任何利益冲突。

## 参考文献

- [1] Jaffe HL. Giant cell reparative granuloma, traumatic bone cyst and fibrous(fibroosseus) dysplasia of the jaw bone[J]. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol*, 1953, 6(1): 159-175
- [2] 付岩宁, 金鑫, 金花兰, 等. CT和MRI分析颞骨巨细胞修复性肉芽肿[J]. *中国医学影像学杂志*, 2016, 24(6): 430-432.  
FU Yannan, JIN Xin, JIN Hualan, et al. CT and MRI analysis of giant cell reparative granuloma of the temporal bone[J]. *Chinese Journal of Medical Imaging*, 2016, 24(6): 430-432.
- [3] 谢群, 王琦, 刘丹丹, 等. 巨细胞修复性肉芽肿的诊疗分析及文献复习[J]. *中国美容医学*, 2012, 21(2): 188-189.  
XIE Qun, WANG Qi, LIU Dandan, et al. Giant cell granuloma three cases and literature review[J]. *Chinese Journal of Aesthetic Medicine*, 2012, 21(2): 188-189.
- [4] Ung F, Li KK, Keith DA, et al. Giant cell reparative granuloma of the temporal bone: case report and review of the literature[J]. *Otolaryngol Head Neck Surg*, 1998, 118(4): 525-529.
- [5] Katz A, Hirschl S. Giant cell reparative granuloma in the temporal bone[J]. *Arch Otolaryngol*, 1974, 100(5): 380-382.
- [6] 雷爱军, 崔香艳. 颞骨及鼻骨巨细胞修复性肉芽肿2例[J]. *临床耳鼻咽喉科杂志*, 2014, 18(11): 662-663.  
LEI Aijun, CUI Xiangyan. Giant cell reparative granuloma of temporal bone and nasal bone[J]. *Journal of Clinical Otorhinolaryngology*, 2014, 18(11): 662-663.
- [7] 赵艳梅, 史保院. 颞骨巨细胞修复性肉芽肿2例[J]. *临床耳鼻咽喉头颈外科杂志*, 2013, 27(16): 914-915.

- ZHAO Yanmei, SHI Baoyuan. Giant cell reparative granuloma of temporal bone[J]. Journal of Clinical Otorhinolaryngology Head and Neck Surgery, 2013, 27(16): 914-915.
- [8] 陈宁, 吴静, 周晓洋, 等. MRI和CT在巨细胞修复性肉芽肿诊断中的应用价值[J]. 现代医用影像学, 2018, 27(2): 390-392.
- CHEN Ning, WU Jing, ZHOU Xiaoyang, et al. The value of MRI and CT analysis of giant cell reparative granuloma of the temporal bone[J]. Modern Medical Imagology, 2018, 27(2): 390-392.
- [9] 曲丽梅, 于金录, 马洪喜, 等. 颞骨巨细胞修复性肉芽肿2例报道[J]. 肿瘤防治研究, 2011, 38(2): 241-242.
- QU Limei, YU Jinlu, MA Hongxi, et al. Two cases report of giant cell reparative granuloma of skull[J]. Cancer Research on Prevention and Treatment, 2011, 38(2): 241-242.
- [10] 平飞云, 杨明达, 陈关福, 等. 颌骨巨细胞修复性肉芽肿[J]. 口腔颌面外科杂志, 1996, 6(3): 18-19.
- PING Feiyun, YANG Mingda, CHEN Guanfu, et al. Giant cell reparative granuloma of bones[J]. Journal of Oral and Maxillofacial Surgery, 1996, 6(3): 18-19.
- [11] Reis C, Lopes JM, Carneiro E, et al. Temporal giant cell reparative granuloma: a reappraisal of pathology and imaging features[J]. Am J Neuroradiol, 2006, 27(8): 1660-1662.
- [12] Kaban LB, Mulliken JB, Ezekowitz RA, et al. Antiangiogenic therapy of a recurrent giant cell tumor of the mandible with interferon alfa-2a[J]. Pediatrics, 1999, 103(6 Pt 1): 1145-1149.

(本文编辑 平静波)

**本文引用:** 宋剑, 梅凌云, 蔡鑫章. 颞骨巨细胞修复性肉芽肿1例[J]. 中南大学学报(医学版), 2019, 44(8): 935-940. DOI:10.11817/j.issn.1672-7347.2019.190055

**Cite this article as:** SONG Jian, MEI Lingyun, CAI Xinzhang. Giant cell reparative granuloma of the temporal bone: A case report[J]. Journal of Central South University. Medical Science, 2019, 44(8): 935-940. DOI:10.11817/j.issn.1672-7347.2019.190055