

长骨釉质瘤合并骨巨细胞瘤1例并文献复习



朱雅丽¹, 范 梦², 吴 娟^{1,3}, 杨桂芳¹

1. 武汉大学中南医院病理科 (武汉 430071)
2. 武穴市第二人民医院病理科 (湖北黄冈 435400)
3. 枣阳市第一人民医院病理科 (湖北襄阳 441200)

【摘要】长骨釉质瘤和骨巨细胞瘤常为孤立病变,这两种肿瘤并发于一位患者极其罕见。本文报道一例 17 岁女性患者,因右膝疼痛入院,影像提示右股骨下端及右胫骨上端骨质破坏伴软组织影,临床医生考虑骨肿瘤并行肿瘤刮除术,术后病理诊断右股骨病灶为骨巨细胞瘤、右胫骨病灶为长骨釉质瘤,术后恢复良好,随访至今无复发及转移。本文复习相关文献,总结骨巨细胞瘤及长骨釉质瘤临床表现、影像学特点、病理形态特征及治疗方式。

【关键词】长骨釉质瘤;骨巨细胞瘤;病理诊断;骨肿瘤

【中图分类号】R 738.1 **【文献标识码】**A

Adamantinoma of long bones combined with giant cell tumor of bone: a case report and literature review

ZHU Yali¹, FAN Meng², WU Juan^{1,3}, YANG Guifang¹

1. Department of Pathology, Zhongnan Hospital of Wuhan University, Wuhan 430071, China
 2. Department of Pathology, Wuxue Second People's Hospital, Huanggang 435400, Hubei Province, China
 3. Department of Pathology, Zaoyang First People's Hospital, Xiangyang 441200, Hubei Province, China
- Corresponding author: YANG Guifang, Email: YangGF@whu.edu.cn

【Abstract】Adamantinoma of long bone (AD) and giant cell tumor of bone (GCTB) typically present as solitary bone lesions. It is extremely rare for both types of tumors to occur simultaneously in one patient. This article reports a 17-year-old female patient who was admitted to the hospital due to right knee pain. Imagery suggested that the lower of the right femur and the upper of the right tibia had undergone bone destruction with the formation of soft tissue shadows. The clinicians diagnosed bone tumors and perform tumor curettage. The postoperative pathological diagnosis of the right femur lesion was GCTB, and the right tibia lesion was AD. The postoperative recovery was favorable, and no recurrence or metastasis so far. In this paper, we review the relevant literatures and summarize the clinical manifestations, imaging characteristics, pathomorphological features, and treatment modalities of GCTB and AD.

【Keywords】Adamantinoma of long bones; Giant cell tumor of bone; Pathologic diagnosis; Bone tumors

DOI: [10.12173/j.issn.1004-5511.202501032](https://doi.org/10.12173/j.issn.1004-5511.202501032)

基金项目: 湖北省卫生和计划生育委员会联合基金项目 (WJ2018H0018)

通信作者: 杨桂芳, 博士, 教授, 主任医师, 硕士研究生导师, Email: YangGF@whu.edu.cn

长骨釉质瘤是一种罕见的具有上皮和间叶双相分化的骨肿瘤，好发于长骨^[1]。骨巨细胞瘤是具有局部侵袭性但偶有转移的中间性肿瘤，好发于中青年的长骨干骺端，膝关节周围最常见^[2]。长骨釉质瘤和骨巨细胞瘤常为孤立病变，万方数据库、PubMed 中尚未检索到这两种疾病并发于一位患者的文献报道，本文汇报一例长骨釉质瘤合并骨巨细胞瘤病例并文献复习。本研究已获得武汉大学中南医院伦理委员会审批（批号：临研伦[2025041K]）。

1 病例资料

患者，女，17 岁。2021 年 11 月无明显诱因出现右膝隐痛，无外伤史，未行处理。2022 年 2 月从高处摔下后，右膝疼痛加剧，以“右膝隐痛 4 月，摔伤加重 3 天”收入院。专科检查呈右侧股骨小转子处有轻微压痛，右膝关节活动受限，行走时疼痛加剧。

CT 示：右侧股骨下段见低密度骨质破坏区（图 1-A，红色箭头），境界清晰，边缘无硬化，内部密度均匀，左右径 × 上下径 × 前后径约 51 × 53 × 35 mm，邻近骨皮质变薄，后缘皮质可见缺损，未见明显软组织肿物；未见明显骨膜反应；破坏区内上方髓腔可见片状高密度影，境界欠清；破坏区下方边缘处见两枚致密结节影。右侧胫骨上端偏外侧见类圆形低密度骨质破坏（图 1-A，蓝色箭头），边界清晰无硬化，左右径 × 上下径 × 前后径约 40 × 30 × 32 mm，病变上缘突破胫骨平台内侧面，骨质部分缺损，未见明显软组织肿块；未见明显骨膜反应。

MRI 示：右侧股骨下段髓腔内见类圆形混杂信号肿物影（图 1-B，红色箭头），以中心低信号为主，周边见不定形片絮状长 T2WI 信号（图 1-C，红色箭头），未累及关节面，邻近骨皮质完整，未见明显软组织肿块；增强呈轻中度不均匀强化，周边强化为著，中心区可见轻度强化，邻近软组织未见明显异常强化影（图 1-D，红色箭头）。右侧胫骨上端偏外侧见类圆形骨质破坏，呈略短 T1WI（图 1-E，蓝色箭头）、长 T2WI 信号（图 1-C，蓝色箭头），边界清晰，上缘达胫骨平台关节面，病变内部信号均匀，未见明显软组织肿块；增强扫描呈明显均匀强化，邻近软组织未见明显异常强化影（图 1-D，蓝色箭头）。

PET/CT 示：18F-FDG PET/CT 示右侧股骨下段（图 1-F，红色箭头）、右侧胫骨上段（图 1-F，蓝色箭头）见溶骨性骨质破坏伴软组织肿块形成，代谢异常增高，SUV_{max} 分别为 14.8 及 16.0，考虑肿瘤性病变，PET/CT 所示未见淋巴结转移及远处转移。

患者入院后完善相关检查，于我院在腰硬联合麻醉下行“右股骨远端、右胫骨近端肿瘤刮除+骨水泥重建+内固定术”。术中顺利，术后安返病房，给予预防感染、止痛、促进伤口愈合、换药及功能锻炼等治疗，伤口愈合出院。随访 35 个月，患者术后恢复良好，无复发及转移。

病理检查右股骨下段病灶：①大体检查：10 × 7 × 2.5 cm 灰红灰褐不整形碎组织一堆，组织全取。②镜下观察：肿瘤由单核基质细胞和多核巨细胞构成（图 2-A）。单核基质细胞为短梭形、卵圆形或圆形，染色质疏松，可见小核仁，细胞

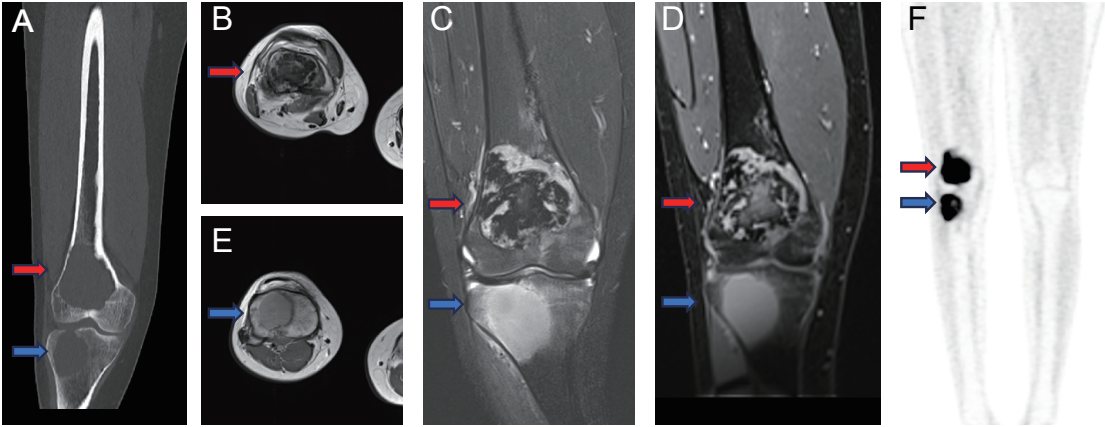


图1 患者影像学特征

Figure 1. Imaging features of the patients

注：A. CT；B. T1WI平扫；C. T2WI抑脂序列；D. T1WI增强；E. T1WI平扫；F. PET/CT。

界限不清。多核巨细胞体积大，细胞边界不规则，均匀地分散在单核基质细胞之间，细胞核数量多，核型与单核基质细胞相似（图2-B）。③免疫组化显示肿瘤细胞表达 H3.3 G34W（图2-C）、P16、SATB2 和 P63，不表达 CK，Ki-67 增殖指数约 10%。④分子检测显示：H3.3 p.Gly34Trp 突变，即 *H3-3A* (*H3F3A*) 基因编码的组蛋白 H3.3 在第 34 位的甘氨酸 (Gly) 被色氨酸 (Trp) 替代（图2-D）。

病理检查右胫骨上段病灶：①大体检查：8×5×2 cm 灰黄灰褐不整形碎组织一堆，其内可见少许骨组织，组织全取。②镜下观察：大部分区域可见梭形细胞与胞浆宽广的上皮样细胞相间排列呈束状、假腺样结构（图3-A），上皮样细胞胖梭形或卵圆形，胞浆丰富，核大小不一，

圆形或卵圆形，淡染，核膜清晰，可见一个或多个小核仁，核分裂象罕见（图3-B），部分区域背景中可见丰富的淋巴细胞浸润（图3-C）。小部分区域纤维性间质明显增生，纤维间质内见小巢状、多角状、条索状排列的上皮样细胞巢散在分布（图3-D），上皮样细胞呈多角形或不规则形，胞浆丰富，细胞核深染（图3-E）。肿瘤周围见少许残留的宿主骨组织。③免疫组化：梭形细胞 Vimentin（图3-F）阳性；上皮样细胞 CK（图3-G）、D2-40（图3-H）、CK5/6 均呈阳性，CK8/18、CD99、NKX2.2、ALK、SS18-SSX、CD31、CD34、ERG、H3.3G34W 为阴性；Ki-67 热点区增殖指数约 5%。④分子检测显示：7 号染色体数目无异常，*H3-3A* (*H3F3A*) 基因突变检测无异常（图3-I）。

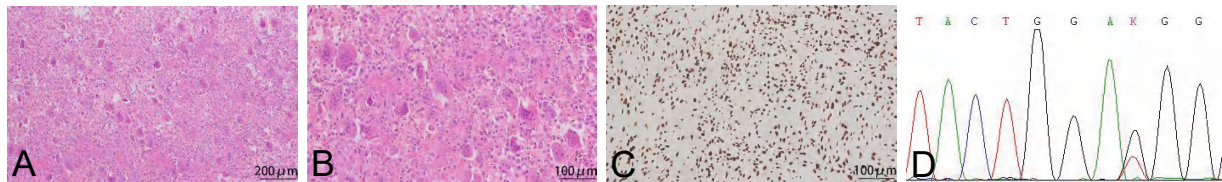


图2 患者右股骨病灶组织病理学特征

Figure 2. Pathological characteristics of the lesion tissue in the right femur of the patient

注：A.主要由单核基质细胞和多核巨细胞构成（HE×100倍）；B.多核巨细胞细胞核数量多，核型与单核基质细胞相似（HE×200倍）；C.H3.3 G34W在单核基质细胞中弥漫着色（EnVision法，IHC×200倍）；D.H3.3 p.Gly34Trp突变。

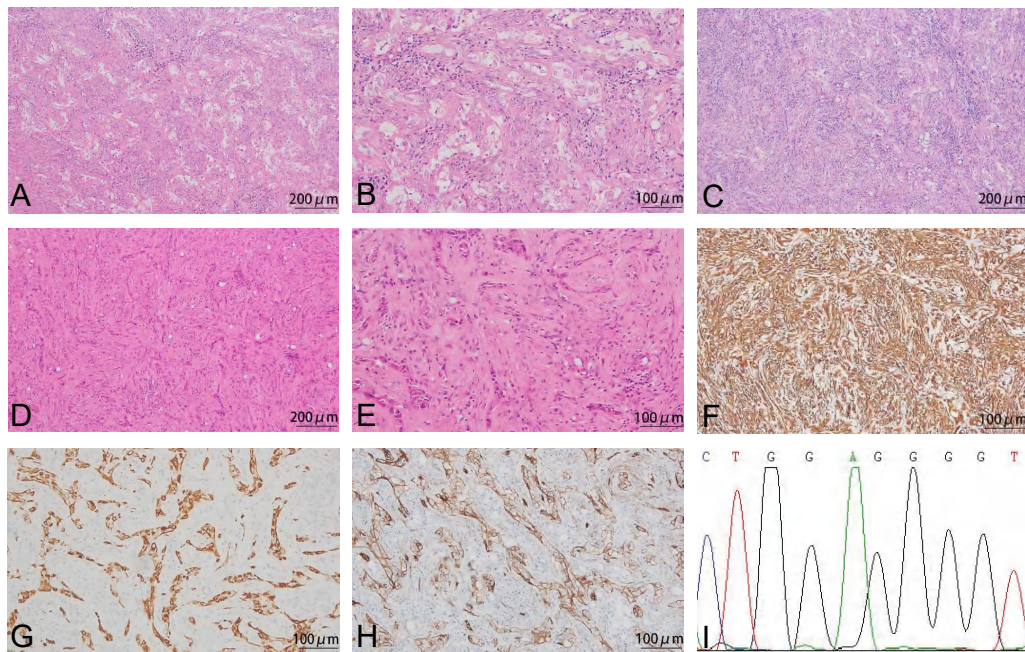


图3 患者右胫骨病灶组织病理学特征

Figure 3. Pathological characteristics of the lesion tissue in the right tibia of the patient

注：A.瘤细胞排列成束状、假腺样结构（HE×100倍）；B.瘤细胞呈胖梭形或卵圆形，胞浆丰富，核淡染，核膜清晰，可见核仁，核分裂象罕见（HE×200倍）；C.背景见大量炎性细胞浸润（HE×100倍）；D.纤维性间质内见巢状、多角状、条索样上皮样细胞巢（HE×100倍）；E.构成上皮样细胞巢的细胞呈多角形，胞浆丰富，细胞核深染（HE×200倍）；F.梭形细胞表达Vimentin（EnVision法，IHC×200倍）；G.上皮样细胞巢表达CK（EnVision法，IHC×200倍）；H.上皮样细胞巢表达D2-40（EnVision法，IHC×200倍）；I.*H3-3A* (*H3F3A*) 基因突变检测无异常。

综上,病理诊断为(右股骨)骨巨细胞瘤,(右胫骨)经典型长骨釉质瘤。

2 讨论

骨巨细胞瘤是一种常见的骨原发中间性肿瘤,具有局部侵袭性,发病高峰为20~45岁,多见于长骨干骺端,尤其是股骨远端和胫骨近端,也可见于骶骨、髌骨等部位^[2-4]。骨巨细胞瘤罕见转移,而肺部是其最常见转移部位^[5]。临床表现主要为发病部位的疼痛肿胀^[6]。典型影像学表现为边缘清晰、无硬化边的偏心溶骨性改变^[7]。本例影像学表现为骨巨细胞瘤病灶位于膝关节周围、关节面下,边界清晰骨质破坏,边缘无硬化,无骨膜反应及软组织受侵,诊断良性或中间性骨肿瘤或肿瘤样病变,倾向于骨巨细胞瘤可能,但病灶距离骨端尚有一段距离,膨胀性不够,这与典型骨巨细胞瘤影像学表现稍有出入。手术是骨巨细胞瘤最主要的治疗手段,目前手术治疗方式包括病灶刮除和整块切除,病灶刮除保存了骨关节的结构,术后功能相对较好,是所有骨巨细胞瘤患者治疗的第一选择。骨水泥在凝固的过程中会释放大量的热量,对瘤腔的残余瘤体进一步灭活,在一定程度上降低复发率^[8]。不可切除或虽可切除但可能引起严重功能障碍者,可使用地舒单抗治疗^[9]。骨巨细胞瘤的镜下组织学形态以多核巨细胞均匀分布在单核基质细胞中为特征。90%~96%骨巨细胞瘤会出现H3-3A(H3F3A)突变,突变类型包括p.G34W、p.G34L、p.G34R和p.G34V等,极少数为野生型^[10]。其中,90%以上的骨巨细胞瘤出现H3.3 p.Gly34Trp突变,免疫组化检测H3.3 G34W阳性表达在骨巨细胞瘤的诊断中具有高度特异性和敏感性^[11]。研究表明,100%的骨巨细胞瘤表达STAB2^[12],60%以上的骨巨细胞瘤表达P63^[13],50%以上的骨巨细胞瘤表达P16^[14]。本例右股骨病灶的临床表现、病理形态特征及免疫表型均符合骨巨细胞瘤这一诊断。

长骨釉质瘤是一种罕见的具有上皮和间叶双相分化的骨肿瘤,占比不足原发性骨肿瘤的0.5%^[1]。因部分长骨釉质瘤的组织学特征与好发于下颌骨的造釉细胞瘤相似,亦将其译为长骨造釉细胞瘤^[15],但是两者的英文名及组织起源均不同,部分学者建议放弃造釉细胞瘤的名称,而

是将其译作长骨釉质瘤,本文支持并采用这一称谓。第五版WHO骨肿瘤分类将长骨釉质瘤分为骨纤维结构不良样型、经典型和去分化型,其中骨纤维结构不良样型长骨釉质瘤的ICD-O编码为9261/1,而经典型与去分化型长骨釉质瘤ICD-O编码为9261/3^[16]。发病年龄广泛,绝大多数发生于胫骨,可同时累及同侧腓骨及周围软组织,还可见于单侧股骨、腓骨、桡骨、肱骨、尺骨等^[1,17]。临床表现无明显特异性,主要为发病部位的疼痛肿胀,病史迁延较长,患者常因长期疼痛或病理性骨折就诊^[18-19]。影像学表现为骨皮质内境界清楚的溶骨性改变,伴病变内阴影、间隔和周围硬化等现象,表现为“肥皂泡模式”^[20]。经典型长骨釉质瘤好发于成年人,肿瘤常向髓腔扩展,几乎累及并完全占据骨髓腔,骨纤维结构不良样型长骨釉质瘤好发于儿童及青少年,肿瘤常局限在骨皮质内,亦可累及骨髓腔但一般不会完全占据^[21]。本例患者因右膝疼痛就诊,影像学提示右胫骨上段溶骨性改变,未累及周围软组织,病变内无阴影和间隔,且周围无硬化边,影像学表现不典型。

长骨釉质瘤在组织学上具有双相分化的特征,由骨纤维成分和上皮样成分以不同方式及比例混杂而成,骨纤维成分由束状或车辐状排列的梭形细胞构成,上皮样成分的形态可以是基底细胞样、鳞状细胞样、管状或梭形等,以前两种最多见^[21-22]。免疫组化标记主要用于准确地识别上皮成分存在与否,通常情况下上皮成分表达高相对分子量细胞角蛋白,如CK、CK5/6、CK14,以及D2-40及鳞状分化标志物p63、p40,而不表达低相对分子量细胞角蛋白CK8/18;纤维成分表达Vimentin,证实该肿瘤双向分化^[23-25]。经典型和骨纤维结构不良样型长骨釉质瘤的组织学区别在于所含上皮样成分的比例,经典型长骨釉质瘤的上皮样成分明显,而骨纤维结构不良样型长骨釉质瘤以编织状骨小梁及纤维成分为主,纤维间质内散在分布少量的簇状上皮样成分,上皮样成分有时不明显,需广泛取材并仔细寻找。而去分化型长骨釉质瘤极其罕见,在组织学上除具有经典型长骨釉质瘤区域外,还出现核分裂象活跃的肉瘤样区域,免疫组化检测该肉瘤样区域可能表达或不表达上皮性标记^[26]。长骨釉质瘤对放化疗均不敏感,以手术切除为主^[27],需要

将肿物完整切除并确保切缘阴性^[19]。患者通常复发较晚,术后需长期监测随访^[28]。本例电话随访 35 个月并进行多次影像学复查,患者术后恢复良好,未见局部复发及远处转移,但仍需长期密切随访。

长骨釉质瘤是罕见的骨肿瘤,临床及影像学表现无明显特异性,组织学特征和其他上皮来源的肿瘤相似,故在临床工作中常易误、漏诊。本例右胫骨病灶镜下少部分区域形态同常见的经典型长骨釉质瘤,呈巢团状上皮样成分散在分布于纤维间质内;大部分区域为胞浆丰富的上皮样细胞与梭形细胞混杂排列成束状、假腺样结构,不同于常见形态学表现。据此镜下形态,本研究对以下肿瘤进行了鉴别诊断:①骨巨细胞瘤:典型的影像学表现为长骨干骺端且侵犯骨髓的膨胀性溶骨性病变,边缘多清楚,无硬化,无明确骨膜反应^[2]。本例长骨釉质瘤在影像学表现上与骨巨细胞瘤类似,难以鉴别。据报道骨巨细胞瘤形态多变,可无多核巨细胞^[29],对右胫骨病灶行 H3.3 G34W 免疫组化染色及 H3F3A 分子检测,结果均阴性,结合形态学可基本排除右胫骨病灶骨巨细胞瘤的诊断。②骨纤维结构不良:多见于 10 岁以内的儿童,几乎只发生于胫腓骨骨干前方的骨皮质内,影像学表现为骨皮质内偏心性溶骨性改变^[27],骨皮质变薄但完整,本例长骨釉质瘤突破骨皮质并占据全部骨髓腔。骨纤维结构不良镜下由纤维间质及编织状骨小梁构成,纤维间质中也可见单个散在、不成巢的上皮细胞,但不会形成簇状的上皮细胞巢,这是二者鉴别最重要的特征^[20]。本例患者为青春期后期,无成骨现象。③釉质瘤样尤因肉瘤:目前多认为该病是尤因肉瘤的亚型,与长骨釉质瘤在年龄、组织形态及免疫表型上存在重叠,但釉质瘤样尤因肉瘤主要发生在头颈部,影像学表现为骨髓腔及骨皮质虫蚀样、渗透性破坏,组织学上肿瘤细胞异型性明显,除表达上皮源性标志物外,还可表达 CD99、NKX2.2 等神经外胚层肿瘤标志物^[30]。本例发生于胫骨上端,免疫组化检测肿瘤细胞 CD99、NKX2.2 结果为阴性。④炎性肌成纤维细胞肿瘤:由增生的梭形细胞和炎性背景共同构成,梭形细胞呈条束状、车辐状排列,罕见于骨,且 50% 以上病例行免疫组化检测 ALK 呈阳性^[31]。本例局部呈条束状伴大量炎细胞浸润,但免疫组化检测

ALK 为阴性。⑤滑膜肉瘤:也可有上皮和间叶双向分化的特征,主要发生在四肢软组织,可侵犯骨组织,罕见骨内原发。肿瘤细胞异型性明显,上皮成分多为腺样结构,免疫组化检测 SS18-SSX 阳性支持其诊断^[32]。本例瘤体主要位于骨皮质内,免疫组化检测 SS18-SSX 结果为阴性。⑥血管源性肿瘤:本例局灶出现大量腔隙样结构,类似血管源性肿瘤,免疫组化检测 CD31、CD34 及 ERG 结果为阴性^[33]。

值得关注的是,长骨釉质瘤和骨巨细胞瘤常为单发病变,以“骨巨细胞瘤”“长骨釉质瘤”“长骨造釉细胞瘤”“giant cell of bone”“treatment”“adamantinoma of long bones”为关键词在万方数据库、PubMed 中进行检索,尚未发现这两种疾病并发于一位患者的文献报道。长骨釉质瘤是一种罕见的骨肿瘤,形态复杂多样,穿刺和小组织活检诊断具有很大挑战性,在遇到类似本例的影像学及组织形态学表现时,应考虑该病的可能性。临床医生和病理医生应提高对本病的认识,在充分大体取材的基础上,结合临床表现、影像学特征、组织形态观察和免疫组化等综合分析,以减少误诊漏诊。

伦理声明:本研究已获得武汉大学中南医院伦理委员会审核批准(批号:临研伦[2025041K])

作者贡献:研究指导、研究设计:杨桂芳、朱雅丽;数据采集:吴娟;论文撰写:朱雅丽、范梦;论文审定:杨桂芳

数据获取:本研究中使用和(或)分析的数据可联系通讯作者获取

利益冲突声明:无

致谢:不适用

参考文献

- 1 Smyth SL, Siddiqi A, Athanasou N, et al. Adamantinoma: a review of the current literature[J]. J Bone Oncol, 2023, 41: 100489. DOI: 10.1016/j.jbo.2023.100489.
- 2 Aoude A, Nikomarov D, Perera JR, et al. Giant cell tumour of bone[J]. Bone Joint J, 2023, 105-B(5): 559-567. DOI: 10.1302/0301-620X.105B5.BJJ-2022-1231.R1.
- 3 林善平, 伍四春. 骶骨巨大骨巨细胞瘤 1 例[J]. 解放军医学杂志, 2006, 31(4): 369. [Lin SP, Wu SC. A case of giant cell tumour of bone of the Sacrum[J]. Medical Journal of Chinese People's Liberation Army, 2006, 31(4): 369.] DOI: 10.3321/j.issn:0577-7402.2006.04.034.

- 4 魏剑, 徐维邦. 少见原发髌骨巨细胞瘤 1 例 [J]. 陆军军医大学学报, 2001, 23(11): 1289. [Wei J, Xu WB. Report a case of osteoclastoma in patella[J]. Journal of Army Medical University, 2001, 23(11): 1289.] DOI: [10.3321/j.issn:1000-5404.2001.11.057](#).
- 5 Trovarelli G, Rizzo A, Cerchiaro M, et al. The evaluation and management of lung metastases in patients with giant cell tumors of bone in the denosumab era[J]. *Curr Oncol*, 2024, 31(4): 2158–2171. DOI: [10.3390/curroncol31040160](#).
- 6 Deventer N, Budny T, Gosheger G, et al. Giant cell tumor of bone: a single center study of 115 cases[J]. *J Bone Oncol*, 2022, 33: 100417. DOI: [10.1016/j.jbo.2022.100417](#).
- 7 Parmeggiani A, Miceli M, Errant C, et al. State of the art and new concepts in giant cell tumor of bone: imaging features and tumor characteristics[J]. *Cancers (Basel)*, 2021, 13(24): 6298. DOI: [10.3390/cancers13246298](#).
- 8 Jha Y, Chaudhary K. Giant cell tumour of bone: a comprehensive review of pathogenesis, diagnosis, and treatment[J]. *Cureus*, 2023, 15(10): e46945. DOI: [10.7759/cureus.46945](#).
- 9 Imre A, Zoltán S, Miklós S. Current indications for denosumab in benign bone tumours[J]. *EFORT Open Rev*, 2023, 8(12): 895–905. DOI: [10.1530/EOR-23-0138](#).
- 10 Ratnagiri R, Uppin S. H3F3A mutation as a marker of malignant giant cell tumor of the bone: a case report and review of literature[J]. *J Cancer Res Ther*, 2023, 19(3): 832–834. DOI: [10.4103/jert.jert_247_21](#).
- 11 Miskad UA, Syamsul F, Dahlan H, et al. Significance of histone H3.3 (G34W)–mutant protein in pathological diagnosis of giant cell tumor of bone[J]. *Asian Pac J Cancer Prev*, 2023, 24(5): 1737–1741. DOI: [10.31557/APJCP.2023.24.5.1737](#).
- 12 张文, 宫丽华, 丁宜. SATB2 是成骨细胞分化的敏感但不特异的标记 [J]. 中国组织化学与细胞化学杂志, 2020, 29(2): 137–143. [Zhang W, Gong LH, Ding Y. SATB2 is a sensitive but not specific marker for osteoblastic differentiation[J]. *Chinese Journal of Histochemistry and Cytochemistry*, 2020, 29(2): 137–143.] DOI: [10.16705/j.cnki.1004-1850.2020.02.006](#).
- 13 郑楷. 骨巨细胞瘤中 p63、Ki-67 的表达及影像学分级与临床病理因素的相关性研究 [D]. 广州: 广州医科大学, 2021. [Zheng K. The correlative study of clinical pathological factors between expression of p63 and Ki-67 and radiological grading in giant cell tumor of bone[D]. Guangzhou: Guangzhou Medical University, 2021.] <https://d.wanfangdata.com.cn/thesis/D02483008>
- 14 Giesche J, Mellert K, Geißler S, et al. Epigenetic lockdown of CDKN1A (p21) and CDKN2A (p16) characterises the neoplastic spindle cell component of giant cell tumours of bone[J]. *J Pathol*, 2022, 257(5): 687–696. DOI: [10.1002/path.5925](#).
- 15 翁海燕, 王志华, 王晓秋, 等. 长骨造釉细胞瘤临床病理分析[J]. 临床与实验病理学杂志, 2007, 23(2): 186–188. [Weng HY, Wang ZH, Wang XQ, et al. Adamantinoma of long bone: a clinicopathological study[J]. *Chinese Journal of Clinical and Experimental Pathology*, 2007, 23(2): 186–188.] DOI: [10.3969/j.issn.1001-7399.2007.02.015](#).
- 16 WHO Classification of Tumours Editorial Board. WHO classification of tumours. Soft tissue and bone tumours. 5th Edition[M]. IARC Press: Lyon, 2020: 463–466.
- 17 Varvarousis DN, Skandalakis GP, Barbouti A, et al. Adamantinoma: an updated review [J]. *In Vivo*, 2021, 35(6): 3045–3052. DOI: [10.21873/in vivo.12600](#).
- 18 Bora N, Kashikar SV, Parihar P, et al. Adamantinoma: an uncommon cause of bone pain in a young adolescent male[J]. *Cureus*, 2023, 15(12): e50214. DOI: [10.7759/cureus.50214](#).
- 19 Schutgens EM, Picci P, Baumhoer D, et al. Surgical outcome and oncological survival of osteofibrous dysplasia-like and classic adamantinomas[J]. *J Bone Joint Surg Am*, 2020, 102(19): 1703–1713. DOI: [10.2106/JBJS.19.01056](#).
- 20 Bethapudi S, Ritchie DA, Macduff E, et al. Imaging in osteofibrous dysplasia, osteofibrous dysplasia-like adamantinoma, and classic adamantinoma[J]. *Clin Radiol*, 2014, 69(2): 200–208. DOI: [10.1016/j.crad.2013.09.011](#).
- 21 Gleason BC, Liegl-Atzwanger B, Kozakewich HP, et al. Osteofibrous dysplasia and adamantinoma in children and adolescents: a clinicopathologic reappraisal[J]. *Am J Surg Pathol*, 2008, 32(3): 363–376. DOI: [10.1097/PAS.0b013e318150d53e](#).
- 22 Jain D, Jain VK, Vasishtha RK, et al. Adamantinoma: a clinicopathological review and update[J]. *Diagn Pathol*, 2008, 3: 8. DOI: [10.1186/1746-1596-3-8](#).
- 23 Hazelbag HM, Fleuren GJ, vd Broek LJ, et al. Adamantinoma of the long bones: keratin subclass immunoreactivity pattern with reference to its histogenesis[J]. *Am J Surg Pathol*, 1993, 17(12): 1225–1233. DOI: [10.1097/00000478-199312000-00003](#).
- 24 Horvai A, Dashti NK, Rubin BP, et al. Genetic and molecular reappraisal of spindle cell adamantinoma of bone reveals a small subset of misclassified intraosseous synovial sarcoma[J]. *Mod Pathol*, 2019, 32(2): 231–241. DOI: [10.1038/s41379-018-0115-6](#).
- 25 Dickson BC, Gortzak Y, Bell RS, et al. p63 expression in adamantinoma[J]. *Virchows Arch*, 2011, 459(1): 109–113. DOI: [10.1007/s00428-011-1101-2](#).
- 26 莫超华, 毛荣军, 谢乐, 等. 长骨釉质瘤及其去分化亚型临床病理分析 [J]. 右江民族医学院学报, 2020, 42(4): 432–436, 441. [Mo CH, Mao RJ, Xie L, et al. Clinicopathological analysis of adamantinoma of long bones and its dedifferentiated subtypes[J]. *Journal of Youjiang Medical University for Nationalities*, 2020, 42(4): 432–436, 441.] DOI: [10.3969/j.issn.1001-5817.2020.04.007](#).
- 27 El Beaino M, Wang WL, Alaraj SF, et al. Osteofibrous dysplasia and adamantinoma: a summary of diagnostic challenges and surgical techniques[J]. *Surg Oncol*, 2021, 38: 101626. DOI: [10.1016/j.suronc.2021.101626](#).
- 28 Houdek MT, Sherman CE, Inwards CY, et al. Adamantinoma of bone: long-term follow-up of 46 consecutive patients[J]. *J Surg Oncol*, 2018, 118(7): 1150–1154. DOI: [10.1002/jso.25269](#).
- 29 Takase H, Kato I, Ito J, et al. Giant cell tumor of bone without giant cells with a long clinical course: a case report[J]. *Int J Surg Pathol*, 2022, 31(2): 190–194. DOI: [10.1177/10668969221098090](#).
- 30 Rooper LM, Bishop JA. Soft tissue special issue: adamantinoma–

- like ewing sarcoma of the head and neck: a practical review of a challenging emerging entity[J]. *Head Neck Pathol*, 2020, 14(1): 59–69. DOI: [10.1007/s12105-019-01098-y](https://doi.org/10.1007/s12105-019-01098-y).
- 31 Wang QA, Chen HW, Wu RC, et al. Update of diagnosis and targeted therapy for ALK⁺ inflammation myofibroblastic tumor[J]. *Curr Treat Options Oncol*, 2023, 24(12): 1683–1702. DOI: [10.1007/s11864-023-01144-6](https://doi.org/10.1007/s11864-023-01144-6).
- 32 Blay JY, Von Mehren M, Jones RL, et al. Synovial sarcoma: characteristics, challenges, and evolving therapeutic strategies[J]. *ESMO Open*, 2023, 8(5): 101618. DOI: [10.1016/j.esmoop.2023.101618](https://doi.org/10.1016/j.esmoop.2023.101618).
- 33 王路润. ERG、D2-40、CD31、CD34 在常见血管源性肿瘤的表达及其诊断意义[D]. 福州: 福建医科大学, 2018. [Wang LR. Expression of ERG、D2-40、CD31、CD34 in patients with common angiogenic tumor[D]. Fuzhou: Fujian Medical University, 2018.] DOI: [10.7666/d.D01580443](https://doi.org/10.7666/d.D01580443).
- 收稿日期: 2025 年 01 月 06 日 修回日期: 2025 年 02 月 21 日
本文编辑: 李绪辉 曹 越

引用本文: 朱雅丽, 范梦, 吴娟, 等. 长骨釉质瘤合并骨巨细胞瘤1例并文献复习[J]. 医学新知, 2025, 35(4): 476–482. DOI: [10.12173/j.issn.1004-5511.202501032](https://doi.org/10.12173/j.issn.1004-5511.202501032).

Zhu YL, Fan M, Wu J, et al. Adamantinoma of long bones combined with giant cell tumor of bone: a case report and literature review[J]. *Yixue Xinzhi Zazhi*, 2025, 35(4): 476–482. DOI: [10.12173/j.issn.1004-5511.202501032](https://doi.org/10.12173/j.issn.1004-5511.202501032).