

DOI:10.1159/000364809.

[20] Sukgen EA, Koçluk Y. Comparison of clinical outcomes of intravitreal ranibizumab and aflibercept treatment for retinopathy of prematurity [J]. Graefe's Arch Clin Exp Ophthalmol, 2019, 257(1) : 49-55. DOI: 10.1007/s00417-018-4168-5.

[21] Karahan E, Zengin MO, Tuncer I, et al. Correlation of intraocular pressure with central corneal thickness in premature and full-term newborns [J]. Eur J Ophthalmol, 2015, 25(1) : 14-17. DOI:10.5301/ejo.5000494.

[22] Du R, Wang X, Shen K, et al. Decreasing intraocular pressure

significantly improves retinal vessel density, cytoarchitecture and visual function in rodent oxygen induced retinopathy [J]. Sci China Life Sci, 2020, 63(2) : 290-300. DOI:10.1007/s11427-018-9559-x.

[23] Ricci B. Intraocular pressure in premature babies in the first month of life [J]. J AAPOS, 1999, 3(2) : 125-127. DOI:10.1016/s1091-8531(99)70083-2.

(收稿日期:2020-07-05 修回日期:2020-12-11)

(本文编辑:张宇)

· 病例报告 ·

侵犯骨质的特发性眼眶炎性假瘤诊疗一例

白惠玲¹ 马建民¹ 刘勤² 马建军²

¹首都医科大学附属北京同仁医院 北京同仁眼科中心 北京市眼科学与视觉科学重点实验室; ²甘肃省人民医院眼科 730000
白惠玲, 进修医师, 现在甘肃省人民医院眼科 730000

通信作者: 马建民, Email: jmama@sina.com

基金项目: 北京市医院管理中心“登峰”计划项目 (DFL20190201)

Diagnosis and treatment of idiopathic orbital inflammatory pseudotumor that damages bone: a case report

Bai Huiling¹, Ma Jianmin¹, Liu Qin², Ma Jianjun²

¹Beijing Tongren Eye Center, Beijing Tongren Hospital, Capital Medical University, Beijing Ophthalmology & Visual Sciences Key Lab, Beijing 100730, China; ²Department of Ophthalmology, Gansu Provincial People's Hospital, Lanzhou 730000, China

Bai Huiling is working at Department of Ophthalmology, Gansu Provincial People's Hospital, Lanzhou 730000, China

Corresponding author: Ma Jianmin, Email: jmama@sina.com

Fund program: Beijing Hospital Management Center "Mountain Peak" Project (DFL20190201)

DOI:10.3760/cma.j.cn115989-20190701-00283

患者,女,48岁,蒙古族,因右眼内眦部红肿半年、发现泪囊区肿物3个月于2019年6月至北京同仁医院就诊。自述有高血压、高血脂病史7年。患者全身淋巴结无肿大,胸部X线摄片及腹部B型超声检查未见明显异常。眼部检查:右眼泪囊区可触及约10mm×8mm肿物(图1),质硬,活动度差,边界欠清晰,无压痛。泪道冲洗右侧上冲上返,下冲下返;眼眶CT扫描示右侧泪囊区占位性病变,眼眶内下壁骨质破坏(图2);眼眶MRI扫描示右侧眼眶泪囊及鼻泪管区可见不规则形肿块,边界清晰,前后径约27.2mm,左右径约15.6mm,上下径约26.6mm,病变与脑灰质相比T1WI呈等、低信号,T2WI呈等、低信号,信号不均匀,DWI呈等、低信号,ADC图呈低信号,增强后病变明显均匀强化,动态强化曲线呈平台型;病变累及右侧内直肌、下斜肌、下直肌及下眼睑,右侧眼球受压前移,右侧眼眶泪囊及鼻泪管区占位性病变累及周围骨质、眼外肌及下眼睑,泪囊区恶性肿瘤可能性大(图3)。入院诊断:右眼泪囊区肿物(性质待查)。经患者同意全身麻醉

下行右侧眶内肿物切除术,术中见肿物累及泪囊区、鼻泪管及眶内鼻侧组织,眶内下骨壁骨质有破坏。组织病理学检查示致密纤维结缔组织慢性炎症,伴纤维化及灶状淋巴细胞和浆细胞聚集浸润(图4);免疫组织化学染色示ALK(-)、Bcl-2(+),CD138(-)、CD20(+),CD21(FDC网+),CD3(+),CD34(血

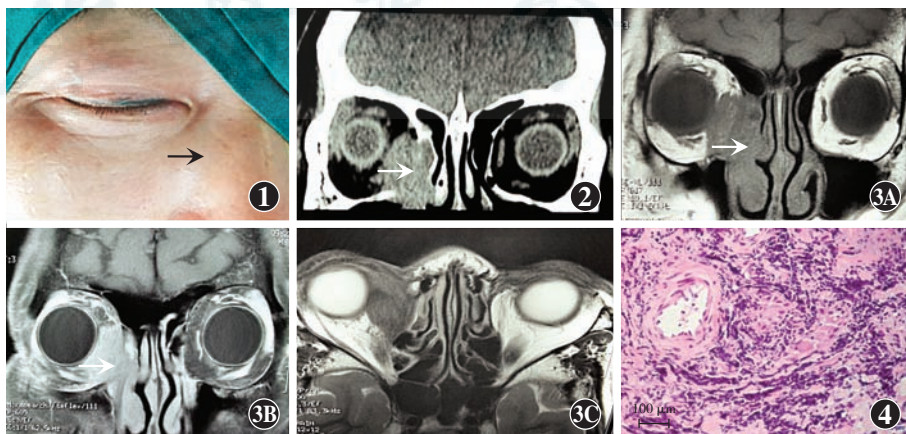


图1 患者右眼眼部外观 可见右侧泪囊区隆起(箭头) 图2 眼部CT像 可见右侧泪囊区占位,眼眶内下壁骨质破坏(箭头) 图3 眼部MRI像 右侧泪囊区及鼻泪管区不规则形肿块,累及右侧内直肌、下斜肌、下直肌及下眼睑(箭头) 图4 右眼泪囊区肿物组织病理学检查(HE×200,标尺=100 μm) 可见致密纤维结缔组织,伴纤维化及灶状淋巴细胞和浆细胞聚集

管+)、CD38(+)、CD43(-)、CD45RO(+)、CD68(-)、CD79 α (+)、CK(-)、IgG(+)、IgG4(-)、Ki-67(+)、P53(-)、PAX-5(+)、SMA(+)、 κ (+)、 λ (弱+)、EBER(-);结合苏木精-伊红染色及免疫组织化学染色结果,组织病理学诊断为炎性假瘤。术后给予糖皮质激素口服,肿块完全消退,随访至今未见复发。

讨论:特发性眼眶炎性假瘤(idiopathic orbital inflammatory pseudotumor, IOIP)又称眼眶炎性假瘤、眼眶炎性综合征,是临床上较为常见的良性非感染性眼眶炎性病变,也是成年人眼眶痛性肿块的常见原因^[1]。IOIP的发病率居甲状腺相关眼病和淋巴增生性疾病之后,约占全部眼眶肿瘤的10%^[2-4]。IOIP的临床表现多样,可表现为急性、亚急性、慢性炎症性病程,治愈后也可复发;可呈局限性肿瘤样病变,也可呈弥散性炎症性病变,并可侵犯眼眶的任何组织结构^[5-6],但发生于泪囊区且破坏附近骨质的IOIP较罕见,目前报道仅1例^[7]。IOIP是原发于眼眶的慢性非特异性炎症增生性疾病,无性别和种族差异,可见于任何年龄,中年人群高发^[4,8],以单眼多见。儿童IOIP与成年人不同,多双眼发病。

目前IOIP具体的病因和发病机制尚未完全明确,李静等^[9]认为IOIP的发生可能与感染、自身免疫、神经内分泌失调等有关。IOIP临床上可表现为眼球突出、上睑下垂、眼球运动障碍、复视、眼部肿痛、结膜充血水肿、视力下降等。按照IOIP所侵犯的部位不同可以分为泪腺炎症型、肌炎型、炎症局部占位型、视神经周围炎型、周围组织纤维化型(巩膜、葡萄膜等组织受累)、弥散性眼眶炎症型、眶尖炎症型等。IOIP的典型病理改变是以小淋巴细胞浸润为主和不同程度纤维结缔组织增生^[5],按照组织病理学特征可将IOIP分为弥漫性淋巴细胞浸润型、硬化型和混合型。IOIP的影像学检查无诊断特异性,主要为炎症样表现,眶骨的侵犯和破坏罕见。张敬学等^[10]对IOIP文献进行了总结,认为在诊断IOIP时,应从临床特征、影像学特征、组织病理学特征等多个方面综合考虑,其中组织病理学检查是确诊IOIP的金标准。

本例患者表现为泪囊区实性占位性病变,CT影像学改变显示右侧眼眶泪囊及鼻泪管区占位性病变,且周围骨质破坏,提示恶性肿瘤可能性大,手术中也发现右侧内下眼眶骨壁骨质破坏。以往我们发现IOIP常致眶骨骨膜增厚及增生,但破坏受累骨质的IOIP罕见,这一点与泪囊区恶性肿瘤相似,应与泪囊鳞癌、泪囊淋巴瘤及泪囊恶性黑色素瘤等恶性肿瘤相鉴别。鳞癌是泪囊原发性肿瘤中常见的类型,毕颖文等^[11]分析了96例原发性泪囊肿瘤患者,其中鳞癌64例,常因泪囊区肿块就诊,泪道冲洗不通畅,CT显示泪囊区不规则肿块,边界清,累及鼻窦,且有周围骨质破坏,彩色多普勒血流显像(color doppler flow imaging, CDFI)可见病变内部有丰富血流信号。恶性黑色素瘤主要好发于下肢、上肢及头颈、躯干,而发生于泪囊区较少见;泪道原发性恶性黑色素瘤呈黑色或灰蓝色实性肿块,早期易误诊为泪囊炎,泪道冲洗有血性分泌物,CT显示泪囊区类圆形高密度影,密度均匀,CDFI提示病变区回声较低,边界清楚,可见频谱血流信号。生理情况下泪囊无真正淋巴组织,泪囊原发淋巴瘤较少见,推测泪囊恶性淋巴瘤可能与泪道壁浸润的淋

巴细胞异常增生有关;患者常有溢泪和泪囊区肿块,CT显示肿块形态不规则,呈塑性生长,罕见骨质破坏。因此,对于泪囊区占位性病变的准确诊断应结合临床表现、影像学和组织病理学结果。

李静等^[12]对IOIP文献进行了回顾,治疗方法包括糖皮质激素治疗、手术治疗、放射治疗、免疫抑制剂治疗等。糖皮质激素是治疗IOIP的一线用药,手术是治疗IOIP主要手段之一,局限性IOIP者可手术切除病变,并应联合组织病理学检查明确诊断。

利益冲突 所有作者均声明不存在利益冲突

参考文献

- [1] Ding ZX, Lip G, Chong V. Idiopathic orbital pseudotumour [J]. Clin Radiol, 2011, 66(9): 886-892. DOI: 10. 1016/j. crad. 2011. 03. 018.
- [2] Weber AL, Romo LV, Sabates NR. Pseudotumor of the orbit. Clinical, pathologic, and radiologic evaluation [J]. Radiolelin North Am, 1999, 37(1): 151-168. DOI: 10. 1016/S0033-8389(05)70084-1.
- [3] Jacob MK. Idiopathic orbital inflammatory disease [J]. Oman J Ophthalmol, 2012, 5(2): 124-125. DOI: 10. 4103/0974-620X. 99380.
- [4] Swamy BN, McCluskey P, Nemet A, et al. Idiopathic orbital inflammatory syndrome: clinical features and treatment outcomes [J]. Br J Ophthalmol, 2007, 91(12): 1667-1670. DOI: 10. 1136/bjo. 2007. 124156.
- [5] Pemberton JD, Fay A. Idiopathic sclerosing orbital inflammation: a review of demographics, clinical presentation, imaging, pathology, treatment, and outcome [J]. Ophthalmic Plast Reconstr Surg, 2012, 28(1): 79-83. DOI: 10. 1097/IOP. 0b013e318238ecf7.
- [6] Hsuan JD, Selva D, McNab AA, et al. Idiopathic sclerosing orbital inflammation [J]. Arch Ophthalmol, 2006, 124(9): 1244-1250. DOI: 10. 1001/archoph. 124. 9. 1244.
- [7] 孙竞, 胡艳, 马国政. 炎性假瘤与恶性肿瘤鉴别困难1例 [J]. 临床眼科杂志, 2003, 11(4): 366.
- [8] Yuen SJ, Rubin PA. Idiopathic orbital inflammation: ocular mechanisms and clinicopathology [J]. Ophthalmol Clin North Am, 2002, 15(1): 121-126. DOI: 10. 1016/s0896-1549(01)00003-7.
- [9] 李静, 马建民. 特发性眼眶炎性假瘤病因及发病机制的研究进展 [J]. 中华实验眼科杂志, 2012, 30(5): 471-475. DOI: 10. 3760/cma. j. issn. 2095-0160. 2012. 05. 020.
- [10] Li J, Ma JM. Etiology and pathogenesis of idiopathic orbital inflammatory pseudotumor [J]. Chin J Exp Ophthalmol, 2002, 15(1): 121-126. DOI: 10. 1016/s0896-1549(01)00003-7.
- [11] 张敬学, 马建民. 特发性眼眶炎性假瘤的诊断 [J]. 中华实验眼科杂志, 2013, 31(3): 310-312. DOI: 10. 3760/cma. j. issn. 2095-0160. 2013. 03. 024.
- [12] Zhang JX, Ma JM. Dignosis of idiopathic orbital inflammatory pseudotumor [J]. Chin J Exp Ophthalmol, 2013, 31(3): 310-312. DOI: 10. 3760/cma. j. issn. 2095-0160. 2013. 03. 024.
- [11] 毕颖文, 陈荣家, 李霞萍. 原发性泪囊肿瘤的临床病理分析 [J]. 中华眼科杂志, 2007, 43(6): 499-504.
- [12] Bi YW, Chen RJ, Li XP. Clinical and pathological analysis of primary lacrimal sac tumors [J]. Chin J Ophthalmol, 2007, 43(6): 499-504.
- [12] 李静, 马建民. 特发性眼眶炎性假瘤的治疗进展 [J]. 中华实验眼科杂志, 2012, 30(6): 571-576. DOI: 10. 3760/cma. j. issn. 2095-0160. 2012. 06. 022.
- [12] Li J, Ma JM. Clinical treatment of idiopathic orbital inflammatory pseudotumor [J]. Chin J Exp Ophthalmol, 2012, 30(6): 571-576. DOI: 10. 3760/cma. j. issn. 2095-0160. 2012. 06. 022.

(收稿日期:2020-06-01 修回日期:2020-11-30)

(本文编辑:刘艳 施晓萌)