

儿童颈-胸移行椎侵袭性血管瘤的手术治疗
(临床观察, 初步结果)SURGICAL TREATMENT OF AGGRESSIVE HEMANGIOMAS
OF THE TRANSITIONAL CERVICAL-THORACIC SPINE IN CHILDREN
(CLINICAL OBSERVATIONS, PRELIMINARY RESULTS)

© V.V. Zaretskov, V.B. Arsenievich, S.V. Likhachev, S.V. Stepukhovich, S.A. Mizyurov

Saratov State Medical University named after V.I. Razumovsky, Saratov, Russia

Received: 27.02.2019

Revised: 07.04.2019

Accepted: 06.06.2019

引言。脊椎血管瘤是一种常见疾病, 其在 37% 的病例中是侵袭性的。导致脊椎血管瘤发病的一个原因是机械过载。脊椎的移行部分是负载最重的部分。颈-胸移行椎血管瘤病变非常罕见 (发病率占所有脊椎血管瘤的 2% - 4%)。侵袭性血管瘤的一种常见治疗方法为椎体穿刺成形术。目前, 患有脊椎血管瘤的儿科患者已有增长, 18 岁以下患者的发病率接近 8%。对儿童血管瘤患者实施保守治疗的治愈率被夸大, 常常导致令人不满意的结果。由于有关儿童侵袭性脊椎血管瘤手术治疗的信息不足, 因此针对该问题进行临床研究具有重要意义。

临床案例。两名 15 岁 和 17 岁的颈-胸移行椎侵袭性血管瘤患者接受了开放性椎体穿刺成形术手术。未出现术后并发症, 并取得了良好的初步结果。

讨论。本文提出并分析了各种针对儿童颈-胸移行椎侵袭性血管瘤的治疗方案, 包括开放性椎体穿刺成形术。

结论。由于有关儿科脊椎血管瘤的信息非常有限, 因此所提出的颈-胸移行椎侵袭性血管瘤的手术治疗临床案例可能对很多读者具有重要意义。

关键词: 脊椎; 儿童血管瘤; 颈-胸移行; 椎体成形术。

Introduction. Vertebral hemangioma is a common pathology, in which 3.7% cases are aggressive. One of the pathogenetic factors contributing to the growth of vertebral hemangioma is mechanical overload. The transitional parts of the spine are the most loaded. Lesions of the transitional cervical-thoracic spine by hemangioma are rare (2%–4% of all vertebral hemangiomas). A common treatment for aggressive hemangiomas is puncture vertebroplasty. Currently, the number of pediatric patients with vertebral hemangiomas has increased, with an incidence close to 8% for individuals aged below 18 years. Exaggeration of the possibilities of conservative treatment for hemangiomas in children often leads to unsatisfactory results. Clinical research on this problem is relevant due to the lack information about the surgical tactics in aggressive spinal hemangiomas in children.

Clinical observation. Two patients aged 15 and 17 years old with aggressive hemangiomas of the transitional cervical-thoracic spine underwent operation with the use of open-puncture vertebroplasty. There were no postoperative complications, and good preliminary results were obtained.

Discussion. Various approaches in the treatment of aggressive hemangiomas of the transitional cervical-thoracic spine in children, including open-puncture vertebroplasty, were presented and analyzed.

Conclusion. Due to the limited information about surgical treatment for pediatric vertebral hemangiomas, the presented clinical cases of surgical treatment for aggressive hemangiomas of the transitional cervical-thoracic spine may be of interest to a wide audience.

Keywords: spine; hemangioma in children; cervical-thoracic transition; vertebroplasty.

引言

脊柱血管瘤 (SH) 是一种常见疾病, 发病率为十分之一 [1]。根据文献回顾, 该疾病在 3.7% 的 SH 患者中是侵袭性的 [2]。判断 SH 是否为侵袭性的依据是放射学和临床症状。侵袭性 SH 的诊断标准包括: 出现椎管外部分血管瘤, 受到血管瘤影响出现椎体压缩骨折或压缩变形, 出现骨扩张和皮质层突出 (椎骨肿胀), 超过 $> 60\%$ 的椎体发现血管瘤病灶, 皮质层损伤 (变薄和/或破坏), 血管瘤骨小梁结构不均匀, 血管瘤从椎体向椎弓扩张, 血管瘤结构中缺乏脂肪组织 (核磁共振成像 (MRI) 中 T1 血管瘤低信号, T2-WI 高信号); 在信号脂肪抑制模式中, T2-WI 高信号, 局部疼痛症状, 以及神经表现。针对所列的每一个临床和放射学症状分配一个分值 (1-5)。如果所有症状的总分为 $\geq 5e$, 则可判断为侵袭性血管瘤 [3]。

随着在临床实践中引入放射检验方法, SH 已经从随机发现结果类别转变为当代医学亟需解决的问题 [4]。脊柱疾病的主要诊断方法为计算机断层扫描 (CT) 和 MRI [3]。CT 是诊断 SH 最有效的方法, 因为其准确度和灵敏度均达到 100%, 而 MRI 的准确率为 94.7%, 灵敏度为 96.7% [5]。血管瘤的一个致病增长因素是机械过载 [6]。脊柱移行部分易受到最大负载的影响 [7]。其功能重要性以及受到较大的机械应力将增加这些部位血管瘤椎体侵袭性增长和病理性骨折的风险 [8]。绝大多数血管瘤为胸腰移行椎血管瘤 ($Th_{11} - L_2$), 约占所有病例的 56% - 62%, 颈胸移行椎病变 ($C_7 - Th_1$) 占 2% - 4%, 而腰骶移行椎 ($L_5 - S_1$) 占 8% - 12% [9]。

SH 在小于十岁的儿科患者中极为罕见 [10]。值得注意的是, 近几年, 儿科 SH 患者的数量一直在增加 [11]。很多作者将这一现象与遗传素质和致癌环境条件相关联 [12]。在儿科患者中, 最常见的 SH 侵袭部位为胸部 (76%), 其次为腰部 (21%); 颈部和骶尾部的病变极为罕见 (1% - 1.5%) [13]。迄今为止, 考虑所有已发现病例, 18 岁以下人群的 SH 患病率约为 8% [10]。在患有侵袭性 SH 的儿科患者中, 存在受累椎骨区域或沿整个脊柱疼痛, 强体力活动后及一天结束时痛感增加, 以及四肢常常感觉麻木等临床症状 [13]。

根据多数作者所述, 椎体穿刺成形术 (PV) 治疗脊柱疾病, 包括侵袭性血管瘤非常有效 [3]。椎体成形术的主要目的是恢复受损脊椎的支持功能, 达到一种镇痛和抗肿瘤的效果 [6]。针对颈椎和颈-胸移行椎的 PV, 采用经皮前外侧穿刺。但其存在一些弊端 [3]。特别是, 由于肩胛带所产生的 X 射线阴影的影响, $C_7 - Th_1$ 水平的主要 X 射线参考点的电子-光学变换器视觉化受到很大影响 [14]。这阻碍了用针对脊椎进行穿刺的控制, 因此增加了并发症的风险。结合之前章节所讨论的, 建议针对开放性前外侧穿刺在这一水平进行 PV [15]。

研究针对儿科侵袭性 SH 患者进行手术治疗的俄罗斯国内外的研究较为有限。因此, 我们分别提出了两名 15 岁和 17 岁 C_7 和 Th_1 脊椎侵袭性血管瘤患者的临床病例。

临床案例

开放性椎体穿刺成形术治疗方法。在全麻状态下，对 C₇ 和 Th₁ 椎体实施开放性前外侧穿刺。患者处于仰卧位，并在肩胛带下方安放一个小滚轮，头部处于伸展状态，以 15° 角度稍微转向手术切口相反一侧。采用右手边。切开大约 5cm 长的皮肤切口。逐层切开皮下组织、皮下肌肉和颈部的筋膜。一侧的喉、咽、食管，以及另一侧的颈动脉之间的空间的手术伤口较深。颈部的中线器官（喉、咽、食管和甲状腺）向内侧移位，颈部的神经血管束向外侧移位。在伤口深度暴露受累椎体，向该位置插一根穿刺针，位于脊椎正面接近中线处。使用的穿刺针长度为 10 cm，直径为 13 G，带一个圆锥形尖端。注入的高粘度接合剂的容量分别为 3 mL 和 4 mL。

临床案例 1。患者 A，年龄 15 岁，于 2018 年 3 月到萨拉托夫州立医科大学创

伤学、骨科和神经外科研究院咨询与诊断科 (advisory and diagnostic department of the Research Institute of Traumatology, Orthopedics and Neurosurgery, Saratov State Medical University) 就诊。主诉颈椎部位疼痛，并放射至肩胛带外侧面。疼痛持续且强烈，头部移动时加剧。依据视觉模拟量表 (VAS)，患者估计疼痛分值为 8 分。病历显示，患者感觉疼痛已有 6 个月时间。触诊 C₇ 脊椎棘突时痛感强烈增加。采用 CT 对颈椎进行检查后，我们诊断椎体 C₇ 完全侵袭性血管瘤（图 1）。

患者被收治住院部，并接受了 C₇ 椎体开放性 PV 手术治疗。手术后，记录到患者疼痛症状完全衰退。在术后 CT 影像中，未检测到聚甲基丙烯酸甲酯的意外迁移（图 2）。

临床案例 2。患者 V，年龄 17 岁，于 2018 年 5 月到研究院就诊。主诉颈

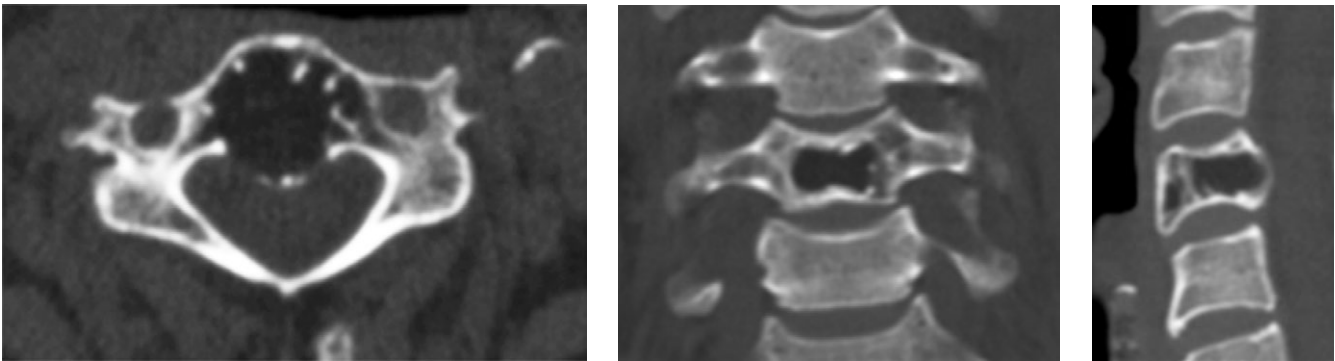


图 1. 手术前对患者 A 脊椎 C₇ 的 CT 扫描

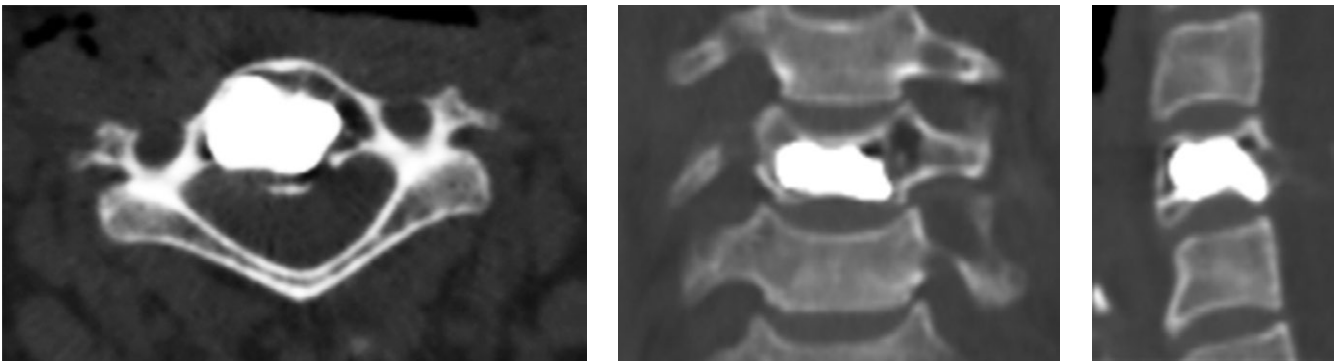


图 2. 手术后对患者 A 脊椎 C₇ 的 CT 扫描

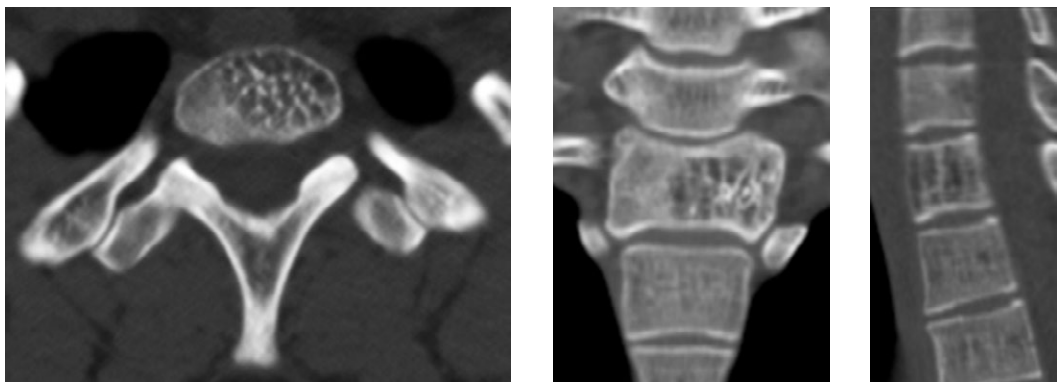


图 3. 手术前对患者 V 脊椎 Th₁ 的 CT 扫描

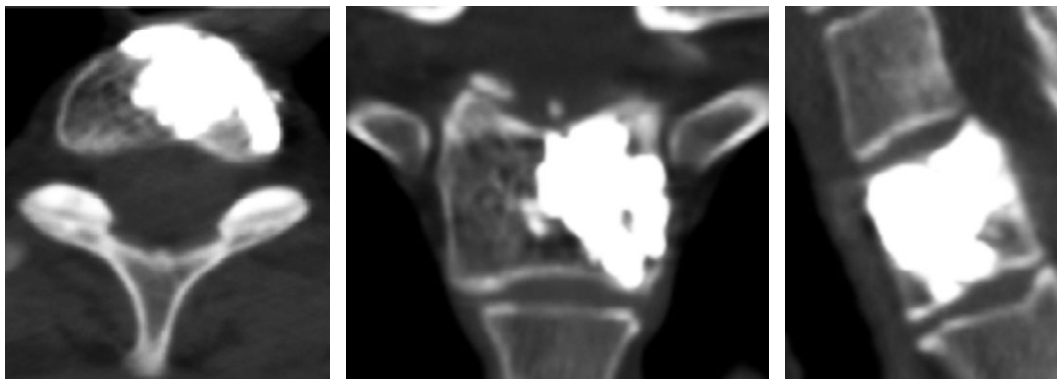


图 4. 手术后对患者 V 脊椎 Th₁ 的 CT 扫描

和胸椎部位疼痛，并放射至右上肢。疼痛为牵引性和周期性疼痛，强体力活动时疼痛加剧。根据 VAS，患者估计其疼痛分值为 6 分。在触诊 C₇ - Th₁ 脊椎棘突部位时，观察到疼痛症状增加。CT 检查显示了在 Th₁ 椎体部位的侵袭性血管瘤（图 3）。除了临床症状，CT 征象也显示了血管瘤的侵袭性，例如骨扩张和皮质层突出；病灶大于椎体 2/3；皮质层损伤（变薄）；以及血管瘤骨小梁结构不均匀。

对患者实施了椎体 Th1 开放性 PV 手术治疗。手术后，疼痛症状衰退。在术后 CT 影像中，腔体充满了聚甲基丙烯酸甲酯（图 4）。

依据疼痛症状完全衰退的临床数据，评估了 PV 的有效性（根据 VAS，两名患者的评分为 0 分）。手术后，对两名患者进行了体检 CT 检查。在 CT 影像中，对血管瘤腔体填充骨接合剂的完全性进行可

视化，填充度为 86% 至 94%。住院时长为 2 - 4 天。6 个月后进行 CT 检查，确认没有出现血管瘤复发性生长。

讨论

针对存在持续疼痛症状的侵袭性 SH 儿科患者选择的治疗方案尚存在争议。有人认为，针对发现 SH 的儿童，应在青春期之前对其进行动态观察。如果激素平衡发生改变，肿瘤可能会消失 [16]。但是，根据医学文献，儿科侵袭性血管瘤患者实施保守治疗的治愈率被夸大，从而导致令人不满意的长期结果。尤其是，随着由于肿瘤的骨质或软组织部分对椎管内容物产生压迫而导致椎体病理性压缩骨折和神经损害，之后将需要复杂的重建性稳定手术 [17, 18]。因此，如果存在严重的

临床症状，应建议采取手术治疗 [10]。作者认为，激素不平衡可促进 SH 的快速生长，导致发育有机体的并发症 [12]。但是，主动的手术治疗的限制因素是：由于没有进行充分的手术干预，患者有时会出现不良反应 [17]。

目前，采用聚甲基丙烯酸甲酯骨接合剂的 PV 治疗方案是一种非常有效的治疗侵袭性 SH 的方法 [3]。通过分析对儿科患者采用 PV 治疗方法的病例，我们得出结论，该方法具有 [17] 持续的镇痛效果，恢复受累脊椎的支持功能，并有助于防止肿瘤复发。但是，我们尚未对椎体成形术后，填充聚甲基丙烯酸甲酯对脊椎发育的影响进行充分的研究。在外国文献中，描述了两个对儿科患者实施手术后随访两年的病例，结果显示并未出现发育异常 [10]。

在对颈-胸椎进行前外侧位经皮 PV 的过程中，尖锐的穿刺针对重要的颈解剖结构造成损伤的风险增加，从而导致医源性并发症，例如：随着时间推移，出现纵膈炎，导致食道穿孔；对大血管造成损伤，造成严重的失血；以及对呼吸道造成损伤 [19]。在对颈-胸移行椎进行 PV 手术时，应考虑到，由于 X 射线阴影的影响（实际上是肩关节、肩胛骨、肋骨和肺部顶端的分层），脊柱和主要参考点电子-光学变换器视觉化受到很大影响 [3]。在这种情况下，可使用术中 CT 或血管造影的特殊功能。这样可以采用多维平面和容积重建，进行 CT 模拟并实时跟踪穿刺针的方向和深度 [8, 14]。可以进行开放性的 PV 手术，这样可提高操作效率和安全性 [15]。针对颈-胸移行椎椎体成形术，更推荐进行开放性手术治疗。开放性的前外侧穿刺为椎体的前面和前外侧面提供了更广阔的视角，因此降低了采用经皮穿刺

可能出现的并发症风险。在该水平进行椎体成形术，高粘度和有效期较长的接合剂更为适合，可降低腰椎管外复合材料溢出的风险。

结论

对于儿科侵袭性 SH 患者，及时诊断和充分治疗（包括手术治疗）非常重要。由于目前有关儿科 SH 的文献不足并且很少进行本地化，以及迄今为止，针对儿科患者治疗该疾病通常为保守治疗，因此我们所提供的临床观察资料可能对很多读者具有重要意义。

其他信息

资金来源。未提供资金。

利益冲突。作者声明，不存在与发表本文相关的明显或潜在利益冲突。

伦理审查。患者的法定代表同意处理和发表个人信息。从萨拉托夫州立医科大学拉兹莫夫斯基创伤学、骨科和神经外科研究院伦理委员会取得了开展研究的肯定决定（方案号：2，日期：2019 年 2 月 25 日）。使用的药物通过了临床试验，并在俄罗斯联邦国家注册处进行了注册。根据联邦卫生保健和社会发展监测服务令（日期为 2009 年 12 月 21 日和 2015 年 7 月 6 日），所使用的骨接合剂经过审批，可进口至、并在俄罗斯联邦销售和使用，其名称为 VertaPlex Stryker 不透射线骨接合剂（营销许可号：FSZ 2009/05816），SynicemVTP Synimed（营销许可号：FSZ 2012/11776）。

作者贡献

V. V. Zaretskov 参与研究的概念和设计，阶段和文章文字的最终编辑。

V. B. Arseniyevich 进行数据分析、结果解释，并且对患者提供手术治疗。

S. V. Likhachev 撰写文章，执行监督并且对患者提供手术治疗。

S. V. Stepuhovich 执行监督，对患者提供手术治疗，并且进行数据分析。

S. A. Mazyurov 分析文献来源，收集资料，并撰写文章。

References

1. Мусаев Э.Р. Первичные опухоли позвоночника: обзор литературы // Практическая онкология. – 2010. – Т. 11. – № 1. – С. 19–24. [Musaev ER. Pervichnye opukholi pozvonochnika: obzor literatury. *Prakticheskaya onkologiya*. 2010;11(1):19-24. (In Russ.)]
2. Kato S, Kawahara N, Murakami H, et al. Surgical management of aggressive vertebral hemangiomas causing spinal cord compression: long-term clinical follow-up of five cases. *J Orthop Sci*. 2010;15(3):350-356. <https://doi.org/10.1007/s00776-010-1483-z>.
3. Кравцов М.Н., Мануковский В.А., Манащук В.И., и др. Диагностика и лечение агрессивных гемангиом позвонков. Клинические рекомендации. – М., 2015. [Kravtsov MN, Manukovskii VA, Manashchuk VI, et al. Diagnosis and treatment of aggressive vertebral hemangiomas. Clinical guidelines. Moscow; 2015. (In Russ.)]
4. Воронович И.Р., Пашкевич Л.А., Мартынюк С.Н. Гемангиома позвоночника // Медицинские новости. – 2014. – № 1. – С. 39–42. [Voronovich IR, Pashkevich LA, Martynyuk SN. Hemangioma of the spine. *Meditsinskie novosti*. 2014;(1):39-42. (In Russ.)]
5. Шавладзе З.Н., Смирнов В.В., Елисеев Н.П., и др. Лучевая диагностика первичных опухолей позвоночника // Мануальная терапия. – 2010. – № 3. – С. 83–91. [Shavladze ZN, Smirnov VV, Eliseev NP, et al. Luchevaya diagnostika pervichnykh opukholey pozvonochnika. *Manual'naya terapiya*. 2010;(3):83-91. (In Russ.)]
6. Зарецков В.В., Лихачев С.В., Арсениевич В.Б., и др. Гемангиомы позвоночника. Особенности диагностики и хирургического лечения // Успехи современного естествознания. – 2015. – № 6. – С. 22–27. [Zaretskov VV, Likhachev SV, Arseniyevich VB, et al. Vertebral hemangiomas: Diagnostics and surgical treatment. *Advances in current natural sciences*. 2015;(6):22-27. (In Russ.)]
7. Рерих В.В., Рахматиллаев Ш.Н., Пендюрин И.В. Результаты хирургического лечения пациентов с гемангиомами грудных и поясничных позвонков (опыт Новосибирского НИИТО) // Международный журнал прикладных и фундаментальных исследований. – 2015. – № 11-1. – С. 55–59. [Rerikh VV, Rakhmatillaev ShN, Pendyurin IV. Results of surgical treatment of patients with hemangiomas of the thoracic and lumbar spine (experience of the novosibirsk NRITO). *Mezhdunarodnyy zhurnal prikladnykh i fundamental'nykh issledovaniy*. 2015;(11-1):55-59. (In Russ.)]
8. Jiang L, Liu XG, Yuan HS, et al. Diagnosis and treatment of vertebral hemangiomas with neurologic deficit: a report of 29 cases and literature review. *Spine J*. 2014;14(6):944-954. <https://doi.org/10.1016/j.spinee.2013.07.450>.
9. Urrutia J, Postigo R, Larrondo R, Martin AS. Clinical and imaging findings in patients with aggressive spinal hemangioma requiring surgical treatment. *J Clin Neurosci*. 2011;18(2):209-212. <https://doi.org/10.1016/j.jocn.2010.05.022>.
10. Issa M, Lucas G, Violas P, et al. Vertebroplasty for vertebral hemangioma in children: a report of two cases with 2-year follow-up. *Childs Nerv Syst*. 2015;31(11):2179-2183. <https://doi.org/10.1007/s00381-015-2777-4>.
11. Cheung NK, Doorenbosch X, Christie JG. Rapid onset aggressive vertebral haemangioma. *Childs Nerv Syst*. 2011;27(3):469-472. <https://doi.org/10.1007/s00381-011-1391-3>.
12. Gajseni P, Labianca L, Lacerda I, Weinstein S. A child with a rare extraosseous extension and pathologic fracture from a vertebral hemangioma: a case report. *JBJS Case Connect*. 2017;7(4):e86. <https://doi.org/10.2106/JBJS.CC.17.00057>.
13. Jha B, Choudhary AK. Unusual cause of back pain in an adolescent patient: a case report and natural history of aggressive vertebral hemangioma in children. *Pain Physician*. 2008;11(5):687-692.
14. Танкачев Р.Ш. Метод пункционной вертебропластики в лечении агрессивных гемангиом труднодоступной локализации верхнегрудных позвонков // Нейрохирургия и неврология Казахстана. – 2012. – № 1. – С. 21–25. [Tankacheev RS. Metod punktsionnoy vertebroplastiki v lechenii agressivnykh gemanგიom trudnodostupnoy lokalizatsii verkhnegrudnykh pozvonkov. *Neirokhirurgiya i nevrologiya Kazakhstana*. 2012;1(26):21-25. (In Russ.)]
15. Bao L, Jia P, Li J, et al. Percutaneous vertebroplasty relieves pain in cervical spine metastases.

- Pain Res Manag.* 2017;2017:3926318. <https://doi.org/10.1155/2017/3926318>.
16. Duprez T, Lokietek W, Clapuyt P, et al. Multiple aggressive vertebral haemangiomas in an adolescent: a case report. *Pediatr Radiol.* 1998;28(1):51-53. <https://doi.org/10.1007/s002470050291>.
 17. Cherian J, Sayama CM, Adesina AM, et al. Multilevel thoracic hemangioma with spinal cord compression in a pediatric patient: case report and review of the literature. *Childs Nerv Syst.* 2014;30(9):1571-1576. <https://doi.org/10.1007/s00381-014-2441-4>.
 18. Bassou D, Benaissa AD, El Khyari A, et al. Vertebral hemangioma: a rare cause of cord compression in children. *J Radiol.* 2008;89(2):262-263. [https://doi.org/10.1016/S0221-0363\(08\)70404-9](https://doi.org/10.1016/S0221-0363(08)70404-9).
 19. Курамшин А.Ф., Сафин Ш.М., Нараев Р.Я., и др. Особенности проведения вертебропластики при гемангиомах шейного отдела позвоночника // Хирургия позвоночника. – 2015. – Т. 12. – № 4. – С. 80–83. [Kuramshin AF, Safin ShM, Nagaev RY, et al. Vertebroplasty for cervical spine hemangioma. *Spine surgery.* 2015;12(4):80-83. (In Russ.)]

Information about the authors

Vladimir V. Zaretskov — MD, PhD, D.Sc., Leading Research Assistant of the Scientific Research Institute of Traumatology, Orthopedics and Neurosurgery of Saratov State Medical University n.a. V.I. Razumovsky, Department of Neurosurgical and Vertebrological Innovations; Professor of the Department of Traumatology and Orthopedics of Saratov State Medical University, Saratov, Russia. <https://orcid.org/0000-0001-5921-2786>.

Vladislav B. Arsenievich — MD, PhD, Head of the Third Traumatology and Orthopedics Department of the Scientific Research Institute of Traumatology, Orthopedics and Neurosurgery of Saratov State Medical University n.a. V.I. Razumovsky, Department of Neurosurgical and Vertebrological Innovations, Saratov, Russia. <https://orcid.org/0000-0003-4808-1578>.

Sergey V. Likhachev — MD, PhD, Senior Research Assistant of the Scientific Research Institute of Traumatology, Orthopedics and Neurosurgery of Saratov State Medical University n.a. V.I. Razumovsky, Department of Neurosurgical and Vertebrological Innovations, Saratov, Russia. <https://orcid.org/0000-0003-1874-2507>.

Sergey V. Stepukhovich — MD, PhD, Orthopedic and Trauma Surgeon of the Scientific Research Institute of Traumatology, Orthopedics and Neurosurgery of Saratov State Medical University n.a. V.I. Razumovsky, Saratov, Russia. <https://orcid.org/0000-0002-2194-1446>.

Sergey A. Miziurov — MD, Orthopedic and Trauma Surgeon of the Scientific Research Institute of Traumatology, Orthopedics and Neurosurgery of Saratov State Medical University n.a. V.I. Razumovsky, Diagnostic and Consulting Department; Saratov State Medical University n.a. V.I. Razumovsky, Post-Graduate Student of Traumatology and Orthopedics Department, Saratov, Russia. <https://orcid.org/0000-0002-8935-3384>. E-mail: miziurov@inbox.ru.