

个案报道

胸椎滑膜囊肿 1 例报道

Synovial cyst of the thoracic spine: a case report

庞 杜¹, 于圣平¹, 李一鸣¹, 孙翠云², 杨学军¹

(1 天津医科大学总医院神经外科; 2 神经病理科 300052 天津市)

doi: 10.3969/j.issn.1004-406X.2022.02.14

中图分类号: R738.5 文献标识码: B 文章编号: 1004-406X(2022)-02-0188-05

脊柱滑膜囊肿, 又称椎管内滑膜囊肿, 是指发生在椎管内硬膜外的一类滑膜囊肿。其主要包括关节突囊肿、神经节囊肿及黄韧带囊肿等。文献报道常发生在腰椎管内, 多发生在 L4/5 节段, 颈椎管内少见, 胸椎管内罕见^[1,2]。脊柱滑膜囊肿大多起源于脊柱关节突滑膜囊, 少数起源于黄韧带及椎管内其他韧带^[3]。脊柱滑膜囊肿的发生机制大致如下: 脊柱的退行性改变、创伤、炎症和发育不良等使得相应节段关节突关节不稳定和脊柱节段过度活动, 关节囊随着关节的活动增加, 囊壁受牵拉变得松弛, 其内容物向外

疝出, 最终形成滑膜囊肿^[1,4,5]。椎管内滑膜囊肿逐渐变大使椎管及椎间孔狭窄, 压迫相应的脊髓节段和神经根, 出现相应的临床症状^[1]。因为胸椎与肋骨、胸骨等共同构成胸廓增加了胸椎的稳定性, 所以胸椎滑膜囊肿十分少见^[6]。我院收治了 1 例胸椎滑膜囊肿患者并行手术治疗, 术后随访 3 个月, 治疗效果满意, 报道如下。

患者男性, 20 岁, 主因“间断背部疼痛 2 年余, 加重 1 周”于 2020 年 8 月 10 日入院。患者 2 年前无明显诱因出现背部间歇性疼痛, 疼痛呈撕裂状, 疼痛部位主要位于两个肩胛骨之间, 并伴有左上肢疼痛及左侧胸壁麻木感, 就诊于外院, 行颈椎 MRI 检查未发现明显异常, 2 年来疼痛仍有间断发作, 为一过性, 疼痛尚可耐受, 未行特殊治疗。患者 1 周前再发背部疼痛, 左上肢及左侧腋窝疼痛, 不伴左上肢无力, 自觉疼痛发作较前频繁, 疼痛持续时间较前

第一作者简介: 男(1995-), 硕士研究生, 研究方向: 脊柱脊髓疾病, 中枢神经系统肿瘤

电话: (022)60814453 E-mail: 610689276@qq.com

通讯作者: 杨学军 E-mail: ydenny@126.com

25. Ji X, Wang S, Oner FC, et al. Surgical management of enneking stage 3 aggressive vertebral hemangiomas with neurological deficit by one-stage posterior total en bloc spondylectomy: a review of 23 cases [J]. Spine (Phila Pa 1976), 2020, 45(2): E67-E75.
26. Blecher R, Smorgick Y, Anekstein Y, et al. Management of symptomatic vertebral hemangioma: follow-up of 6 patients [J]. J Spinal Disord Tech, 2011, 24(3): 196-201.
27. Robinson Y, Sheta R, Salci K, et al. Blood loss in surgery for aggressive vertebral haemangioma with and without embolisation [J]. Asian Spine J, 2015, 9(3): 483-491.
28. Yadav N, Prabhakar H, Singh GP, et al. Acute hemodynamic instability during alcohol ablation of symptomatic vertebral hemangioma: a prospective study [J]. J Clin Neurosci, 2010, 17(6): 810-811.
29. Prabhakar H, Singh GP. Absolute alcohol embolization of symptomatic vertebral hemangiomas may not be absolutely safe during intraoperative period[J]. Neurosurgery, 2011, 69(2): E502.
30. Zhang HL, Hu YC, Aryal R, et al. Thoracic vertebral hemangioma with spinal cord compression: multidisciplinary

surgical treatment and follow-up of six patients [J]. Orthop Surg, 2016, 8(4): 462-467.

31. Heyd R, Seegenschmiedt MH, Rades D, et al. Radiotherapy for symptomatic vertebral hemangiomas: results of a multi-center study and literature review[J]. Int J Radiat Oncol Biol Phys, 2010, 77(1): 217-225.
32. Aich RK, Deb AR, Banerjee A, et al. Symptomatic vertebral hemangioma: treatment with radiotherapy [J]. J Cancer Res Ther, 2010, 6(2): 199-203.
33. Asthana AK, Tandon SC, Pant GC, et al. Radiation therapy for symptomatic vertebral haemangioma [J]. Clin Oncol (R Coll Radiol), 1990, 2(3): 159-162.
34. Zhang M, Chen YR, Chang SD, et al. CyberKnife stereotactic radiosurgery for the treatment of symptomatic vertebral hemangiomas: a single-institution experience [J]. Neurosurg Focus, 2017, 42(1): E13.
35. Beyzadeoglu M, Dirican B, Oysul K, et al. Evaluation of radiation carcinogenesis risk in vertebral hemangioma treated by radiotherapy [J]. Neoplasma, 2002, 49(5): 338-341.

(收稿日期: 2021-09-15 修回日期: 2021-12-07)

(本文编辑 李伟霞)

长,遂就诊于我院,在门诊行胸椎 MRI 检查提示 T2 水平椎管内异常信号。患者遂住院拟行手术治疗。患者既往体健,否认有外伤史和类似疾病家族遗传病史。查体:生命体征正常,心肺系统及腹部检查未见明显异常;肛门和膀胱括约肌功能正常;神经科查体:12 对颅神经检查正常,肢体肌力 5 级,肌张力正常,深反射对称性,浅感觉、深感觉未见明显异常,双侧巴宾斯基征阴性,共济运动检查无明显异常。辅助检查:实验室检查(血尿便常规、肝肾功能电解质,凝血功能等)均未见明显异常。胸椎 MRI 平扫+强化示 T2 水平椎管内硬膜外脊髓腹外侧偏左可见一占位性病变,直径约 2cm,类圆形,邻近左侧椎间孔和关节突,脊髓

受压明显,该占位性病变在 T1 加权成像上为低信号、T2 加权成像上为高信号、在钆喷增增强成像上无明显强化表现,病变明显延伸至左侧 T2/3 椎间孔,与关节突相连(图 1);胸椎 CT 平扫提示 T2 水平椎管扩张,T2 椎体左后缘、T2/3 左侧椎间孔及其关节突骨质吸收(图 2)。

术中先行 T1/2 双侧椎板切除术,暴露硬膜囊,然后向左打开左侧 T1/2 和 T2/3 椎间孔,于硬膜外初步探查未发现占位性病变,由于该占位性病变不排除有可能来自硬脊膜,加上硬膜外探查无果,所以考虑其可能位于硬脊膜内,于是在电生理监测及显微镜下剪开硬脊膜,探查脊髓四周,但仍未发现占位性病变,适当牵拉硬脊膜并仔细探查,

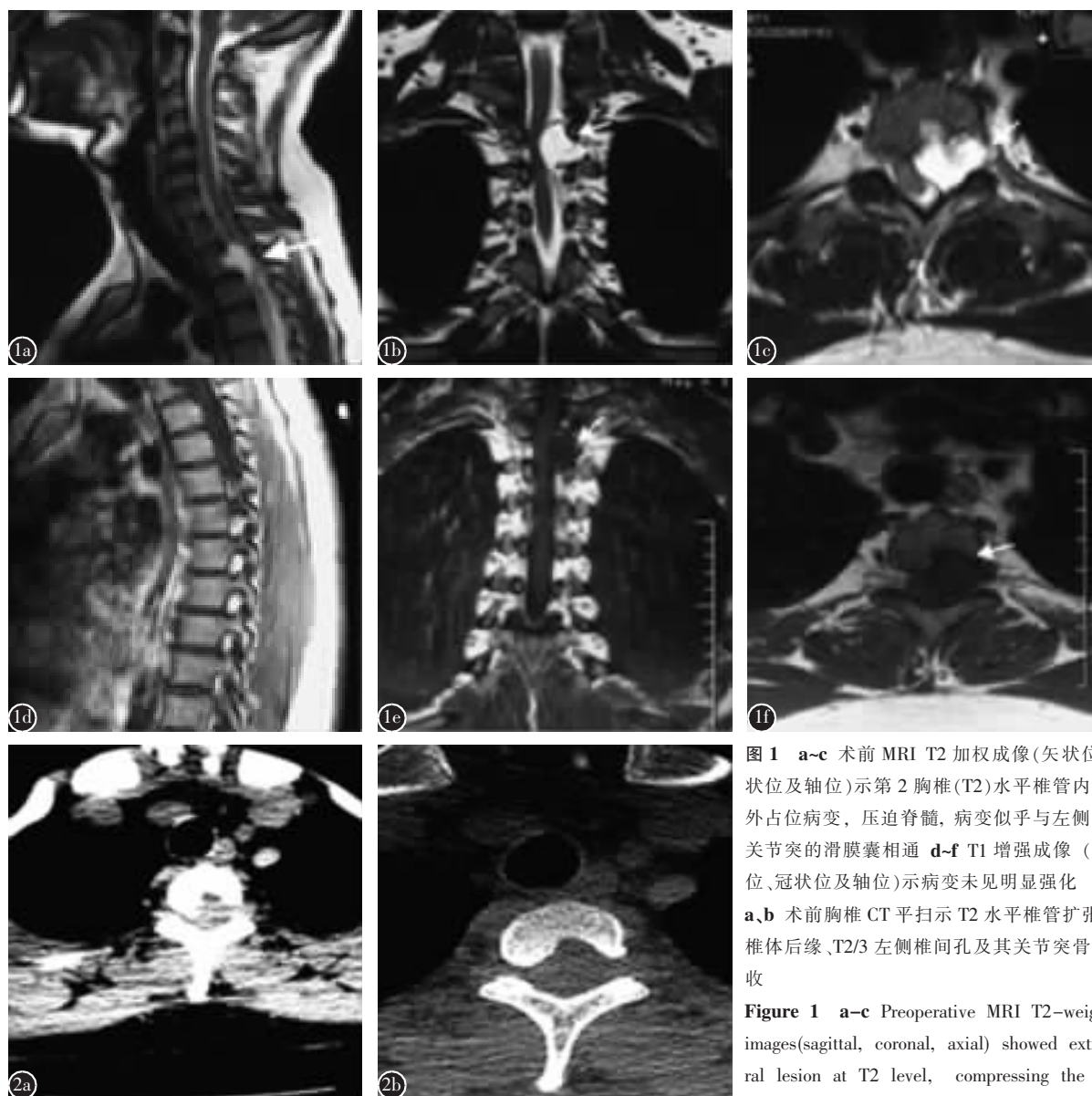


图 1 a~c 术前 MRI T2 加权成像(矢状位、冠状位及轴位)示第 2 胸椎(T2)水平椎管内硬膜外占位病变,压迫脊髓,病变似乎与左侧 T2/3 关节突的滑膜囊相通 d~f T1 增强成像(矢状位、冠状位及轴位)示病变未见明显强化 图 2 a、b 术前胸椎 CT 平扫示 T2 水平椎管扩张,T2 椎体后缘、T2/3 左侧椎间孔及其关节突骨质吸收

Figure 1 a~c Preoperative MRI T2-weighted images(sagittal, coronal, axial) showed extradural lesion at T2 level, compressing the dura and the spinal cord. The lesion seems to

communicate with the synovial compartment of the left T2/3 articular process d~f T1-enhanced images (sagittal, coronal, axial) showed no enhancement of the lesion Figure 2 a, b Preoperative computed tomography(CT) scan of thoracic vertebra showed the expansion of spinal canal at T2 level and the bone resorption of the posterior margin of the T2 vertebra, the left intervertebral foramen, and the facet joint of T2/3

最终在硬膜外 T2 胸椎体后缘偏左、硬膜囊腹侧深面找到该占位性病变。该占位性病变直径约 2cm,类圆形,囊性肿物,有完整包膜,边界清晰,与左侧 T2 神经根关系密切,并挤压神经根(图 3a)。先用穿刺针刺穿该囊肿,并抽吸出部分淡黄色胶冻样粘稠物质,再在显微镜下仔细分离并完整切除该占位性病变,并电烧周围粘连,可见 T2 椎体及左侧椎间孔骨质明显破坏(图 3b),彻底止血后严密缝合硬脊膜,还纳椎板,钛片固定,逐层缝合肌肉皮肤。术后组织病理学结果提示该占位性病变为脊柱滑膜囊肿,囊壁为无滑膜衬里的厚壁纤维,内容物主要为透明质酸和炎症细胞

(图 4)。

患者术后症状明显改善,术后除伤口疼痛外无其他特殊不适。术后 2 周复查胸椎 MRI,提示脊柱脊髓术后改变,占位性病变完全去除,周围软组织轻微水肿(图 5)。随访 3 个月,患者症状无复发,对治疗效果满意。

讨论 1950 年,有学者报道椎管内硬膜外神经节囊肿压迫神经根^[7],这可能是最早关于脊柱滑膜囊肿的文献报道。随着对脊柱滑膜囊肿认识的深入,1974 年,Kao 等^[8]提出了“关节突囊肿”(juxtafacet cyst,JFC)一词来描述椎管内滑膜囊肿,被广为接受。2007 年,Christophis 等对 53

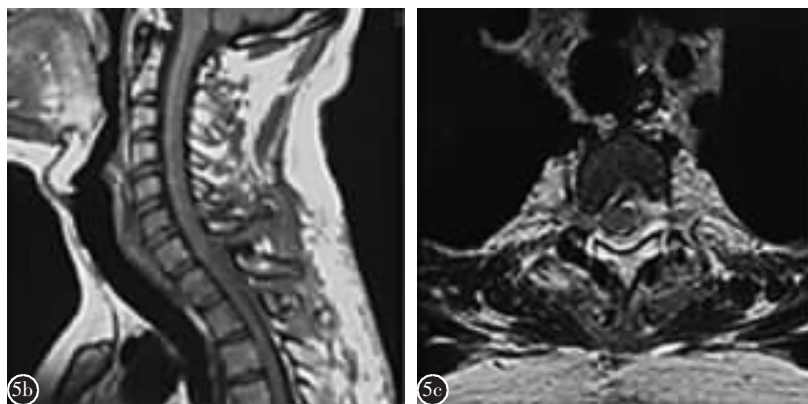
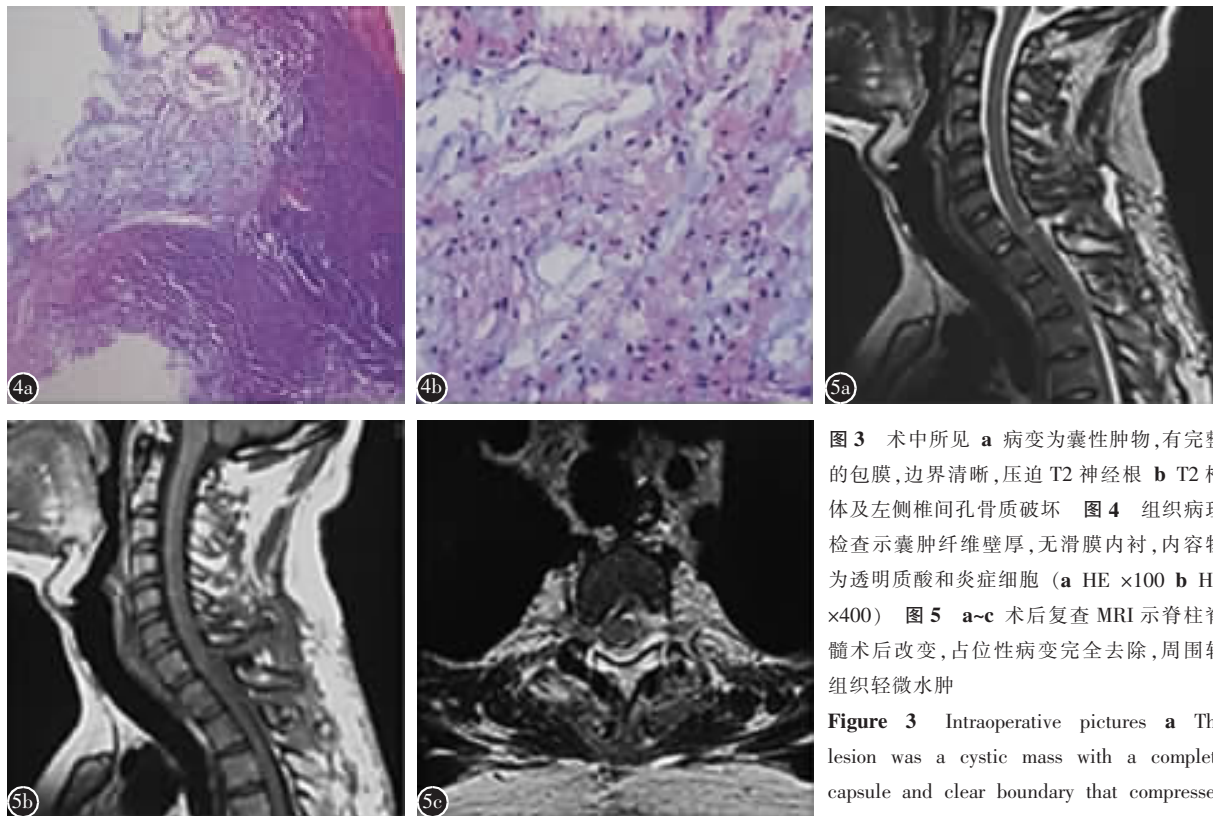
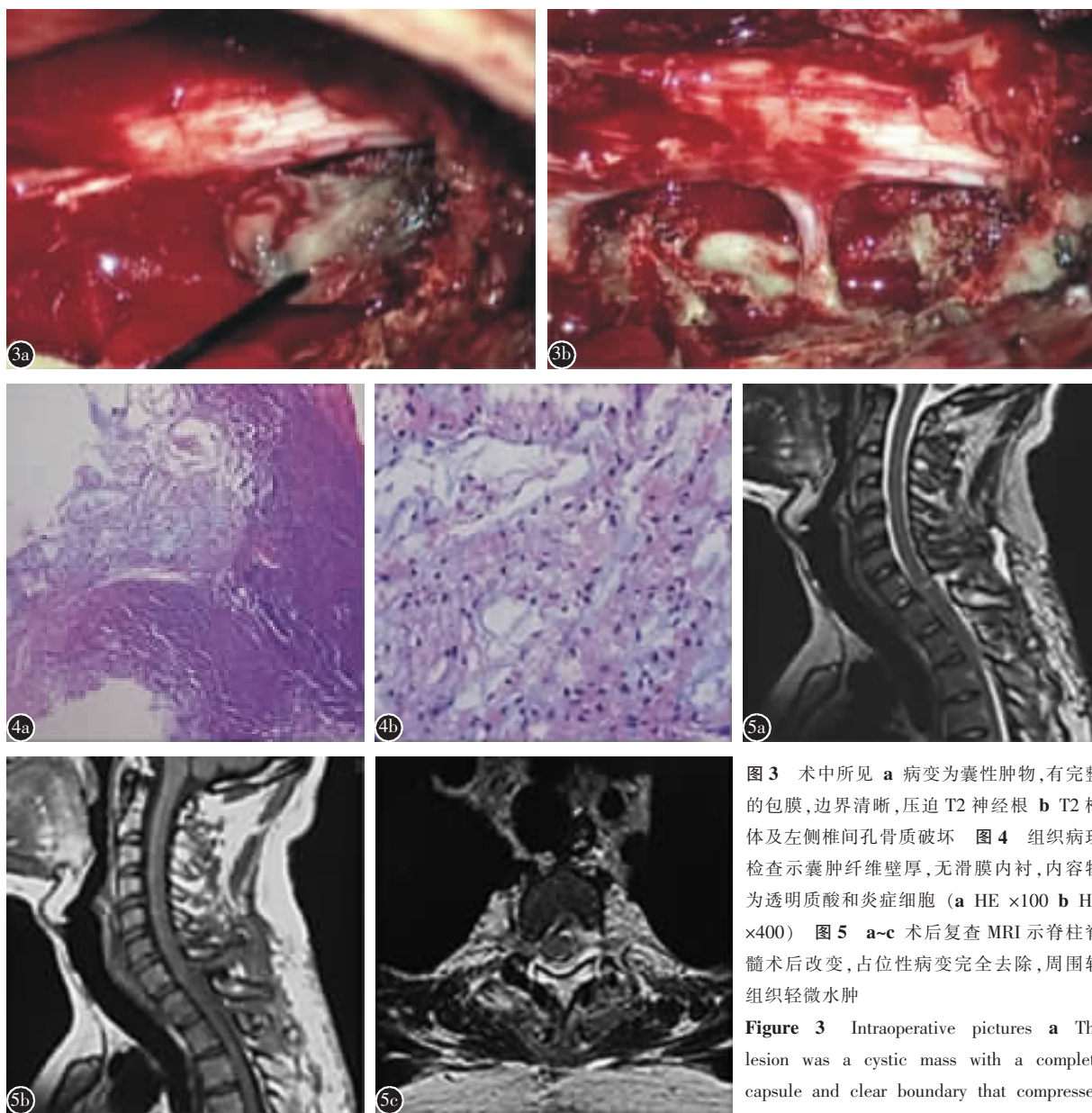


图 3 术中所见 a 病变为囊性肿物,有完整的包膜,边界清晰,压迫 T2 神经根 b T2 椎体及左侧椎间孔骨质破坏 图 4 组织病理检查示囊肿纤维壁厚,无滑膜内衬,内容物为透明质酸和炎症细胞 (a HE $\times 100$ b HE $\times 400$) 图 5 a~c 术后复查 MRI 示脊柱脊髓术后改变,占位性病变完全去除,周围软组织轻微水肿

Figure 3 Intraoperative pictures a The lesion was a cystic mass with a complete capsule and clear boundary that compressed the T2 nerve root b Bone destruction was

seen in the surrounding vertebral bodies and the intervertebral foramen **Figure 4** a, b Histopathological examination showed a thickened fibrous wall without synovial lining contains hyaluronan and inflammatory cells (a HE $\times 100$ b HE $\times 400$) **Figure 5** a~c Postoperative MRI showed postoperative changes in spinal cord, complete removal of occupying lesions, and slight edema of surrounding tissues

例椎管内滑膜囊肿进行了回顾性分析,并认为这些椎管内滑膜囊肿应该被称为“活动性脊柱形成的囊性结构(cystic formations of mobile spine,CYFMOS)”,而不是严格意义上的“关节突囊肿”,他们发现这些椎管内滑膜囊肿的病理类型除了有关节突囊肿,还有神经节囊肿、黄韧带囊肿、后纵韧带囊肿等^[9],但这个术语未被广泛认可。因此目前文献中存在很多术语来描述椎管内滑膜囊肿。

肋骨和胸骨与胸椎共同构成胸廓,增加了胸椎的稳定性,故与腰椎和颈椎相比,椎管内滑膜囊肿很少发生在胸椎管内^[6]。经文献报道,脊柱滑膜囊肿最常发生在腰椎,约占全部脊柱滑膜囊肿的 95%,颈椎约占 3%,而胸椎罕见,约占 1.5%^[10]。其中大多还是发生在颈胸段和胸腰段(脊柱的活动节段和固定节段的过渡区),单纯发生在胸椎管内的滑膜囊肿更罕见。一组来自梅奥诊所的数据显示,1976 年~2003 年在梅奥诊所接受脊柱减压手术的 16000 例患者中,只有 9 例是胸椎滑膜囊肿(0.06%),其中双侧 4 例,单侧 5 例,3 个位于 T10,7 个位于 T11,3 个位于 T12,平均发病年龄 73±5 岁^[11]。因上述数据中患者的发病年龄普遍偏高,故分析其病因则倾向是退行性病变而不是创伤。我们通过 PubMed 回顾英文文献,并排除了颈胸和胸腰交界处的椎管内滑膜囊肿,发现报告病例不到 50 例,且大部分为老年人,只有 1 例是年轻人(24 岁足球运动员外伤后检查发现 T7/8 胸椎滑膜囊肿),T2 椎管内滑膜囊肿的病例报告仅数例^[4,6,10,12,13]。而在中国知网和万方数据库未搜到有关的报道。脊柱滑膜囊肿为位于脊柱关节突内侧突入椎管的硬膜外组织块,大多起源于脊柱关节突滑膜囊,少数来自黄韧带(LF)或椎管内其他韧带^[1-3,14]。滑膜囊肿形成的大致病理过程如下:各种原因导致关节突关节退变或细微不稳定,使小关节滑膜囊受损,受损的滑膜囊发生粘液样变性,胶原结缔组织增生,透明质酸产生增多,间充质细胞的非特异性增殖等病理改变,使得囊壁变得薄弱,囊中内容物增多,向外膨出形成囊肿^[4,10,13]。其分子机制可能是机械压力的改变使得血管生成素-1、白细胞介素-1、6、血小板源性生长因子、碱性成纤维细胞生长因子、血管内皮生长因子和 P 物质等表达上调和释放增多,促使滑膜增生、新生血管和液体分泌增多,而发生上述病理过程,最终导致囊肿的形成^[15-17]。脊椎退行性改变、关节滑脱、类风湿关节炎、创伤和发育不良等都能使脊柱关节突关节不稳定,因而成为脊柱滑膜囊肿的潜在病因^[10,13,16-19]。本例患者没有退行性改变,也没有外伤史,但囊肿周围存在骨质破坏的现象。因此,我们推测该患者囊肿形成可能与慢性炎症或先天性发育不良导致的关节突关节不稳定有关。

根据解剖关系和病理表现不同,椎管内滑膜囊肿最早被分为滑膜囊肿(即关节突囊肿)和神经节囊肿两大类。滑膜囊肿与关节囊相连,壁为疏松的粘液样结缔组织或纤维胶原组织,有滑膜内衬;而神经节囊肿与关节囊不相连,无滑膜衬里,可能是由发育停滞、结缔组织粘液样变性及纤维母细胞分泌增加形成,也可能由滑膜囊肿与关节囊失

去连接演化而来,还可能起源于黄韧带或后纵韧带^[3,19]。后来也有人将滑膜囊肿分为三种类型:滑膜囊肿、神经节囊肿和黄韧带囊肿^[10]。最近 Ivan 等的研究将滑膜囊肿系统归纳为三类:有滑膜衬里的囊肿(真正的滑膜囊肿);由退化的 LF 形成的假性囊肿;既无滑膜衬里,又与 LF 无关的假性囊肿^[20]。病理研究表明,脊柱滑膜囊肿内可含有各种各样的内容物,如出血、钙化、气体及黏液物质等^[1,2,16,18,20,21]。我们通过结合患者影像学资料、术中见囊肿与神经根关系密切以及病理结果提示囊肿无滑膜内衬,综合考虑本例患者囊肿为神经节囊肿的可能性大。

脊柱滑膜囊肿的临床表现有病变节段的背部疼痛,压迫神经根以及脊髓引起的症状和体征,如神经根性痛、神经源性跛行等,巨大的囊肿可能会引起对侧症状,有的囊肿还可引起夜间疼痛和卧位疼痛(可能是牵拉脊神经根引起的)^[1,10,14,17]。MRI 是诊断滑膜囊肿的首选影像学检查,能清楚显示位于椎管内与关节突内侧相连的硬膜外囊性病变,通常在 T1 像上为低信号,T2 像上为高信号,增强扫描无明显强化^[1,11,13,18]。需要注意的是,滑膜囊肿在 MRI 上的信号可因其内容物成分不同而表现不一,如囊内出血可在 T1 像上出现高信号,囊内钙化则可在 T2 像上出现低信号,囊内含气体会显示信号空洞,MRI 增强对诊断本病价值不大,但可以除外其他疾病,如肿瘤或脓肿;CT 有助于发现囊内的钙化和气体^[1,17,18]。鉴别诊断包括椎间盘突出、脑膜瘤、神经鞘瘤、神经纤维瘤、蛛网膜囊肿、Tarlov 囊肿、皮样囊肿和转移性肿瘤^[13,16,18,19]。本例患者囊肿在 MRI 上表现出类似脑脊液信号,可能与内容物含水分多有关,囊肿偏向一侧,占据部分椎管,脊髓被挤向一侧,但由于周围骨质破坏,椎管扩张,空间增多,脊髓受压不严重,所以患者仅表现为神经痛的症状,而无脊髓受压症状。

脊柱滑膜囊肿的治疗因患者症状、囊肿位置和大小而异。无明显症状或症状轻微者,可予以观察。有文献报道,在机械压力减轻后,囊肿会自发减小,神经根性症状也会自发缓解,这可能与囊肿壁的自发塌陷或炎症的消除有关^[2,16,17]。发病初期有明显症状但不愿意手术或存在手术禁忌者,可行保守治疗。保守治疗也是脊柱滑膜囊肿常见的治疗方法,主要包括应用止痛药、活动节段的支具固定,关节突类固醇注射和 CT 引导下细针穿刺抽吸等,这些非手术保守治疗通常可以在一定程度上改善患者症状,其机制可能是炎症的级联反应被中断或囊肿体积被缩减,然而保守治疗作用短暂,不能根治,容易复发^[12,13,16,17,19]。当患者保守治疗效果差,症状进一步恶化,如疼痛加重、出现神经功能缺损或脊髓病,则需要手术治疗。手术治疗包括半椎板切除术或全椎板切除术并完全切除滑膜囊肿,包括或不包括关节突切除术,如果切除囊肿不影响脊柱稳定性,则可以仅行脊柱减压手术,如果脊柱小关节受到侵犯或由于退行性改变导致脊柱明显不稳定,则需要考虑行内固定融合手术,相比保守治疗,手术治疗可以将复发率降到最低,最终实现治愈,是这类囊肿最有效的治疗方法^[2,6,10,12,13,17]。手

术常见的并发症主要包括切口感染、硬膜外出血和神经损伤等^[16]。现有文献的报道中接受了手术治疗的患者通常临床预后良好,很少有囊肿复发的情况^[10,17,19]。本例患者年轻,脊柱稳定性可,我们予以实施双侧椎板切开、囊肿切除、椎板复位内固定术。术后随访 3 个月,患者无囊肿复发,无脊柱不稳症状,未出现明显的术后并发症。

参考文献

1. Longhofer LK, Moskowitz A. Thoracic extradural intraspinal synovial cyst causing progressive myelopathy: a case report[J]. JBJS Case Connect, 2014, 4(1 Suppl 6): e24.
2. Tompkins A, Chandran A, Lind C, et al. Sudden onset of paraparesis caused by a hemorrhagic thoracic synovial cyst[J]. World Neurosurg, 2019, 132: 326–328.
3. Stoodley MA, Jones NR, Scott G. Cervical and thoracic juxtafacet cysts causing neurologic deficits[J]. Spine(Phila Pa 1976), 2000, 25(8): 970–973.
4. Lynn B, Watkins RG, Watkins RI, et al. Acute traumatic myelopathy secondary to a thoracic cyst in a professional football player [J]. Spine (Phila Pa 1976), 2000, 25 (12): 1593–1595.
5. Daniela L, Jo OL, Rui P, et al. Atypical presentation of a cervical synovial cyst [J]. Eur Spine J, 2017, 26 (9): 2267–2271.
6. Lambrechts MJ, Goldstein CL. Rapid neurologic deterioration due to an enlarging thoracic spine synovial cyst: a case report[J]. JBJS Case Connect, 2020, 10(2): e627.
7. Vosschulte K, Borger G. Anatomic and functional studies of intervertebral disk hernia[J]. Langenbecks Arch Klin Chir Ver Dtsch Z Chir, 1950, 265(3–4): 329–355.
8. Kao CC, Winkler SS, Turner JH. Synovial cyst of spinal facet: case report[J]. J Neurosurg, 1974, 41(3): 372–376.
9. Christophis P, Asamoto S, Kuchelmeister K, et al. "Juxtafacet cysts", a misleading name for cystic formations of mobile spine(CYFMOS)[J]. Eur Spine J, 2007, 16(9): 1499–1505.
10. Daentzer D, Studer D. Thoracic juxtafacet cyst (JFC) as a rare cause of myelopathy: an additional reference to support the instability theory [J]. Joint Bone Spine, 2010, 77 (2): 178–180.
11. Cohen-Gadol AA, White JB, Lynch JJ, et al. Synovial cysts of the thoracic spine [J]. J Neurosurg Spine, 2004, 1 (1): 52–57.
12. Sundskareth MM, Gaini S. Thoracic synovial cyst at the Th2–3 level causing myelopathy [J]. Case Rep Neurol Med, 2017, 2017: 6257294.
13. Giovannini S, Pinto H, Marino P, et al. Bilateral synovial cyst of the thoracic spine causing paraparesis [J]. Neurochirurgie, 2019, 65(2–3): 89–92.
14. Merkle M, Psaras T, Tatagiba M, et al. Synovial cyst of the thoracic spine causing myelopathy[J]. Spine(Phila Pa 1976), 2009, 34(5): E199–E201.
15. Colen CB, Rengachary S. Spontaneous resolution of a cervical synovial cyst: case illustration [J]. J Neurosurg Spine, 2006, 4(2): 186.
16. Oliveira HA, Jesus AC, Prado RC, et al. Synovial cyst of the thoracic spine: case report[J]. Arq Neuropsiquiatr, 2007, 65(3B): 838–840.
17. Janjua MB, Smith ML, Shenoy K, et al. Thoracic juxtafacet cyst (JFC): a cause of spinal myelopathy [J]. J Spine Surg, 2017, 3(2): 294–299.
18. Pratesi A, Ginestroni A, Padovani R, et al. Neurological picture: an unusual cause of cord compression: synovial cyst of the thoracic spine[J]. J Neurol Neurosurg Psychiatry, 2008, 79(8): 947.
19. Graham E, Lenke LG, Hannallah D, et al. Myelopathy induced by a thoracic intraspinal synovial cyst: case report and review of the literature[J]. Spine(Phila Pa 1976), 2001, 26(17): E392–E394.
20. Ivan C, Connie YC, Joseph HS, et al. Histopathology of synovial cysts of the spine[J]. Histopathology, 2018, 72(6): 923–929.
21. Sobowale O, Soh C, Herwadkar A, et al. Haemorrhagic synovial cyst presenting as thoracic cord compression: a case report and review of the literature[J]. Br J Neurosurg, 2012, 26(1): 120–122.

(收稿日期:2021-07-25 末次修回日期:2021-11-24)

(本文编辑 李伟霞)