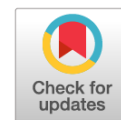


DOI: <https://doi.org/10.17816/DD59690>

2例证实的孤立性嗜酸性肉芽肿 CT、MRI和18F-FDG PET/CT成像

© Pavel B. Gelezhe^{1,2}, Dmitriy V. Bulanov^{2,3}¹ Moscow Center for Diagnostics and Telemedicine, Moscow, Russian Federation² Joint-Stock Company "European Medical Center", Moscow, Russian Federation³ The Russian National Research Medical University named after N.I. Pirogov, Moscow, Russian Federation

简评:

本文介绍计算机诊断嗜酸性骨肉芽肿、磁共振和18F氟脱氧葡萄糖正电子发射断层扫描以及计算机断层扫描的两个临床观察。根据综合的放射学诊断研究和组织学证实,确诊为孤立性嗜酸性肉芽肿,两例患者都因怀疑原发性恶性骨肿瘤而入院。孤立性嗜酸性肉芽肿是一种相当罕见的疾病(不到1%的骨骼肿瘤体积形成病例)。最常见的是,嗜酸性肉芽肿见于头骨的顶骨和额骨,是一种溶骨体积的形成,逐渐增大。虽然大多数骨肿瘤可以通过X线摄影发现,计算机体层摄影术是首选,主要是因为它能很好地显示骨皮质层的破坏情况。计算机断层扫描和磁共振成像的诊断准确性可能不同。辐射和放射性核素诊断方法的复杂应用使能够缩小鉴别诊断的范围。在大多数病例中,现有的放射学诊断研究的特异性较低,不能做出准确的诊断,选择的方法仍然是活检后进行病理形态学检查。这些临床观察表明,当发现孤立的溶骨性病灶时,鉴别诊断需要包括嗜酸性肉芽肿。

关键词: 嗜酸性肉芽肿; 溶骨性病灶; 计算机断层扫描; 磁共振成像; 正电子发射断层扫描; 临床病例。

引用本文:

Gelezhe PB, Bulanov DV. 2例证实的孤立性嗜酸性肉芽肿 CT、MRI和18F-FDG PET/CT成像. *Digital Diagnostics*. 2021;2(1):75–82.
DOI: <https://doi.org/10.17816/DD59690>

收到: 29.01.2021

接受: 02.03.2021

发布时间: 12.03.2021

DOI: <https://doi.org/10.17816/DD59690>

Diagnosis of solitary eosinophilic granuloma by CT, MRI, and 18F-FDG PET/CT: two clinical cases

© Pavel B. Gelezhe^{1, 2}, Dmitriy V. Bulanov^{2, 3}

¹ Moscow Center for Diagnostics and Telemedicine, Moscow, Russian Federation

² Joint-Stock Company "European Medical Center", Moscow, Russian Federation

³ The Russian National Research Medical University named after N.I. Pirogov, Moscow, Russian Federation

ABSTRACT

This paper presents two clinical cases of eosinophilic granuloma of bone diagnosed by CT, MRI, and 18F-FDG PET/CT. In both cases the patients were admitted to the clinic with suspected primary malignant bone tumor and the diagnosis of a solitary eosinophilic granuloma was made based on the results of comprehensive radiological diagnostic examination and histological verification. Solitary eosinophilic granuloma of bone is an infrequent condition, occurring in less than 1% of cases of skeletal tumor masses. The most common eosinophilic granuloma is found in the parietal and frontal bones of the skull and is an osteolytic volumetric mass that gradually increases in size. Although most bone tumors can be detected by radiography, computed tomography is preferred, primarily because of its superior ability to detect cortical bone destruction. The diagnostic accuracy of computed tomography and magnetic resonance imaging may be different. The combined use of radiological and radionuclide methods allows us to narrow the spectrum of differential diagnosis. Unfortunately, relatively low specificity of existing radiological diagnostic studies in most cases does not allow to establish a precise diagnosis, and biopsy with subsequent pathological examination remains the method of choice. These clinical observations demonstrate the need to include eosinophilic granuloma in the differential diagnosis when a solitary osteolytic focus is detected.

Keywords: eosinophilic granuloma; osteolytic focus; computed tomography; magnetic resonance imaging; positron emission tomography; case report.

To cite this article

Gelezhe PB, Bulanov DV. Diagnosis of solitary eosinophilic granuloma by CT, MRI, and 18F-FDG PET/CT: two clinical cases. *Digital Diagnostics*. 2021;2(1):75–82. DOI: <https://doi.org/10.17816/DD59690>

Received: 29.01.2021

Accepted: 02.03.2021

Published: 12.03.2021

DOI: <https://doi.org/10.17816/DD59690>

Два случая верифицированной солитарной эозинофильной гранулёмы: визуализация методами КТ, МРТ и 18F-ФДГ ПЭТ/КТ

© П.Б. Гележе^{1, 2}, Д.В. Буланов^{2, 3}

¹ Научно-практический клинический центр диагностики и телемедицинских технологий Департамента здравоохранения города Москвы, Москва, Российская Федерация

² Акционерное общество «Европейский Медицинский Центр», Москва, Российская Федерация

³ Российский национальный исследовательский медицинский университет имени Н.И. Пирогова, Москва, Российская Федерация

АННОТАЦИЯ

В работе представлены два клинических наблюдения эозинофильной гранулёмы кости, диагностированной методами компьютерной, магнитно-резонансной и позитронно-эмиссионной томографии с 18F-фтордезоксиглюкозой, совмещённой с компьютерной томографией. В обоих случаях пациенты поступили в клинику с подозрением на первичную злокачественную опухоль кости, по результатам комплексного лучевого диагностического исследования и гистологической верификации установлен диагноз солитарной эозинофильной гранулёмы. Солитарная эозинофильная гранулёма кости — достаточно редкое (менее 1% случаев всех опухолевых объёмных образований скелета) заболевание. Наиболее часто эозинофильная гранулёма обнаруживается в теменной и лобных костях черепа и представляет собой остеолитическое объёмное образование, постепенно увеличивающееся в размерах. Несмотря на то, что большую часть опухолей костной ткани можно выявить при помощи рентгенографии, предпочтительно применение компьютерной томографии, в первую очередь из-за её превосходной способности визуализировать структуры кортикального слоя кости. Диагностическая точность компьютерной и магнитно-резонансной томографии может быть различна. Комплексное применение методов лучевой и радионуклидной диагностики позволяет сузить спектр дифференциального диагноза. К сожалению, относительно низкая специфичность существующих лучевых диагностических исследований в большинстве случаев не позволяет установить точный диагноз, и методом выбора остаётся биопсия с последующим патоморфологическим исследованием. Данные клинические наблюдения показывают необходимость включения эозинофильной гранулёмы в дифференциальный диагноз при обнаружении солитарного остеолитического очага.

Ключевые слова: эозинофильная гранулёма; остеолитический очаг; компьютерная томография; магнитно-резонансная томография; позитронно-эмиссионная томография; клинический случай.

Как цитировать

Гележе П.Б., Буланов Д.В. Два случая верифицированной солитарной эозинофильной гранулёмы: визуализация методами КТ, МРТ и 18F-ФДГ ПЭТ/КТ // *Digital Diagnostics*. 2021. Т. 2, №1. С. 75–82. DOI: <https://doi.org/10.17816/DD59690>

论据

新发现的年轻患者的溶骨病灶不可避免地导致广泛的鉴别诊断,其中包括一系列不同的病理过程。在放射科医师和全科医生的肿瘤警戒的条件下,溶骨病灶经常明确地解释为恶性肿瘤的表现。良性和炎症过程也可引起溶骨病灶的出现。

本文提出两个临床观察的孤立性嗜酸性肉芽肿,一个罕见的病理过程,必须包括在鉴别孤立性溶骨病灶的鉴别系列。

病例描述

临床案例1

一名30岁的妇女,自2016年8月以来一直患病,当时左侧腰部疼痛,持续了一年。2017年8月,在一次剧烈疼痛后,她去了诊所。

采用磁共振成像(MRI)和计算机断层扫描(CT)检查骨盆。根据MRI数据,左侧髂骨上半部的臀表面形见小囊状病变,尺寸为 $2.2\times 1.4\times 2.0$ cm,背景为臀中肌水肿,垂直长度可达7 cm。左侧髂骨小梁水肿,长度为5.0 cm。根据CT数据,发现左髂翼上部的溶骨病灶,尺寸可达 $1.8\times 1.2\times 1.2$ cm,轮廓清晰不均匀,骨皮质层破坏,并有超出其范围的扩散迹象(图1)。

用 ^{18}F 氟脱氧葡萄糖正电子发射断层扫描(^{18}F -FDG)单模式进行正电子发射断层扫描(PET)。这确定了左髂骨翼放射性药物过度固定的单一病灶($\text{SUV}_{\text{max}}^1$ 13.1)(图2),这使得排除常见转移过程成为可能。

在CT对照下,对左髂骨翼部肿瘤进行 ^{18}G 穿刺活检(图3)。组织学结论(No. 2017-10802-01):形态免疫组化模式最接近于朗格汉斯细胞组织细胞增多症(嗜酸性细胞肉芽肿,组织细胞增多症X)(图4)。

临床案例2

一名12岁的男孩。据该名家长和该名儿童本人说,在足球训练期间,他用头击球,随后他注意到前额区域出现肿胀,在接下来的几天逐渐增加。在居住地综合诊所医生的建议下,进行了CT扫描。CT报告显示了一个直径约3.5厘米的溶骨

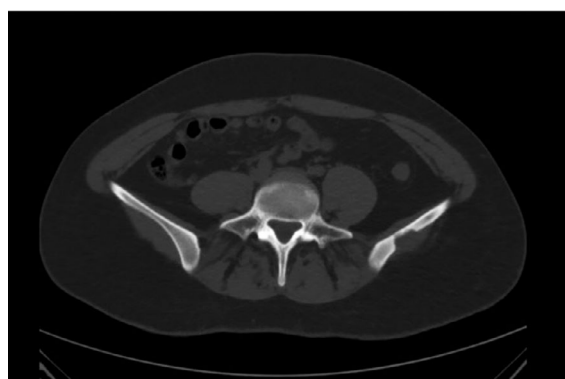


图 1CT扫描:左髂翼上部的溶骨病灶。

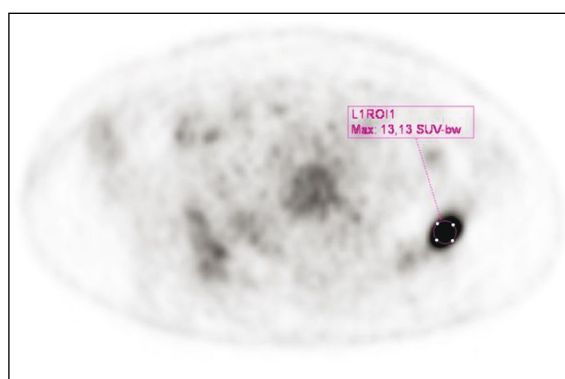


图 2 ^{18}F 氟脱氧葡萄糖正电子发射断层扫描(^{18}F -FDG)单模式的正电子发射断层扫描:高代谢的病灶在左髂骨翼的突出处。



图 3计算机断层扫描控制下的穿刺活检过程。

圆形缺陷,外部和内部皮质板破坏,存在软组织副骨形成。推荐MRI作为随访检查。

根据大脑的核磁共振成像,在额叶区域,可见皮下体积性肿瘤,右侧优先,T2-WI和T2-dark fluid模式MR信号不均匀增强,弥散受限,呈卵圆形,轮廓模糊不均匀, $47\times 17\times 35$ mm;额骨与额面处内侧肿瘤,内部和外部皮质板出现破坏,颅内软组织成分极小,受硬脑膜限制(图5)。

血液常规检查中,淋巴细胞增多49.5%,中性粒细胞减少39.3%,血小板增多491,红细胞沉降率29 mm/h, C反应蛋白增高10.65 mg/L。

¹ 标准摄取值(standardized uptake value, SUV)是放射性药物积累的标准水平。

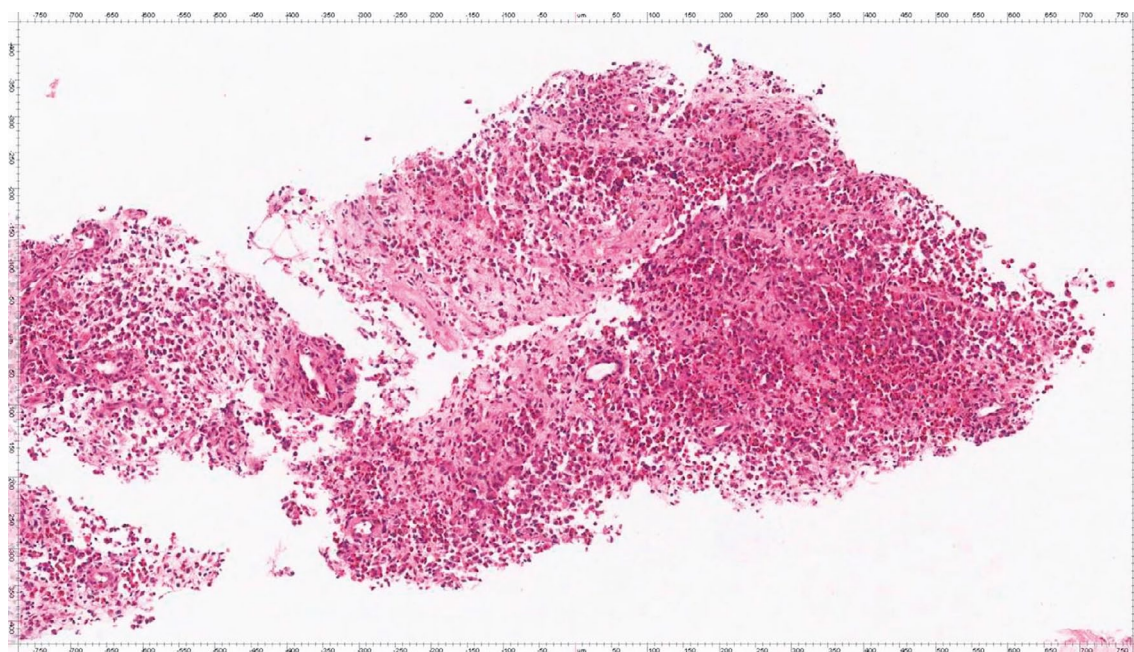


图 4组织检材: 纤维血管组织碎片, 多种粒细胞浸润的多形细胞, 包括丰富的嗜酸性粒细胞、浆细胞, 可见单个豆状核细胞。苏木素-伊红染 (hematoxylin-eosin staining, HE 染色)。×200

根据所进行的研究结果, 假定是额骨肿瘤病变。鉴别诊断为淋巴瘤、浆细胞瘤和肉瘤。进行了¹⁸F-FDG PET/CT寻找原发肿瘤部位。在额区沿中线, 发现一个大小为30×15 mm的卵形结构, 放射性药物显著积累 (SUV_{max}高达11.2), 额骨内外皮质板破坏 (图6)。对于其余的¹⁸F-FDG病

灶, 没有发现阳性的肿瘤过程, 这排除了广泛的转移过程。

为了进行组织学验证, 对额区皮下组织进行了切口活检。患者取仰卧位, 用粗针对额区形成进行经皮穿刺活检。用注射器抽吸未获得组织。沿毛发生长线1 cm进行了额叶软组织的横向线性切口。使用了Volkman原则和Reuss镊子对病理组织进行活检, 以灰色的软组织肿块表示。根据No. 2015-11688-01的组织学结论, 该变化更符合朗格汉斯细胞组织细胞增多症 (嗜酸性细胞肉芽肿)。

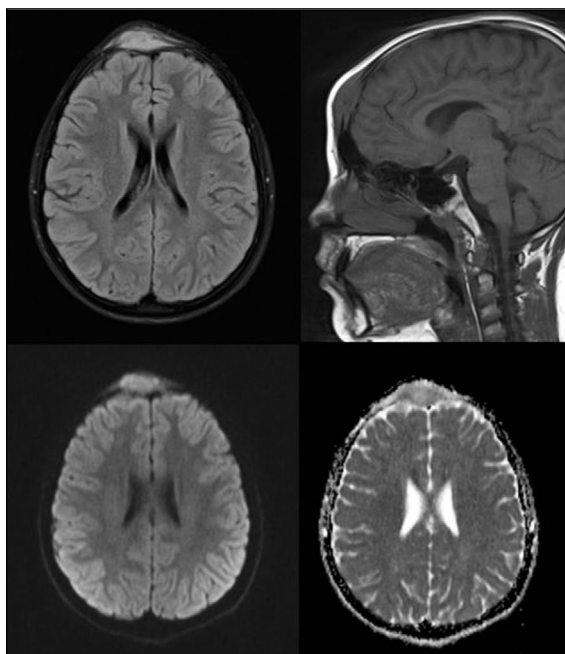


图5头部磁共振成像: 上一行从左至右: T2-TIRM, T1-WI; 下面一行从左到右: 扩散加权图像 (B因子800mm²/s), 测量的扩散系数。皮下定位体积形成T2-TIRM信号增强, T1-WI信号等强, 弥散受限。

讨论

孤立性嗜酸性肉芽肿是一种罕见的发现, 代表不到1%的肿瘤样骨病变。增生组织细胞 (朗格汉斯组织细胞) 的存在是组织细胞增多症X的组织学标志, 包括嗜酸性肉芽肿[1]。组织细胞有饱满的卵圆形核和嗜酸性的胞浆。朗格汉斯细胞含有典型的胞质细胞器, 称为伯璧克颗粒, 但其功能尚不清楚。肉芽肿也含有大量嗜酸性粒细胞和巨大的多核细胞。

在K.M. Herzog等人[2]的研究中, 嗜酸性肉芽肿最常见的部位是头骨 (43%), 其次是股骨。C. Arseni等人[3]指出, 在80%的嗜酸性肉芽肿患者中, 颅骨病变是孤立性的, 正如我们的第一次临

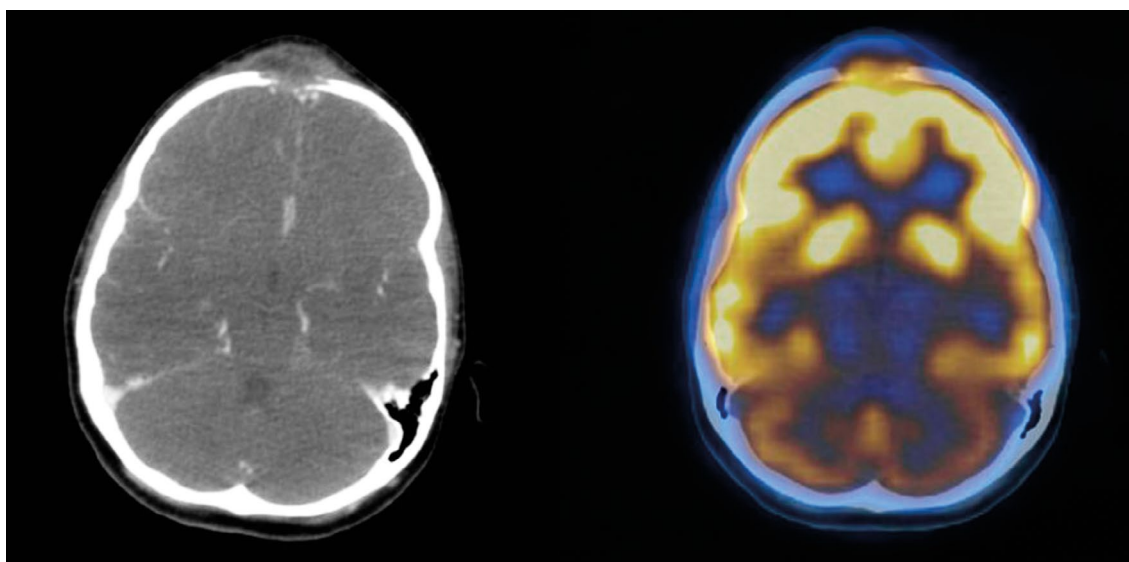


图 6 18F氟脱氧葡萄糖正电子发射断层扫描联合计算机断层摄影: 左图为静脉CT造影增强, 右图为正电子发射和计算机断层扫描的组合图: 高代谢病灶与额骨的外部 and 内部皮质板破坏。

床观察。

颅骨嗜酸性肉芽肿, 多见于顶骨和额骨, 通常表现为溶骨体积的形成, 大小逐渐增大。L. Ardekian等人[4]的研究中, 在25例共41个嗜酸性肉芽肿患者中, 最常见的症状(92%)是疼痛, 常伴有局部水肿。

虽然大多数骨灶可以通过X线片准确识别和鉴别, 但CT是首选的方法, 主要是因为CT能很好地检测骨皮质层的破坏。

放射学特征因病变部位而异。一般来说, 在颅骨中, 病灶直径为1—4cm, 显示出清晰的边界, 经常破坏外部和内部皮质板。同时, 病灶内可能存在死骨片。对于扁平骨的损坏, 骨膜反应、皮质层变薄和局部骨肿胀是典型的。多个病灶可以合并洞内洞征病例(hole within a hole)。在少数病例中, 有明显的骨组织破坏, 模拟恶性过程。

在颅弓破坏性的良恶性病变中, 与嗜酸性肉芽肿鉴别诊断最重要的是骨瘤(良性肿瘤), 浆细胞瘤、表皮样瘤、皮样囊肿、血管肿瘤、骨源性肉瘤(恶性肉瘤)、转移性疾病、脑膜瘤、感染和病理条件[5]。

嗜酸性肉芽肿的放射学表现与骨髓炎、尤文肉瘤、淋巴瘤。其他骨骼病变, 如神经母细胞瘤转移、骨内血管瘤和纤维变性不良, 也应考虑进行鉴别诊断。在成人, 嗜酸性肉芽肿可以模仿溶骨转移、多发性骨髓瘤和甲状旁腺功能亢进。

MRI数据最常见的表现为T1-WI信号弱表达弥漫

性减弱, T2-WI信号增强。病变周围的软组织也显示出水肿的迹象, 表现为STIR信号(反转恢复序列)的增加。与脑白质相比, 颅骨嗜酸性肉芽肿限制了弥散[6]。所描述的变化不是特异性的, 可发生在许多情况下, 包括骨髓炎、创伤性改变和缺血性坏死[7]。

文献数据显示18F-FDG PET扫描的敏感性超过90%, 而特异性仍然很低, 且差异很大—从65到80%[8, 9]。低级别肿瘤通常表现出低水平的18F-FDG固定, 是假阴性结果的主要原因。假阳性结果不仅可由急性炎症引起, 也可由一些良性疾病引起, 如纤维性发育不良和动脉瘤性骨囊肿[10]。

嗜酸性肉芽肿的治疗取决于疾病的进展程度。潜在的治疗方法包括手术、放疗和化疗, 包括单药和联合治疗。手术通常是指孤立性的病变, 适当的治疗可以导致完全消除病变。

尽管嗜酸性肉芽肿被认为是一种良性的疾病, 但在文献中有自发退行和手术切除后复发的报道[11, 12]。通常会有一系列的局部复发, 随访期较长, 这就是为什么建议进行至少10年的后续对照研究[11-13]。

结论

鉴别诊断单个溶骨性病变可能是困难的。CT、MRI和18F-FDG PET/CT放射诊断综合方

法的使用,使能够缩小可能的病理条件范围。同时,现有的放射学诊断研究在大多数病例中不允许准确的诊断,组织学验证仍然是首选的方法。当在年轻患者中发现孤立性嗜酸性肉芽肿时,应记住嗜酸性肉芽肿的可能性。

附加信息

资金来源。这篇文章的研究和发表是由作者团队的个人费用进行的。

利益冲突。作者声明,本文的发表没有明显和潜在的利益冲突。

作者的贡献。作者确认他们的作者身份符合国际ICMJE标准(在出版前阅读并批准了最终版本)。本文最大的贡献分布如下: P.B. Gelezhe—负责搜集资料,撰写文章; D.V. Bulanov—负责提供组织学研究资料。

患者知情同意书。患者和未成年患者的法定代表人签署了一份自愿知情的同意书,同意以非个人的形式公布医疗信息。

REFERENCES

1. Lam KY. Langerhans cell histiocytosis (histiocytosis X). *Postgrad Med J*. 1997;73(861):391–394. doi: 10.1136/pgmj.73.861.391
2. Herzog KM, Tubbs RR. Langerhans cell histiocytosis. *Adv Anat Pathol*. 1998;5(6):347–358. doi: 10.1097/00125480-199811000-00001
3. Arseni C, Dănilă L, Constantinescu A. Cranial eosinophilic granuloma. *Neurochirurgia (Stuttg)*. 1977;20(6):189–199. doi: 10.1055/s-0028-1090377
4. Ardekian L, Peled M, Rosen D, et al. Clinical and radiographic features of eosinophilic granuloma in the jaws: Review of 41 lesions treated by surgery and low-dose radiotherapy. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*. 1999;87(2):238–242. doi: 10.1016/s1079-2104(99)70279-9
5. Willatt JM, Quaghebeur G. Calvarial masses of infants and children. A radiological approach. *Clin Radiol*. 2004;59(6):474–486. doi: 10.1016/j.crad.2003.12.006
6. Ginat DT, Mangla R, Yeane G, et al. Diffusion-Weighted imaging for differentiating benign from malignant skull lesions and correlation with cell density. *Am J Roentgenol*. 2012;198(6):W597–W601. doi: 10.2214/AJR.11.7424
7. Davies AM, Pikoulas C, Griffith J. MRI of eosinophilic granuloma. *Eur J Radiol*. 1994;18(3):205–209. doi: 10.1016/0720-048x(94)90335-2
8. Dimitrakopoulou-Strauss A, Strauss LG, Heichel T, et al. The role of quantitative 18F-FDG PET studies for the differentiation of malignant and benign bone lesions. *J Nucl Med*. 2002;43(4):510–518.
9. Culverwell AD, Scarsbrook AF, Chowdhury FU. False-positive uptake on 2-[18F]-fluoro-2-deoxy-D-glucose (FDG) positron-emission tomography/computed tomography (PET/CT) in oncological imaging. *Clin Radiol*. 2011;66(4):366–382. doi: 10.1016/j.crad.2010.12.004
10. Schulte M, Brecht-Krauss D, Heymer B, et al. Grading of tumors and tumorlike lesions of bone: evaluation by FDG PET. *J Nucl Med*. 2000;41(10):1695–1701.
11. Martinez-Lage JF, Poza M, Cartagena J, et al. Solitary eosinophilic granuloma of the pediatric skull and spine — the role of surgery. *Childs Nerv Syst*. 1991;7(8):448–451. doi: 10.1007/BF00263187
12. Oliveira M, Steinbok P, Wu J, et al. Spontaneous resolution of calvarial eosinophilic granuloma in children. *Pediatr Neurosurg*. 2003;38(5):247–252. doi: 10.1159/000069828
13. Rawlings CE, Wilkins RH. Solitary eosinophilic granuloma of the skull. *Neurosurgery*. 1984;15(2):155–161. doi: 10.1227/00006123-198408000-00001

СПИСОК ЛИТЕРАТУРЫ

1. Lam K.Y. Langerhans cell histiocytosis (histiocytosis X) // *Postgrad Med J*. 1997. Vol. 73, N 861. P. 391–394. doi: 10.1136/pgmj.73.861.391
2. Herzog K.M., Tubbs R.R. Langerhans cell histiocytosis // *Adv Anat Pathol*. 1998. Vol. 5, N 6. P. 347–358. doi: 10.1097/00125480-199811000-00001
3. Arseni C., Dănilă L., Constantinescu A. Cranial eosinophilic granuloma // *Neurochirurgia (Stuttg)*. 1977. Vol. 20, N 6. P. 189–199. doi: 10.1055/s-0028-1090377
4. Ardekian L., Peled M., Rosen D., et al. Clinical and radiographic features of eosinophilic granuloma in the jaws: Review of 41 lesions treated by surgery and low-dose radiotherapy // *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol Endod*. 1999. Vol. 87, N 2. P. 238–242. doi: 10.1016/s1079-2104(99)70279-9
5. Willatt J.M., Quaghebeur G. Calvarial masses of infants and children. A radiological approach // *Clin Radiol*. 2004. Vol. 59, N 6. P. 474–486. doi: 10.1016/j.crad.2003.12.006
6. Ginat D.T., Mangla R., Yeane G., et al. Diffusion-Weighted imaging for differentiating benign from malignant skull lesions and correlation with cell density // *Am J Roentgenol*. 2012. Vol. 198, N 6. P. W597–W601. doi: 10.2214/AJR.11.7424
7. Davies A.M., Pikoulas C., Griffith J. MRI of eosinophilic granuloma // *Eur J Radiol*. 1994. Vol. 18, N 3. P. 205–209. doi: 10.1016/0720-048x(94)90335-2
8. Dimitrakopoulou-Strauss A., Strauss L.G., Heichel T., et al. The role of quantitative 18F-FDG PET studies for the differentiation of malignant and benign bone lesions // *J Nucl Med*. 2002. Vol. 43, N 4. P. 510–518.
9. Culverwell A.D., Scarsbrook A.F., Chowdhury F.U. False-positive uptake on 2-[18F]-fluoro-2-deoxy-D-glucose (FDG) positron-emission tomography/computed tomography (PET/CT) in oncological imaging // *Clin Radiol*. 2011. Vol. 66, N 4. P. 366–382. doi: 10.1016/j.crad.2010.12.004

10. Schulte M., Brecht-Krauss D., Heymer B., et al. Grading of tumors and tumorlike lesions of bone: evaluation by FDG PET // *J Nucl Med*. 2000. Vol. 41, N 10. P. 1695–1701.

11. Martinez-Lage J.F., Poza M., Cartagena J., et al. Solitary eosinophilic granuloma of the pediatric skull and spine — the role of surgery // *Childs Nerv Syst*. 1991. Vol. 7, N 8. P. 448–451. doi: 10.1007/BF00263187

12. Oliveira M., Steinbok P., Wu J., et al. Spontaneous resolution of calvarial eosinophilic granuloma in children // *Pediatr Neurosurg*. 2003. Vol. 38, N 5. P. 247–252. doi: 10.1159/000069828

13. Rawlings C.E., Wilkins R.H. Solitary eosinophilic granuloma of the skull // *Neurosurgery*. 1984. Vol. 15, N 2. P. 155–161. doi: 10.1227/00006123-198408000-00001

AUTHORS' INFO

* **Pavel B. Gelezhe**, MD;

address: 28-1, Srednyaya Kalitnikovskaya street, Moscow, 109029, Russia; tel.: +7 (495) 933-55-55;

ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-1072-2202>;

eLibrary SPIN: 4841-3234; e-mail: gelezhe.pavel@gmail.ru

Dmitry V. Bulanov, MD, Cand. Sci. (Med.);

ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-7968-6778>;

eLibrary SPIN: 4641-1505; e-mail: dbulanov@emcmos.ru

ОБ АВТОРАХ

* **Гележе Павел Борисович**;

адрес: Россия, 109029, Москва, ул. Средняя Калитниковская, д. 28, стр. 1; тел.: +7 (495) 933-55-55;

ORCID: <https://orcid.org/0000-0003-1072-2202>;

eLibrary SPIN: 4841-3234; e-mail: gelezhe.pavel@gmail.ru

Буланов Дмитрий Владимирович, к.м.н.;

ORCID: <https://orcid.org/0000-0001-7968-6778>;

eLibrary SPIN: 4641-1505; e-mail: dbulanov@emcmos.ru