

[DOI]10.12016/j.issn.2096-1456.2019.12.006

· 防治实践 ·

颞下颌关节滑膜软骨瘤病例报道及文献复习

曹峻川¹, 张松², 韩久松¹, 赵建江¹

1. 南方医科大学口腔医院口腔颌面外科, 广东 广州 (510280); 2. 阳春市口腔医院口腔综合科, 广东 阳春 (200090)

【摘要】 **目的** 探讨颞下颌关节滑膜软骨瘤病的诊断、治疗和预后, 为该类疾病的诊断及治疗提供参考。**方法** 分析南方医科大学口腔医院收治的1例右侧颞下颌关节滑膜软骨瘤病例, 并结合文献对此类病例回顾分析。**结果** 患者临床表现为下颌开口过程中闻及弹响、杂音, 边缘运动时有明显疼痛; 影像学特征表现为右侧关节窝内见数个大小不等游离钙化影环绕于髁头周围。全麻下行右侧颞下颌关节肿物切除术及关节盘复位术, 术后病理结果见分布不均的透明软骨细胞, 诊断为右颞下颌关节滑膜软骨瘤病, 患者术后3个月复查症状缓解, 影像检查显示无残留病灶。文献回顾显示, 滑膜软骨瘤病好发生于中年患者, 通常发生在诸如膝、髋、肘、肩关节等大型关节中; 罕见发生于颞下颌关节中, 表现为颞下颌关节的疼痛、肿胀、下颌运动功能受限; 影像学检查在其诊断中具有重要的辅助作用, 其最终确诊需要病理学诊断。外科手术治疗此类疾病效果较好, 不易复发。**结论** 颞下颌关节滑膜软骨瘤的诊断需结合临床表现、影像学特点及病理学检查。外科手术是一种有效的治疗方式, 在彻底清除病变游离体及受累组织后, 该类疾病预后较好, 不易复发。

【关键词】 滑膜软骨瘤病; 颞下颌关节; 疼痛; 弹响; 杂音; 下颌运动功能受限; 影像学特征; 手术治疗

【中图分类号】 R782 **【文献标志码】** A **【文章编号】** 2096-1456(2019)12-0779-05



开放科学(资源服务)标识码(OSID)

【引用著录格式】 曹峻川, 张松, 韩久松, 等. 颞下颌关节滑膜软骨瘤病例报道及文献复习[J]. 口腔疾病防治, 2019, 27(12): 779-783.

Synovial chondromatosis of temporomandibular joint: a case report and literature review CAO Junchuan¹, ZHANG Song², HAN Jiusong¹, ZHAO Jianjiang¹. 1. Department of Oral and Maxillofacial Surgery, Stomatological Hospital, Southern Medical University, Guangzhou 510280, China; 2. Department of Oral General, Yangchun Stomatological Hospital, Yangchun 200090, China

Corresponding author: ZHAO Jianjiang, Email: zjj2521@sina.com, Tel: 86-20-34812527

【Abstract】 **Objective** To explore the diagnosis, treatment and prognosis of synovial chondroma in the temporomandibular joint and to provide a reference for clinical diagnosis and treatment. **Methods** A case of right temporomandibular joint synovial chondromatosis admitted to the Stomatological Hospital, Southern Medical University was reported, and the related literature was reviewed and analyzed. **Results** During the movement of the mandibular opening, noise and obvious pain were found. The imaging features showed that several free calcification shadows of different sizes were seen around the condyle in the right articular fossa. The right temporomandibular joint mass resection and articular disc reduction were performed under general anesthesia, and the postoperative pathological results showed synovial chondromatosis. The patient's symptoms were relieved 3 months after the surgery, and the imaging examination showed no residual lesions. A review of the literature shows that synovial chondromatosis usually occurs in large joints, such as the knee, hip, elbow, and shoulder joints, and rarely occurs in the temporomandibular joint. It occurs in middle-aged patients, manifesting as pain, swelling, and limited movement. Imaging studies play an important role in diagnosis, but the final diagnosis requires pathological diagnosis. Surgical treatment is effective, and synovial chondromatosis does not eas-

【收稿日期】 2019-04-13; **【修回日期】** 2019-07-30

【基金项目】 国家自然科学基金项目(81670950)

【作者简介】 曹峻川, 硕士, 医师, Email: 529191550@qq.com

【通信作者】 赵建江, 博士, 主任医师, Email: zjj2521@sina.com, Tel: 86-20-34812527

ily relapse. **Conclusion** The diagnosis of TMJ synovial chondroma should be combined with clinical manifestations, imaging features, and pathological examination. Surgery is an effective treatment. After completely removing the diseased and affected tissues, the disease has a good prognosis and does not easily relapse.

【Key words】 synovial chondromatosis; temporomandibular joint; pain; clicking hip; noise; limited jaw movement; imaging features; surgical treatment

J Prev Treat Stomatol Dis, 2019, 27(12): 779-783.

滑膜软骨瘤病(synovial chondromatosis, SC)是关节滑膜组织最常见的良性结节性软骨增生。早在1933年, Axhausen就首次描述了颞下颌关节滑膜软骨瘤病,但到目前为止只有大约360例滑膜软骨瘤病病例报告^[1]。虽然这种疾病较少见,但其进展过程可能破坏颅中窝底,并侵入颅内结构造成严重后果,所以对其研究分析具有重要的临床意义^[2]。本文报道1例颞下颌关节滑膜软骨瘤病病例。

1 病例资料

1.1 一般资料

患者,女,50岁,6年前患者自觉右侧颞下颌关节轻微疼痛不适,于当地医院就诊,诊断为颞下颌关节紊乱病,行理疗2个月,疼痛症状未缓解。近1年来疼痛加剧,于广州某医院拍摄头颅锥形CT,显示右侧颞下颌关节间隙增宽,右侧颞下颌关节区域有多个钙化性松动体,建议患者转至南方医科大学口腔医院治疗。

1.2 临床检查

两侧颌面部基本对称,右侧颞下颌关节髁突处有轻度压痛,耳前耳后无压痛,对侧颞下颌关节无异常,患区表面皮肤皮温及皮纹正常,无红肿溃疡。张口度无受限,张口度约3.7 cm,开口型正常,呈“↓”,开口过程中闻及弹响、杂音,下颌骨边缘运动时及行咀嚼功能时有疼痛,颌面颈部未扪及浅表淋巴结。口内卫生状况欠佳,右颊粘膜无肿胀,右侧翼下颌皱襞区无肿胀无压痛。按压右腮腺区,导管口有少量清亮液体流出,导管口无肿胀,咬合关系正常。

1.3 辅助检查及诊断

头颅锥形束CT(图1a~d)示:右侧髁状突顶部内外径较对侧略短小,右关节凹骨皮质边缘略欠平滑,右侧关节后间隙明显增宽,前间隙及上间隙减小,右侧关节窝内见数个大小不等游离钙化影环绕于髁头周围。根据患者临床表象及CT影像,初步诊断为右侧颞颌关节滑膜软骨瘤病,建议患者全麻下手术治疗。患者入院后完善胸片、血常规、心

电图、生化等相关检查,排除手术禁忌症。

2 结果

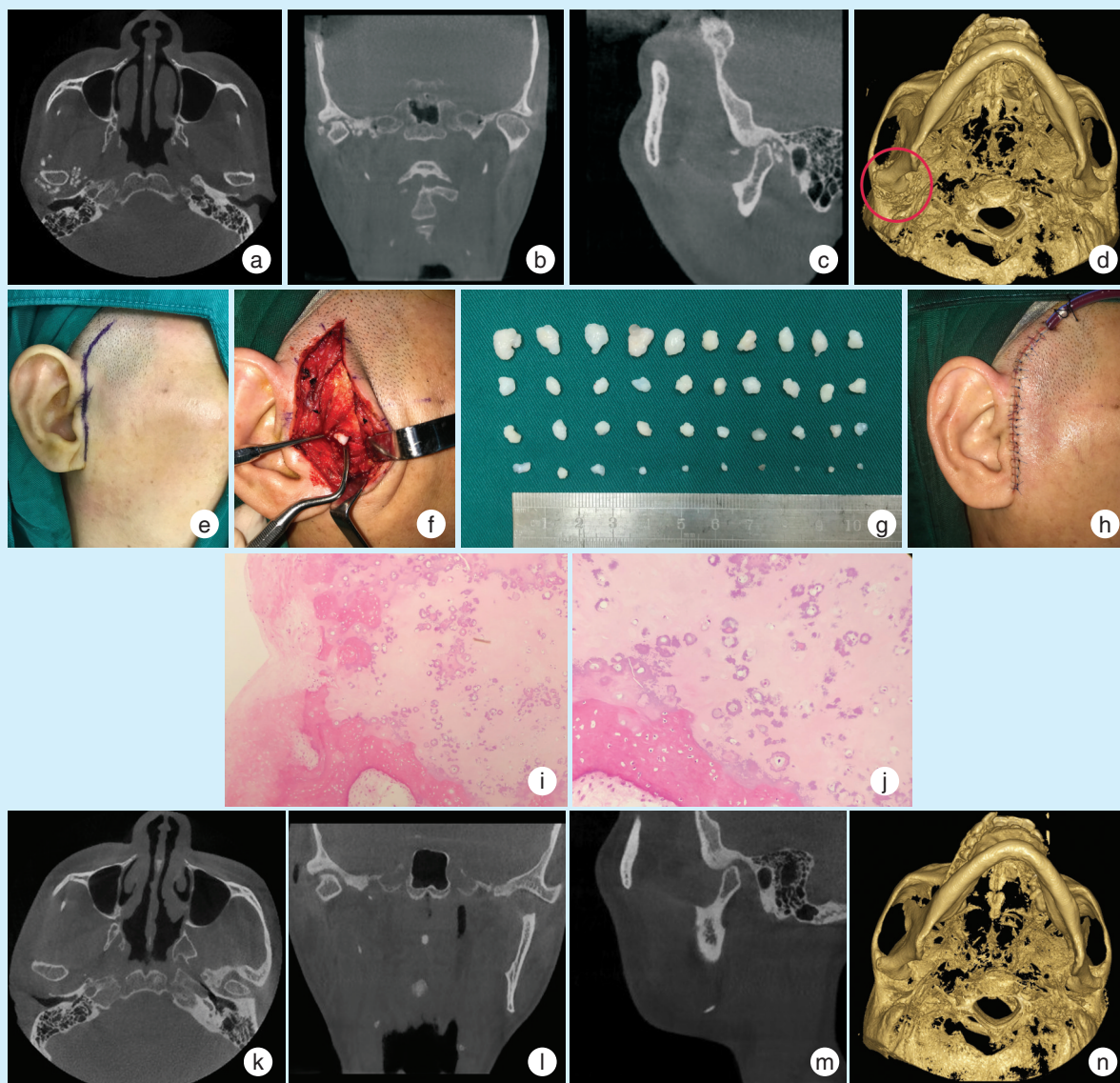
全麻下行右侧颞下颌关节肿物切除术,右侧颞下颌关节盘复位术。手术切口采用Al-Kayat耳前入路切口,用龙胆紫标出切口线,由右侧发迹内至耳轮角,再沿耳前向下至耳垂处,长约6 cm型似问号形(图1e)。沿龙胆紫标记将皮肤、皮下组织,浅筋膜及颞弓根部腮腺筋膜逐层切开,钝性分离出面神经的颞支和颞支。切开颞骨颞突处骨膜并将咬肌附着向前分离,暴露出颞下颌关节及周围结构,翻起筋膜组织瓣,分别打开关节上下腔。于颞下颌关节间隙内取出直径为1~10 mm左右的乳白色颗粒状物40粒(图1f~g)。清洗创腔,关节盘复位,关闭关节腔,缝合包扎,切口上缘安置负压引流管,分层缝合(图1h)。摘除物送组织病理检查,病变呈结节状,可见透明软骨细胞,分布不均,有纤维组织包绕,增殖的软骨细胞除了一些着色过深的细胞核外,没有明显的有丝分裂活动。病理诊断结果为:符合滑膜软骨瘤病(图1i~j)。

术后拍摄头颅锥形束CT图像,右侧颞下颌关节区呈肿物切除术后改变,对照术前片,右侧关节窝内数个大小不等游离钙化影消失,患者症状缓解,3个月后随访未见复发(图1k~n)。

3 讨论

3.1 病因和发病机制

世界卫生组织将滑膜软骨瘤病定义为良性结节性软骨增生,其起源于关节滑膜、滑囊或肌腱鞘,其病因和发病机制目前尚未明确,多认为与滑膜炎、风湿性关节炎、错骀创伤等因素有关^[3]。虽然病因未明,但目前有研究建议将其分为原发性和继发性滑膜软骨瘤病。原发性软骨瘤病是由滑膜中的组织化生变化和软骨病灶形成以及软骨体的钙化引起的。而继发性软骨瘤病,则是由于创伤或关节病导致关节碎片脱落,并在滑膜液中自由移动,同时得到滑膜液的滋养。因此,这两种类



a~d: 术前轴位、冠状位、矢状位 CT 图像及三维重建图像示右侧髁突周围有各种形状和大小的游离钙化体; e: 耳前手术切口; f~g: 手术摘除直径为 1~10 mm 的乳白色颗粒状物 40 粒; h: 缝合创口; i~j: 病理片 HE 染色光镜 100 倍、200 倍见分布不均的透明软骨细胞; k~n: 术后 3 月 CT 图像示右侧关节窝内数个大小不等游离钙化影消失

图 1 手术治疗颞下颌关节滑膜软骨瘤病

Figure 1 Surgical treatment of synovial chondromatosis of the temporomandibular joint

型的滑膜软骨瘤病的组织学表现是不同的。原发性滑膜软骨瘤病表现为片状、弥漫性钙化,而继发性滑膜软骨瘤病表现为环状钙化^[4]。

3.2 临床表现

颞下颌关节滑膜骨软骨瘤病发病年龄跨度大,但以 40~50 岁较多见,女性多于男性,男女比例是 1:1.85。以单侧颞下颌关节滑膜软骨瘤病居多,右侧较左侧更易受影响,右侧与左侧的比例是 1.25:1,双侧颞下颌关节滑膜软骨瘤病偶尔有报道。颞下

颌关节滑膜软骨瘤病通常局限于关节间隙的上腔室,很少见于下腔室,但它偶尔会超出关节囊进入颅底和腮腺、外耳道等组织^[5]。其主要的体征及临床表现为面部不对称或关节畸形、耳前区疼痛、肿胀、下颌运动功能受限。除此之外,还可表现为咬合关系改变,关节弹响,牙关紧闭,头痛,面神经麻痹等^[6]。

3.3 组织病理学特点

1977 年 Milgram 针对膝关节滑膜软骨瘤病提

出病理分期并将其分3个阶段,这3个阶段是依据是否有滑膜炎,关节腔中是否有游离体及游离体是否钙化而划分的^[7]。但是在继发性滑膜软骨瘤病中,游离体的来源仍存在争议,一种说法是其来源是因为不断摩擦引起的软骨瘤分叶状结节移位引起的,另一种说法是生长中的软骨瘤诱导滑膜上皮化产生软骨细胞,然后由滑膜液滋养形成游离钙化体^[8-9]。如果从软骨瘤对营养的需求角度考虑,有学者认为在Milgram I期是软骨瘤对营养的需求大于供给,瘤体分泌细胞因子的同时促进滑膜血管生成;Milgram II期是供给满足需求,游离体体积增大;Milgram III期是游离体对营养的需求超过了关节液营养供给,游离体骨化改变自身形态^[10-11]。

3.4 影像学特点

影像学检查是诊断颞下颌关节滑膜软骨瘤病的重要辅助手段,主要包括X线片、CT和MRI。在X线片上,颞下颌关节滑膜软骨瘤病表现为关节间隙扩大、关节活动受限、关节表面不规则、存在钙化疏松结节、关节窝和下颌髁突硬化。CT较X线片具有软组织密度大、多平面切片、对比度高的特点,可以进一步显示软组织肿胀,定义疏松钙化体的大小、形状和位置,并显示颅底颞骨关节面可能的改变,以及颅内的扩张^[12]。根据CT征象,可以将颞下颌关节滑膜软骨瘤病分为3型: I型软组织肿胀,无脱落软骨体; II型,软组织肿胀,软骨体脱落; III型,颞下颌关节周围软骨体脱落,但无软组织肿胀^[13]。对于未完全钙化的游离体, MRI比CT有更好的检查效果,颞下颌关节滑膜软骨瘤病的MRI表现包括:关节积液,多个软骨样结节,滑膜增生,关节囊扩张,下颌骨髁前移位和颅内受累。软骨样结节是其特异征像,通常表现为关节间隙内出现多发低、等信号,低信号结节常表现点状或小圆形,与病理学中的钙化和骨化相关,非钙化结节表现为等信号,仅在T2WI上显示,表现为高信号的关节积液背景下的信号中断^[14]。本病例发生于右侧颞下颌关节,CT征象表现为围绕髁突周围的大小不等的钙化影,术前CT结合临床表现,初步诊断为颞下颌关节滑膜软骨瘤。

3.5 诊断和鉴别诊断

颞下颌关节滑膜软骨瘤病的诊断通常采用临床表现结合多种影像学检查的方式,若游离钙化不明显还可行关节镜检查^[15]。临床上颞下颌关节滑膜软骨瘤病需要与多种疾病相鉴别,包括单核

细胞起源的绒毛结节性滑膜炎、剥脱性骨关节炎、退行性关节炎、软骨肉瘤、类风湿关节炎、焦磷酸钙病、软骨钙质沉着症、结核性关节炎、神经营养性关节炎以及骨或软骨的原发性肿瘤等。虽然游离钙化体并不是滑膜软骨瘤病特有表现,但仍有以下几点鉴别要点:①颞下颌关节滑膜软骨瘤病侵袭的部位,通常局限关节间隙及滑膜浅层;②滑膜软骨瘤病有大量的钙化游离体,有软骨细胞成团聚集现象;③多数滑膜软骨瘤病细胞核异型性和细胞丰富程度与低至中度恶性软骨瘤相当^[16-17]。

3.6 颞下颌关节滑膜软骨瘤病治疗方式

治疗方式应该是采取保守的手术治疗,包括彻底清除游离体和切除炎症明显的滑膜组织区域^[18]。本病例采用了较常用的开放式外科手术治疗方式摘除游离体,术后复查CT结果良好,未见残留游离体,患者症状缓解,其远期预后需进一步随访。开放式的外科手术治疗相较一些微创技术,如关节镜技术和双针关节穿刺术对患者造成的创伤较大,但是从目前有的文献报道来看,开放式的外科手术较关节镜和针吸更能彻底的清除关节腔中的游离体,且颞下颌关节滑膜软骨瘤病开放式手术治疗效果较好,术后复发少见,病程一般较平稳,常规使用常用止痛药和抗生素即可,多数病例的症状在术后都能得到明显的改善^[19-20]。

4 小结

在本病例中,患者为中年女性,右侧颞下颌关节区仅表现为轻度压痛、弹响及疼痛不适,临床表现类似颞下颌关节紊乱症。若仅通过临床表现而不结合影像学检查,容易导致误诊。由此提示在做病理组织检查前,影像学检查在初步诊断此类疾病中的重要性。国内外已有手术治疗颞下颌关节滑膜软骨瘤病有效性的报道,本病例手术治疗3个月后患者复查,症状缓解,未见复发,但远期疗效仍需进一步随访观察。

参考文献

- [1] Lee LM, Zhu YM, Zhang DD, et al. Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint: a clinical and arthroscopic study of 16 cases[J]. J Craniomaxillofac Surg, 2019, 47(4): 607-610.
- [2] Pinto AA Jr, Ferreira e Costa R, de Sousa SF, et al. Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint successfully treated by surgery [J]. Head Neck Pathol, 2015, 9(4): 525-529.
- [3] Sink J, Bell B, Mesa H. Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint: clinical, cytologic, histologic, radiologic, thera-

- peptic aspects, and differential diagnosis of an uncommon lesion [J]. *Oral Surg Oral Med Oral Pathol Oral Radiol*, 2014, 117(3): e269-e274.
- [4] Kim HS, Lee W, Choi JW, et al. Temporomandibular joint synovial chondromatosis accompanying temporal bone proliferation: a case report[J]. *Imaging Sci Dent*, 2018, 48(2): 147-152.
- [5] Liu X, Huang Z, Zhu W, et al. Clinical and imaging findings of temporomandibular joint synovial chondromatosis: an analysis of 10 cases and literature review [J]. *J Oral Maxillofac Surg*, 2016, 74(11): 2159-2168.
- [6] Brabyn PJ, Capote A, Munoz-Guerra MF, et al. Arthroscopic management of synovial chondromatosis of the temporomandibular joint: case series and systematic review[J]. *J Maxillofac Oral Surg*, 2018, 17(4): 401-409.
- [7] Milgram JW. Synovial osteochondromatosis: a histopathological study of thirty cases[J]. *J Bone Joint Surg Am*, 1977, 59(6): 792-801.
- [8] Wang Y, Li L, Chen M, et al. Osteochondroma with secondary synovial chondromatosis in the temporomandibular joint[J]. *Br J Oral Maxillofac Surg*, 2016, 54(4): 454-456.
- [9] Mikami T, Kato Y, Kojima T, et al. An unusual and difficult diagnosis of synovial chondromatosis: a case report[J]. *J Oral and Maxillofac Surg Med Pathol*, 2018, 30(5): 422-427.
- [10] Li Y, El Mozen LA, Cai H, et al. Transforming growth factor beta 3 involved in the pathogenesis of synovial chondromatosis of temporomandibular joint[J]. *Sci Rep*, 2015, 5(1). DOI: 10.1038/srep08843.
- [11] Li Y, Cai H, Fang W, et al. Fibroblast growth factor 2 involved in the pathogenesis of synovial chondromatosis of temporomandibular joint[J]. *J Oral Pathol Med*, 2014, 43(5): 388-394.
- [12] Tang B, Wang KL, Wang H, et al. Radiological features of synovial chondromatosis affecting the temporomandibular joint: report of three cases[J]. *Oral Radiol*, 2018, 35(2): 198-204.
- [13] Varol A, Sencimen M, Gulses A, et al. Diagnostic importance of MRI and CT scans for synovial osteochondromatosis of the temporomandibular joint[J]. *Cranio*, 2011, 29(4): 313-317.
- [14] Liu X, Wan S, Shen P, et al. Diagnostic accuracy of synovial chondromatosis of the temporomandibular joint on magnetic resonance imaging[J]. *PLoS One*, 2019, 14(1): e209739.
- [15] Paparo F, Massarelli M, Cordeschi R, et al. Chondromatosis of the temporomandibular joint as a consequence of persistent long-lasting joint dysfunction[J]. *J Craniofac Surg*, 2016, 27(7): e636-e637.
- [16] Guarda-Nardini L, Piccotti F, Ferronato G, et al. Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint: a case description with systematic literature review[J]. *Int J Oral Maxillofac Surg*, 2010, 39(8): 745-755.
- [17] Morales H, Cornelius R. Imaging approach to temporomandibular joint disorders[J]. *Clin Neuroradiol*, 2016, 26(1): 5-22.
- [18] Leite P, Tolentino ES, Yamashita AL, et al. Surgical treatment of synovial chondromatosis in the inferior compartment of the temporomandibular joint with articular disc involvement [J]. *J Craniofac Surg*, 2018, 29(2): e199-e203.
- [19] Holtmann H, Boettinger T, Kuebler NR, et al. Intra- and extracapsular synovial chondromatosis of the temporomandibular joint: Rare case and review of the literature[J]. *SAGE Open Med Case Rep*, 2018, 6. DOI: 10.1177/2050313X18775307.
- [20] Benslama L, Schouman T, Toure S, et al. Synovial chondromatosis of the temporomandibular joint: report and analysis of 12 cases[J]. *J Stomatol Oral Maxillofac Surg*, 2019, 120(5): 476-479.

(编辑 罗燕鸿,曾曙光)



官网



公众号