

原发性 SRCC 时, 首先应排除转移性 SRCC。最终确诊仍需依靠术后标本的病理诊断。

[参考文献]

- [1] He CL, Chen P, Xia BL, et al. Breast metastasis of gastric signet-ring cell carcinoma: a case report and literature review[J]. World J Surg Oncol, 2015, 13: 120.
- [2] Wang S, Zhang Y, Yin F, et al. Prognostic analysis of primary breast signet ring cell carcinoma and mucinous breast adenocarcinoma: A SEER population-based study [J]. Front Oncol, 2021, 11: 783631.
- [3] 周峰, 张丽娜, 齐立强, 等. 13 例伴印戒细胞分化的原发性乳腺癌临床分析[J]. 中国肿瘤临床, 2013, 40(11): 661-663; 667.
- [4] 冯涛, 朱洪芳, 郭崇勇. 超声检查阴性的乳腺原发性印戒细胞癌 1 例[J]. 山东大学学报(医学版), 2017, 55(7): 130-132.
- [5] Ma Y, Liu W, Li J, et al. Gastric cancer with breast metastasis: Clinical features and prognostic factors [J]. Oncol Lett, 2018, 16(5): 5565-5574.
- [6] Kashiwagi S, Onoda N, Asano Y, et al. Clinical significance of the sub-classification of 71 cases mucinous breast carcinoma[J]. Springerplus, 2013, 2: 481.
- [7] 桑田, 康燕飞, 曹玉文, 等. 乳腺粘液癌超声特征及免疫组化指标 [J]. 分子影像学杂志, 2021, 44(5): 749-753.
- [8] 金高培, 李瑞永. 伴印戒细胞分化的乳腺癌一例[J]. 中国临床新医学, 2022, 15(12): 1180-1181.
- [9] Wu X, Zhang Z, Li X, et al. Poorer prognosis of primary signet-ring cell carcinoma of the breast compared with mucinous carcinoma[J]. PLoS One, 2016, 11(9): e0162088.

耻骨罗道病 1 例

Rosai-Dorfman disease in the pubis: report of one case

罗素金, 魏新华, 马 樱(广州市第一人民医院放射科, 广东 广州 510623)

LUO Su-jin, WEI Xin-hua, MA Ying

(Department of Radiology, Guangzhou First People's Hospital, Guangzhou 510623, China)

[关键词] 耻骨; 淋巴组织增殖性疾病; 体层摄影术, X 线计算机

[中图分类号] R681.6; R814.42

[文献标识码] B

[文章编号] 1008-1062(2024)02-0147-02

DOI:10.12117/jccmi.2024.02.019

病例 男, 30 岁, 无明显诱因出现右髋部疼痛、双下肢肌肉酸痛不适 10 余天, 影响夜间睡眠。查体: 右髋压痛并部分活动受限, 局部皮温未见异常, 软组织未见明确肿胀。CT 检查: 右侧耻骨上支骨质呈膨胀性骨质破坏, 病变范围广泛, 累及右髋臼前缘、右耻骨下支及耻骨体, 病灶内及边缘见散在小斑片状骨性密度影, 并局部见软组织肿块形成, 平扫 CT 值约 49 HU, 增强扫描病灶呈明显均匀强化, 增强 CT 值约 87 HU (图 1a~1d)。MRI 检查: 右侧耻骨见多发骨质破坏, 呈膨胀性改变, 范围广泛, 病灶主体位于右侧耻骨上支, 亦累及右髋臼前缘、右耻骨下支及耻骨体, 相应骨皮质信号中断, 并可见软组织肿块形成, T₁WI 呈等信号 (图 2a), T₂WI 呈稍高信号 (图 2b), 增强扫描病灶明显强化, 邻近肌群受累, 以闭孔内、外侧肌为著, 增强扫描可见类似明显强化 (图 2c, 2d)。术后病理: (耻骨肿物) 镜下见骨髓腔内数量丰富的巨大组织细胞聚集, 混杂有浆细胞、淋巴细胞、中性粒细胞和泡沫样组织细胞, 嗜酸性粒细胞少见; 巨大组织细胞核呈圆形、卵圆形或肾形, 个别巨大组织细胞可见吞噬现象; 免疫组化结果: 巨大组织细胞 S-100(3+), CD1a 个别(+), CD5 少量(+), CK(-), CD30(-), CD20(-), CD79a(-), CD3(-), ALK(-), PAX-5(-), Ki-67(阳性率 5%); 原位杂交: EBER(-); 病理诊断: Rosai-Dorfman 病 (图 3a, 3b)。

讨论 罗道病 (Rosai-Dorfman disease, RDD) 又称窦组织细胞增生伴巨淋巴结病 (Sinus histiocytosis with massive

lymphadenopathy, SHML), 1969 年 Rosai 和 Dorfman 首次对其做了详细描述, 指出其是一种罕见的、病因不明的、以组织细胞增生为特征的良性淋巴组织增生性疾病^[1]。RDD 的确切病因和发病机制虽不明确, 但有报道称其可能与人类免疫缺陷、疱疹病毒、病原体感染 (EB 病毒) 等相关^[2]。RDD 可发生于各年龄段, 但以儿童和青少年为好发人群, 与性别的关系尚不明确^[3]。RDD 可累及单个系统器官, 亦可同时累及多个系统器官, 目前在体表皮肤、神经系统、消化系统及呼吸系统等均有报道^[4-6]。而孤立性结外骨骼病变极为少见, 骨骼系统 RDD 最常见于长骨, 包括股骨、胫骨、肱骨、锁骨^[7]。本病例中耻骨罗道病也尤为罕见, 虽然到目前为止, 影像学表现仍旧不作为确诊依据, 但 CT 及 MRI 检查仍旧是对疾病诊断的重要依据。CT 检查对于骨破坏区的死骨、骨质增生、瘤骨、钙化、软组织病变等有较好的分辨力; 骨骼系统 RDD CT 可见不连续的斑片状钙化影, 增强后病变呈明显强化。而 MRI 对于软组织病变更为敏感, 能早期发现骨破坏、骨挫伤等病变; 骨骼系统的 RDD MRI 常表现为等 T₁WI 长 T₂WI 信号^[3,8], 呈溶骨性骨质破坏改变, 增强扫描时肿瘤因含丰富血管而明显强化, 而本例患者右侧耻骨多发病灶在 T₁WI 呈等信号, T₂WI 呈稍高信, 增强扫描病灶明显强化, 经病理证实为 RDD, 符合以往文献报道。由于骨骼系统 RDD 临床症状及影像学表现具有多样性, 常误诊为肿瘤或其他炎症性病变, 确诊主要依靠病理检查中的细胞形态学及免疫组织化学检查。鉴别诊断: ①

[收稿日期] 2023-06-07; [修回日期] 2023-08-08

[作者简介] 罗素金 (1987-), 女, 广东广州人, 主治医师。E-mail: 870303057@qq.com

[通信作者] 魏新华, 广州市第一人民医院放射科, 510623。E-mail: eyxinhuawei@163.com

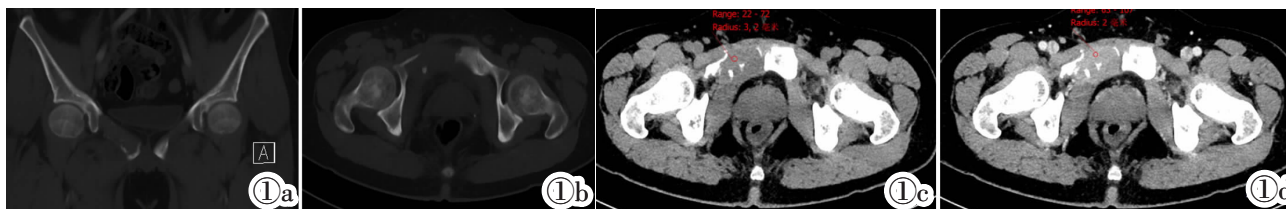


图 1a,1b 骨盆 CT 扫描骨窗,可见右侧耻骨上支膨胀性骨质破坏。图 1c 骨盆 CT 平扫软组织窗,可见软组织肿块形成。图 1d 骨盆 CT 增强扫描软组织窗,可见增强扫描病灶呈明显均匀强化。

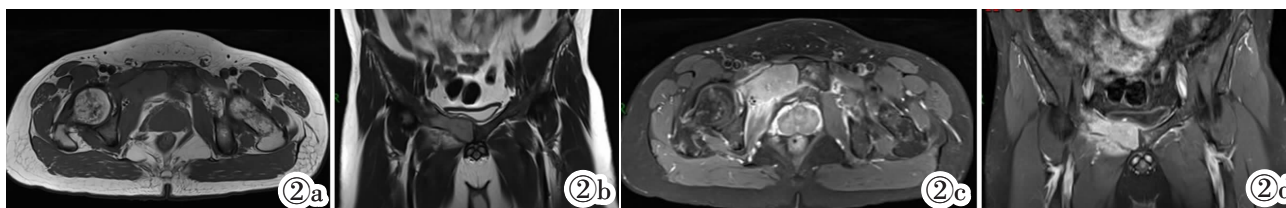


图 2a 骨盆 T₁WI 轴位,右侧耻骨上支骨质呈膨胀性骨质破坏,相应骨皮质信号中断,T₁WI 呈等信号。图 2b 骨盆 T₂WI 冠状位,T₂WI 呈稍高信号。图 2c,2d 骨盆轴位增强(图 2c),冠状位增强(图 2d)。增强扫描明显强化,邻近肌肉受累,增强扫描可见类似强化,以闭孔内、外侧肌为著。

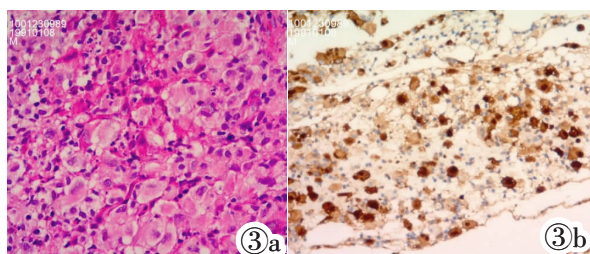


图 3 术后病理:(耻骨肿物)镜下见骨髓腔内数量丰富的巨大组织细胞聚集,混杂有浆细胞、淋巴细胞、中性粒细胞和泡沫样组织细胞,嗜酸性粒细胞少见(图 3a,HE);巨大组织细胞 S-100(3+),可见细胞的胞质及胞核染色阳性(图 3b,免疫组化染色)。

骨嗜酸性肉芽肿,RDD 影像学表现与骨嗜酸性肉芽肿极其相似,两者难以鉴别及诊断。骨嗜酸性肉芽肿全身骨骼均可受累,好发于造血功能旺盛的骨髓,其特征性表现为“小钻孔样骨质破坏”,可作为与 RDD 的鉴别点,可伴软组织肿块形成;MRI 检查可出现“袖套征”,表现为皮质旁肿块薄层均匀强化。②骨纤维异常增殖症,亦好发于青少年,以 11~20 岁为发病高峰,影像表现主要根据纤维组织增生程度及骨样组织含量不同而表现不同,主要表现为囊状膨胀性骨质破坏、磨玻璃样改变、丝瓜瓤样骨皮质变薄及虫噬样骨质破坏改变;MRI 上表现多呈等 T₁WI、等 T₂WI,增强扫描强化程度相对于 RDD 不均匀,呈不均匀强化。③骨结核:是以骨质破坏为主的慢性特异性感染,多发生于儿童和青年,相对于 RDD,其好发与股骨上端,并其特征性表现为常横跨髓线生长^[9],可与 RDD 鉴别。④软骨肉瘤:相对于 RDD 而言,软骨肉瘤有其好发部位及较典型的影像表现,其多见于股骨远端、胫骨近端及肱骨近端,影像表现多为浸润性骨质破坏,呈分叶状,边界不清,无硬化边,病灶内可出现细小钙化^[10]。

综上所述,孤立性结外骨骼系统 RDD 是属于罕见性的疾病,尤其是发生在耻骨。骨骼系统罗道病的临床表现及影像学检查均无特征性表现,单凭影像学检查确诊存在困难,最终确诊须依靠病理组织学检查。而组织细胞吞噬现象或淋巴细胞“伸入运动”的病理特征及 S-100(+)、CD68(+)、CD1a(-)的免疫组化结果是 RDD 患者病理确诊的依据^[11-12],手术切除是 RDD 治疗的主要方法且切除后预后较好^[12]。

【参考文献】

[1]Rosai J, Dorfman RF. Sinus histiocytosis with massive lymphadenopathy. A newly recognized benign clinicopathological ent-

ty[J]. Arch Pathol, 1969, 87(1): 63-70.
 [2]Dahrouj M, Jakobiec FA, Wolkow N, et al. Atypical case of Rosai-Dorfman disease of the lacrimal gland with adjacent bone erosion[J]. Ocul Oncol Pathol, 2019, 5(2): 128-134.
 [3]徐志峰,潘爱珍,李勤详. Rosai-Dorfman 病的临床及影像表现[J]. 中华放射学杂志,2018,52(12):936-940.
 [4]Yoshida M, Zoshima T, Hara S, et al. Case report: Rosai-Dorfman disease with rare extranodal lesions in the pelvis, liver and skin[J]. Front Oncol, 2022, 12(5): 1083500.
 [5]Pattnaik N, Parmar R, Nayak B, et al. Meningeal Rosai-Dorfman disease presenting as an intracranial mass-report of a case with review of the literature [J]. Int J Surg Pathol, 2022, 6 (8): 253-260.
 [6]Oramas DM, Moran CA. Primary Rosai-Dorfman disease of the thymus and lung: A clinicopathological and immunohistochemical study of three cases[J]. Pathol Res Pract, 2022, 234(7): 128-134.
 [7]Demicco EG, Rosenberg AE, Bjornsson J, et al. Primary Rosai-Dorfman disease of bone: a clinicopathologic study of 15 cases[J]. Am J Surg Pathol, 2010, 34(9): 1324-1333.
 [8]Li H, Li D, Xia J, et al. Radiological features of Rosai-Dorfman disease: case series and review of the literature [J]. Clin Radiol, 2022, 77(11): e799-e805.
 [9]张源,陈海松,冯卫华,等. 四肢骨影像学类死骨征象的临床意义分析[J]. 中国临床医学影像杂志,2018,29(12):884-888.
 [10]张立华,袁慧书. 脊柱软骨肉瘤的影像表现及少见表现探讨[J]. 中国临床医学影像杂志,2020,31(4):288-292.
 [11]Abraham ZS, Francis Z, Ngaiza AI, et al. Histo-cytopathological diagnosis of Rosai-Dorfman disease: Case report [J]. Clin Case Rep, 2022, 10(2): e05412-e05417.
 [12]Dalia S, Sagatys E, Sokol L, et al. Rosai-Dorfman disease: tumor biology, clinical features, pathology, and treatment[J]. Cancer Control, 2014, 21(4): 322-327.