

doi: 10.3969/j.issn.1674-1242.2024.02.005

脊椎骨内神经鞘瘤的 CT、MRI 表现 (附 11 例报道及文献复习)

刘玉¹, 王远军², 李开成¹

(1. 上海交通大学医学院附属第九人民医院放射科, 上海 200011;

2. 上海理工大学健康科学与工程学院, 上海 200093)

【摘要】目的 探讨脊椎骨内神经鞘瘤 (Intraosseous Schwannoma, IOS) 的特征性影像学表现, 以与其他脊椎溶骨性病变更区别开。**方法** 回顾性分析上海交通大学医学院附属第九人民医院经手术病理证实的脊椎 IOS 的临床资料及 CT、MRI 等影像学资料。该文收集了 11 例脊椎 IOS 患者, 其中男性 7 例, 女性 4 例, 年龄 23~74 岁 [平均年龄 (51±17) 岁]。所有患者均行 CT 和 MRI 检查。由两名高年资骨关节系统放射科医师对所有影像学征象进行评估, 并复习了近几年来文献报告的脊椎 IOS 影像学征象。**结果** 病变累及部位包括颈椎 3 例 (3/11, 27.3%), 胸椎 1 例 (1/11, 9.1%), 腰椎 5 例 (5/11, 45.5%), 骶椎 2 例 (2/11, 18.2%), 最大径 (5.8±2.85) cm, 形态均为不规则形。CT 显示偏心性膨胀性溶骨性骨质破坏, 密度不均匀, 平扫 CT 值为 (43.0±11.55) HU。增强后不均匀轻度强化, CT 值为 (70.3±12.22) HU, 病灶边界清晰, 有硬化缘, 未见骨膜反应, 病灶易沿着椎间孔向椎管内外延伸。在 MRI 上, 与肌肉组织相比, 病灶在 T1WI 上呈等稍低信号, 在 T2WI 上呈混杂稍高信号, 压脂后呈混杂高信号, DWI 未见弥散受限, ADC 值为 (1.25±0.176) × 10⁻³ mm²/s, 增强后不均匀明显强化, 时间-信号强度曲线为 I 型, 7 例患者病灶内发生囊性变。**结论** 脊椎 IOS 是一种罕见的良性肿瘤, 影像学表现具有一定的特征性, 在鉴别诊断边界清晰的具有异质性的脊椎溶骨性病变更时应予以考虑。

【关键词】 骨内神经鞘瘤; 脊椎; 计算机断层扫描; 核磁共振**【中图分类号】** R738.1; R445.2; R730.264; R814.42 **【文献标志码】** A **文章编号:** 1674-1242 (2024) 02-0136-06

Imaging Features of Intraosseous Schwannoma Involving the Spine: Eleven Case Series and Review of the Literature

LIU Yu¹, WANG Yuanjun², LI Kaicheng¹

(1. Department of Radiology, Shanghai Ninth People's Hospital, Shanghai Jiao Tong University School of Medicine, Shanghai 200011, China;

2. School of Health Science and Engineering, University of Shanghai for Science and Technology, Shanghai 200093, China)

收稿日期: 2024-01-06。

基金项目: 上海市“医苑新星”青年医学人才培养资助计划 (沪卫人事 (2021) 99 号), 上海理工大学医工交叉项目 (2022JK-CZ13Z, 2023JK-CZ26Z), 上海交通大学医学院附属第九人民医院 2023 年度院级教学项目 (JYJX03202305)。

作者简介: 刘玉 (1981—), 女, 博士研究生, 副主任医师, 从事骨关节系统及消化系统疾病的影像学诊断研究。

通讯作者: 李开成, 男, 主任医师, 电话 (Tel.): 18019790821, 邮箱 (E-mail): likaicheng128@163.com。

【Abstract】 Objective To explore the imaging features of intraosseous schwannoma (IOS) involving the spine in order to differentiate it from other spinal osteolytic lesions. **Methods** We retrospectively analyzed the clinical data, CT and MRI of IOS involving the spine confirmed by surgery and pathology in Shanghai Ninth People's Hospital, Shanghai Jiao Tong University School of Medicine. We collected 11 cases of IOS involving the spine, including 7 males and 4 females, aged 23-74 years [average age (51 ± 17) years]. All patients underwent CT and MRI examinations. Two senior bone and joint system radiologists evaluated the imaging features and reviewed literatures reported in recent years. **Results** The IOS involved 3 cases of cervical spine (3/11, 27.3%), 1 case of thoracic spine (1/11, 9.1%), 5 cases of lumbar spine (5/11, 45.5%), and 2 cases of lumbosacral spine (2/11, 18.2%), with a maximum diameter of (5.8 ± 2.85) cm and an irregular shape. CT showed eccentric expansive osteolytic bone destruction with uneven density. The average CT values on plain scan were (43.0 ± 11.55) HU. After enhancement, the lesions showed uneven mild enhancement, with an average CT value of (70.3 ± 12.22) HU. The boundaries of the lesions were clear, with sclerotic edges and no periosteal reaction. The lesions were prone to extend along the intervertebral foramen to the inside and outside of the vertebral canal. On MRI, compared with muscle tissue, the lesions showed equal low signal intensity on T1WI, mixed slightly high signal intensity on T2WI, mixed high signal intensity after fat suppression, and no diffusion limitation on DWI with the average ADC value of $1.25 \pm 0.176 \times 10^{-3} \text{mm}^2/\text{s}$. After enhancement, the lesions showed uneven and significant enhancement, with a time signal intensity curve (TIC) of type I and cystic changes occurring in 7 lesions. **Conclusion** IOS involving the spine is a rare benign tumor with certain characteristic imaging features, which should be considered in the differential diagnosis of heterogeneous spinal osteolytic lesions with clear boundaries.

【Key words】 Intraosseous Schwannoma(IOS); Spine; Computed Tomography(CT); Magnetic Resonance Imaging(MRI)

0 引言

骨内神经鞘瘤 (Intraosseous Schwannoma, IOS) 极为罕见, 占原发性骨肿瘤的比例不足 0.2%^[1]。IOS 主要发生在下颌骨、髌骨, 其次是上颌骨、脊椎、颞骨岩尖, 以及较不常见的四肢长骨^[2-4]。关于脊椎 IOS 的文献内容集中在病例报道上。鉴于脊椎 IOS 极低的患病率, 影像诊断上通常不将其包含在溶解性骨病变的鉴别考虑中, 其明确诊断主要依赖病理学检查。脊椎骨溶骨性病变的鉴别诊断通常包括骨巨细胞瘤、动脉瘤样骨囊肿、淋巴瘤、转移瘤及脊索瘤等。在本研究中, 我们分析了 11 例脊椎 IOS 患者的临床和影像学表现, 并将我们的影像学结果与先前发表的文献进行了比较。本研究的目的是探讨脊椎 IOS 的特征性影像学表现, 以将其与其他脊椎溶骨性病变区分开。

1 资料和方法

1.1 一般资料

我们回顾性收集了 2008—2023 年脊椎 IOS 患者的病例, 所有病例均经过手术后病理学确

诊。在医院的 PACS 系统中进行了影像学资料汇总, 并回顾了电子病历中的临床及病理资料。本研究为回顾性研究, 不涉及任何可识别的患者信息, 免知情同意书。

1.2 影像学检查方法

所有影像学检查均由一名拥有 15 年工作经验的骨关节系统副主任医师进行, 然后由一名拥有 35 年工作经验的骨关节系统主任医师进行复核。影像学检查包括: 11 名患者均进行了 CT 平扫和 MRI 增强检查, 其中有 3 名患者进行了 CT 增强检查, 有 6 名患者的 MRI 包括 DWI 和动态增强序列, 有 7 名患者进行了 X 线摄影。X 线摄影采用岛津数字 X 线摄影仪, 拍摄脊柱正侧位。CT 采用的是西门子或飞利浦 64 层螺旋扫描仪, 层厚: 5mm, 1mm 重建; KV: 120KV, 200 ~ 240mA, 增强采用非离子型碘对比剂 (iopamidol, 300 mgI/mL, Bracco, Milan, Italy), 注射速率 2.5 ~ 3.0mL/s, 剂量 1.5mL/kg, 追加 20mL 生理盐水冲洗。MRI 使用 3.0 T 西门子或飞利浦扫描仪, 采用相控阵线圈, 患者仰卧位。

MRI 扫描序列包括矢状位 T1WI、T2WI、STIR，横断位 T2WI、DWI 和动态增强，以及延迟期横断位、矢状位和冠状位 T1WI 脂肪抑制增强。MRI 增强采用肘正中静脉注射钆 -DTPA (Magnevist, Schering) 对比剂，注射速率 1.5 ~ 2mL/s，注射剂量 0.1 mmol/kg，追加 20mL 生理盐水冲洗。本研究记录了所有 IOS 发病部位、大小、形态、边界，X 线上病变的骨质改变，CT 上病变的骨质改变、密度、强化、硬化缘、骨膜反应及对邻近结构的影响，MRI 上病变的信号特征、囊性成分、ADC 值、增强方式及时间 - 信号强度曲线 (Time Signal Intensity Curve, TIC)。

1.3 统计分析方法

统计分析使用 IBM SPSS version 19 (Armonk, NY) 软件。定量资料采用均数 ± 标准差表示，定性资料采用百分率及构成比表示。采用两配对样本 *t* 检验比较病灶与肌肉组织的 CT 值及增强前后 CT 值的差异。*P* < 0.05 认为差异有统计学意义。

2 结果

2.1 临床表现

本研究回顾性分析了 11 例经病理证实的脊椎 IOS 患者，其中男性患者 7 例，女性患者 4 例，年龄为 23 ~ 74 岁 [平均年龄 (51 ± 17 岁)]。患者出现的临床症状包括：8 例 (8/11, 72.7%) 患者出现疼痛，如腰痛、下肢痛和放射痛，6 例 (6/11, 54.5%) 患者出现感觉异常 (如麻木、坠胀)，2 例 (2/11, 18.2%) 患者出现运动障碍，2 例 (2/11, 18.2%) 患者出现排便、排尿功能异常，1 例 (1/11, 9.1%) 患者出现头晕，2 例 (2/11, 18.2%) 患者 IOS 术后复发。

2.2 X 线平片表现

5 例 (5/7, 71.4%) 患者 X 线平片显示具有硬化缘的溶骨性骨质破坏，其中 1 例 (1/7, 14.3%) 患者出现椎体压缩性改变。2 例 (2/7, 28.6%) 患者 X 线平片中病灶隐匿，未见明显异常。

2.3 CT 表现

病变累及部位包括颈椎 3 例 (3/11, 27.3%)，胸椎 1 例 (1/11, 9.1%)，腰椎 5 例 (5/11, 45.5%)，腰骶椎 2 例 (2/11, 18.2%)；7 例 (7/11, 63.6%)

病灶累及单个椎体，4 例 (4/11, 36.4%) 病灶累及相邻多个椎体；病灶最大径为 (5.8 ± 2.85) cm。所有患者病灶形态均为不规则形，10 例 (10/11, 90.9%) 患者病灶偏心性生长，1 例 (1/11, 9.1%) 患者病灶中心性生长。所有病灶均表现为膨胀性溶骨性骨质破坏，内见软组织肿块影。病灶密度欠均匀，2 例 (2/11, 18.2%) 患者病灶内出现少许点状钙化，平扫平均 CT 值为 (43.0 ± 11.55) HU，低于肌肉组织的 CT 值为 (53.3 ± 10.29) HU (*p* = 0.002)，增强后不均匀轻度强化，低于增强后 CT 值为 (70.3 ± 12.22) HU (*p* = 0.01)。病灶边界清晰，有硬化缘，未见骨膜反应。7 例 (7/11, 63.6%) 患者病灶沿着椎间孔向椎管内外延伸，2 例 (2/11, 18.2%) 患者颈椎病灶沿着横突孔延伸，2 例 (2/11, 18.2%) 患者病灶局限于椎体及椎管。另外，1 例 (1/11, 9.1%) 患者椎体变扁，内见残留骨或骨性分隔，1 例 (1/11, 9.1%) 患者椎体出现病理性骨折。

2.4 MRI 表现

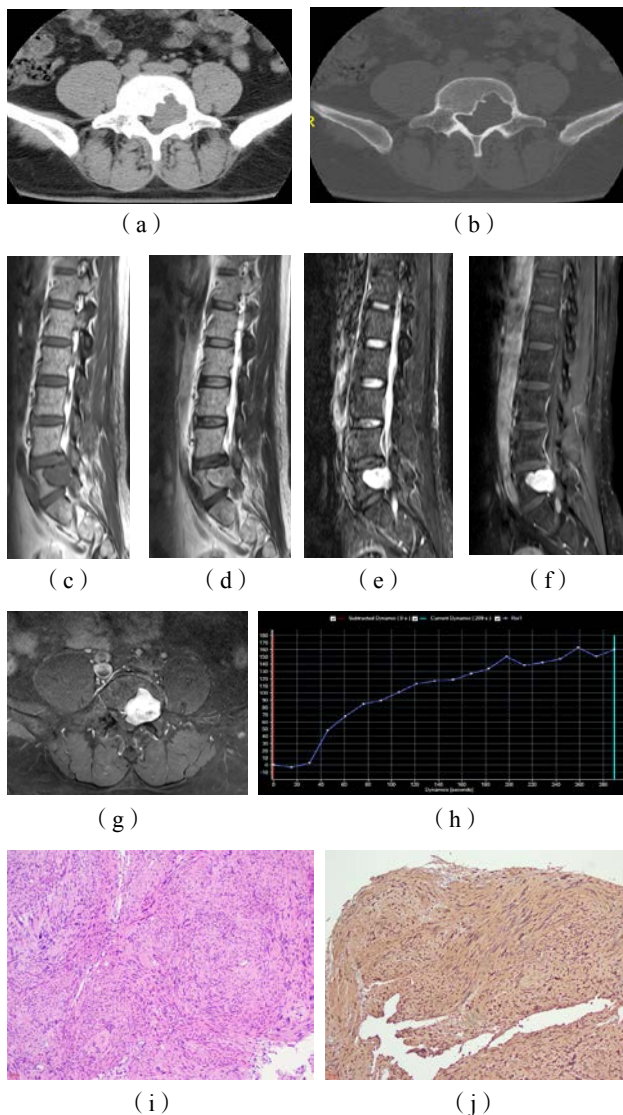
病灶部位、大小、形态、边界、对邻近结构的影响表现与 CT 相仿。所有患者病灶信号均不均匀，10 例 (10/11, 90.9%) 患者病灶相对于肌肉的信号强度在 T1WI 上呈等低信号，T2WI 呈混杂稍高信号，压脂上呈混杂高信号。1 例 (1/11, 9.1%) 患者病灶 T1WI、T2WI 及压脂上均呈高低混杂信号，周边见低信号环。增强后所有患者病灶均呈不均匀强化，其中 7 例 (7/11, 63.6%) 患者病灶内出现囊性变。6 例 (6/6, 100%) 患者病灶均表现为 DWI 上弥散不受限，ADC 值为 (1.25 ± 0.176) × 10³ mm²/s，TIC 曲线呈 I 型，即缓慢持续上升型。

2.5 病理组织学表现

脊椎 IOS 具有典型神经鞘瘤的病理特征，表现为由排列有序、细胞丰富的束状区 (Antoni A 区) 和疏松黏液样的网状区 (Antoni B 区) 组成，血管增生、囊腔形成、网状纤维及胶原纤维掺杂其中，免疫组化证实肿瘤细胞 S100 强阳性。

图 1 为某患者的 CT、MRI 及病理图片。由图可以清晰地看出，横断位 CT 平扫软组织窗 [见图 1 (a)]、骨窗 [见图 1 (b)] 显示 L5 椎体见偏

心性膨胀性溶骨性骨质破坏，内见软组织密度影，密度欠均匀，形态不规则，边界清晰，有硬化缘，向左后椎管内突入，压迫硬膜囊。MRI上，矢状位T1WI[见图1(c)]呈等低信号，矢状位T2WI[见图1(d)]呈混杂稍高信号，矢状位STIR[见图1(e)]呈混杂高信号，矢状位[见图1(f)]、横断位[见图1(g)]T1WI增强后明显稍不均匀强化，TIC[见图1(h)]呈I型。H & E染色[见图1(i)]显示排列有序、细胞丰富的束状区(Antoni A区)和疏松黏液样的网状区(Antoni B区)，免疫组化[见图1(j)]证实肿瘤细胞S100强阳性。



注：患者，男，47岁，L5椎体神经鞘瘤。

图1 某患者的CT、MRI及病理图片

Fig.1 CT, MRI and pathological pictures of a patient

3 讨论

IOS是生长缓慢的良性肿瘤，起源于骨髓腔或邻近结构。关于IOS的发病机制，目前主流假设有3个：①骨内肿瘤纯粹发生在髓腔内，伴有骨质稀疏；②骨内肿瘤起源于营养管，呈哑铃状肿块，导致营养管扩大；③由相邻骨外结构侵入骨引起^[5,6]。在影像学和组织学上，可能难以确定肿瘤是发生在骨性物质中、骨营养管还是源于骨外结构侵蚀。在我们的病例中，像大多数报道的病例一样，肿瘤的确切起源无法确定，但影像学上IOS除了累及椎体，还会沿着椎间孔、横突孔等结构向椎管内外延伸，肿瘤对椎体和椎间孔的慢性压力与侵蚀可导致椎体内病灶周围硬化缘和椎间孔扩大，同时手术也证实肿瘤累及椎体外。因此，我们推测上述第二种机制可能是IOS发生的模式。IOS与椎间孔或椎管内神经鞘瘤相比，相似性在于病理组织学上均来源于周围神经的神经鞘膜雪旺氏细胞，差异性在于发病部位不同，前者病灶中心部位在骨内，对骨的改变更加明显，而后者病灶中心在椎间孔或椎管内，以软组织肿块为主，对骨的改变没有或轻微。

IOS极为罕见，几乎可以影响所有的骨骼，最常见的报道位置是下颌骨和骶骨，其次是椎骨、头盖骨、肩胛骨、胸骨、肋骨、股骨、胫骨、尺骨和指骨等^[2-4]。在本研究中，颈椎、胸椎、腰椎和骶椎均可发生IOS，好发于腰椎。IOS通常发生在中年患者身上，发病率高峰出现在40~60岁，无性别或种族偏好^[1]。在我们的研究中，患者的平均年龄为51岁，男女比例为7:4。与文献相比，本研究中病例性别分布的差异很可能是由样本量小引起的。临床上IOS最常见的症状是疼痛，少数病例有感觉和运动障碍，也有少数无症状的^[7,8]。在本研究中，所有患者均有临床症状，患者常常出现疼痛(72.7%)和感觉异常(54.5%)，少数病例出现运动障碍、头晕、排便和排尿异常等，与文献报道相仿。

IOS在影像学表现上有一定的特征性。在本研究中，IOS在X线片上表现为具有硬化缘的溶骨性骨质破坏，但X线片对于病灶的显示有一定的限度，部分病灶是隐匿的，可能与病灶较小及邻近解剖结构重叠覆盖有关。本研究中的IOS病例在CT上多

表现为偏心性膨胀性溶骨性骨质破坏,形态不规则,边界清晰,可见硬化缘,内部呈软组织密度,低于邻近肌肉的密度,密度不均匀,少见钙化,增强后不均匀轻度强化,未见骨膜反应,骨内肿块易通过椎间孔等结构延伸至椎管内外,压迫硬膜囊、脊髓及邻近椎旁软组织。CT上这些影像学征象提示病灶是良性肿瘤,与文献报道基本一致^[9,10]。在MRI研究中,有报道称IOS在T1WI上与肌肉组织相比呈等信号至稍低信号,在T2WI上混杂高信号,具有与软组织神经鞘瘤相似的MRI成像特征^[11,12]。在T2WI上,软组织神经鞘瘤具有特征性“靶”征,这是由于中心分布的高细胞Antoni A区成分和周围分布的稀疏细胞Antoni B区成分,但在脊椎IOS内未见文献报道出现特征性“靶”征^[1]。在本研究中,多数IOS病例(90.9%)在T1WI上表现为等低信号,在T2WI上表现为混杂稍高信号,压脂后呈混杂高信号,有1例在T1WI、T2WI上均出现高低混杂信号改变,周边有低信号环,提示病灶内可能有钙化、出血和含铁血黄素沉积,最后病理证实肿瘤内伴有出血变性钙化,部分砂粒体已形成。同样,在本研究中,没有观察到T2WI上软组织神经鞘瘤的特征性“靶”征。在强化方式上,神经鞘瘤的典型表现为不均匀强化,当病灶较小时也可出现均匀强化。在本研究中IOS均表现为不均匀明显强化,部分病灶内(63.6%)出现囊性无强化区,另外动态增强序列显示TIC呈I型(缓慢持续上升型)。另外,本研究还收集了DWI序列,IOS水分子的弥散不受限,实性部分的ADC值为 $(1.25 \pm 0.176) \times 10^3 \text{mm}^2/\text{s}$,这些功能性成像特征也提示病灶为良性肿瘤。文献中关于IOS的MRI功能性成像特征较少见。

脊椎IOS是罕见病例,需要与其他椎骨溶骨性骨质破坏的骨肿瘤或肿瘤样病变进行鉴别,如骨巨细胞瘤、动脉瘤样骨囊肿、骨转移瘤及淋巴瘤等。骨巨细胞瘤是一种局部侵袭性骨内肿瘤,含有破骨细胞样巨细胞。在影像上,膨胀性骨质破坏多为横向生长,内见骨嵴或纤维性分隔,少见硬化缘,病灶内容易出血坏死,CT增强扫描肿瘤实性部分呈中等到明显强化,MRI上信号更混杂,增强后轻度

强化到明显不均匀强化。动脉瘤样骨囊肿发病年龄较小,好发于10~30岁,病灶往往起源于附件,向椎体后方发展,为骨性膨胀性囊状影,X线上囊内可见粗而浅淡的骨小梁,CT、MRI上囊性病区内见间隔影,增强后间隔强化,病灶内易出血,特征性表现是CT、MRI上出现液-液平面。骨转移瘤有原发肿瘤病史,常多骨受累,呈跳跃性分布,椎体、椎弓根及椎体附件常有不同程度的破坏,易形成软组织肿块,未见硬化缘。脊椎骨淋巴瘤骨质破坏轻,边界不清晰,软组织肿块大,无硬化缘,肿瘤密度/信号均匀,DWI弥散受限,增强后轻中度均匀强化。骶椎IOS还需要与脊索瘤进行鉴别。脊索瘤容易出现钙化,无硬化缘,T2WI上出现特征性的、呈卵石状聚集的明显高信号团块结节,其间见低信号间隔影,增强后轻中度蜂窝状强化。

本研究存在一定的局限性。由于IOS的罕见性,本研究样本量较小,影像学征象的解释可能还不全面,需要进一步扩充病例数量。

总之,脊椎IOS是罕见的良性骨肿瘤,其影像学表现具有一定的特征性。IOS在CT上表现为偏心性膨胀性溶骨性骨质破坏,有硬化缘,病灶沿着椎间孔向椎管内外延伸,压迫邻近硬膜囊、脊髓及椎旁软组织。IOS在MRI上表现为T1WI等低信号、T2WI混杂稍高信号,增强后不均匀明显强化、易囊变,DWI弥散不受限,TIC呈I型等。当存在这些影像学征象时,要考虑患IOS的可能性。

参考文献

- [1] SHOMAL Z F, AZHIDEH A, MANTILLA J G, *et al*. Imaging features of intraosseous schwannoma: a case series and review of the literature[J]. *Diagnostics (Basel)*, 2023,13(9):1610.
- [2] BERGAMINI M L, NOBERTO L P, TORRES G A, *et al*. Primary intra-osseous hybrid schwannoma-perineurioma in the mandible[J]. *J Clin Exp Dent*, 2020, 12(9):e888-e891.
- [3] DRUMOND G C, NAKAGAWA S A, COSTA F D, *et al*. Intraosseous schwannoma: case report and review of the literature[J]. *Rev Bras Ortop (Sao Paulo)*, 2020,55(2):258-262.
- [4] WAHYUDI M, CLEVFIRSTARACHMA R P, DJAILANI M. Intraosseous schwannoma of distal femur: a case report[J]. *Int J Surg Case Rep*, 2022, 99:107643.

- [5] SUMMERS S, JOSE J, BARRERA C M, *et al.* Intraosseous schwannomas involving the sacrum: characteristic imaging findings and review of the literature[J]. **Neuroradiol J**, 2018,31(5):531-540.
- [6] WANG Y Q, HU J X, YANG S M, *et al.* Intraosseous schwannoma of the mobile spine: a report of twenty cases[J]. **Eur Spine J**, 2018, 27(12):3092-3104.
- [7] YAN X, WANG K, LIN N, *et al.* A rare case of melanotic schwannoma occurred intraosseous of sacrum: a literature review[J]. **Orthop Surg**, 2023, 15(2):655-662.
- [8] ZAIDMAN N, MERVE A, RUSSO V. Intraosseous thoracic schwannoma: case report and review of the literature[J]. **World Neurosurg**, 2019, 130:313-316.
- [9] 张立华, 袁慧书. 神经鞘瘤伴脊柱骨破坏的影像表现 [J]. **中国临床医学影像杂志**, 2012, 23 (12) : 870-873.
- ZHANG Lihua, YUAN Huishu. The imaging appearances of schwannomas with spinal bone destruction[J]. **Journal of China Clinic Medical Imaging**, 2012, 23(12):870-873.
- [10] O'HALLORAN L, O'HALLORAN A, MURPHY S, *et al.* Lumbar spinal intraosseous schwannoma: a non-operative approach[J]. **BMJ Case Rep**, 2022,15(12):e249287.
- [11] 张立华, 刘艳, 袁慧书. 脊柱区良恶性神经鞘瘤的影像表现及鉴别诊断 [J]. **临床放射学杂志**, 2017, 36 (6) : 857-860.
- ZHANG Lihua, LIU Yan, YUAN Huishu. Imaging appearances of benign and malignant schwannoma of spine and differential diagnosis[J]. **Journal of Clinical Radiology**, 2017, 36(6):857-860.
- [12] SONG S, LI X, LYU W, *et al.* Mobile schwannoma of the lumbar spine: A case report and literature review[J]. **Medicine (Baltimore)**, 2023, 102(34):e34966.