

Детская рентгенология | Pediatric radiology

ISSN 1607-0763 (Print); ISSN 2408-9516 (Online)
<https://doi.org/10.24835/1607-0763-2020-1-105-112>

Клиническое наблюдение: аневризматическая костная киста у ребенка до и после лечения

© Старосельцева О.А.¹, Мнацаканова И.В.¹, Нуднов Н.В.^{2*}

¹ МРТ-Эксперт Столица; 121151 Москва, Кутузовский проспект, 21, стр.2, Российская Федерация

² ФГБУ «Российский научный центр рентгенорадиологии» Минздрава России; 117997 Москва, ул. Профсоюзная, д. 86, Российская Федерация

Аневризматическая костная киста представляет собой доброкачественное опухолевидное костное поражение с неопределенной этиологией с множеством заполненных кровью полостей.

Как самостоятельная нозологическая форма это заболевание выделено в 1942 г.

Существует несколько теорий этиологии первичной аневризматической костной кисты, включая ответ на травматическое местное кровоизлияние, реактивное поражение вследствие изменения внутрикостного кровотока и истинное новообразование, вторичное к перестройкам генов. Первичный вид аневризматических костных кист необходимо дифференцировать от вторичной формы – последняя развивается на фоне патологии кости. Приблизительно 1/3 всех кист развивается на фоне гигантоклеточной опухоли, остеобластомы или хондробластомы.

Аневризматические костные кисты в основном наблюдаются у детей и подростков, причем 80% встречаются у пациентов молодого возраста (до 20–30 лет). Женщины страдают немного чаще – М: Ж = 1 : 1,16.

Аневризматические костные кисты могут привести к патологическому перелому, который может резко ухудшить симптомы. Внутри позвоночника поражения могут вызывать неврологические нарушения, обусловленные массовым воздействием на спинной мозг или выход из нервных корешков. Поскольку они обычно проявляются в педиатрической популяции, то могут быть затронуты ростовые пластины, приводящие к деформации конечности.

На практике диагностика аневризматической костной кисты может быть трудной. Дифференциальная диагностика включает гигантоклеточную опухоль, фиброзную дисплазию, простую костную кисту, оссифицирующую гематому, хондрому, хондромиксоидную фиброму, энхондрому, гемофильную псевдоопухоль и метастазы. Аневризматическая костная киста не является неопластическим повреждением и очень важно дифференцировать эту нозологию от злокачественных повреждений кости.

В данной статье представлен редкий клинический случай аневризматической костной кисты лобной пазухи и ячеек решетчатого лабиринта у ребенка до и после лечения.

Цель исследования: демонстрация клинического наблюдения аневризматической костной кисты до и после хирургического лечения.

Ключевые слова: аневризматическая костная киста, магнитно-резонансная томография

Авторы подтверждают отсутствие конфликтов интересов.

Для цитирования: Старосельцева О.А., Мнацаканова И.В., Нуднов Н.В. Клиническое наблюдение: аневризматическая костная киста у ребенка до и после лечения. *Медицинская визуализация*. 2020; 24 (1): 105–112. <https://doi.org/10.24835/1607-0763-2020-1-105-112>

Поступила в редакцию: 23.10.2019. Принята к печати: 09.03.2020. Опубликовано online: 22.03.2020.

Clinical case: aneurismatic bone cyst in a child before and after treatment

© Olga A. Staroseltceva¹, Irina V. Mnatsakanova¹, Nikolay V. Nudnov^{2*}

¹ MRI-Expert Capital; Moscow 121151, Kutuzovsky Prospekt, 21, p. 2, Russian Federation

² Federal State Budgetary Institution “Russian Science and Research Center” Ministry of Health of Russia; Moscow 117997, Profsoyuznaya str., 86, Russian Federation



Aneurysmal bone cyst is a benign tumor-like bone lesion with an uncertain etiology with many blood-filled cavities.

As an independent nosological form, this disease was isolated in 1942.

There are several theories of the etiology of the primary aneurysmal bone cyst, including a response to traumatic local hemorrhage, reactive damage due to changes in the intraosseous blood flow, and true neoplasm secondary to gene rearrangements. The primary form of aneurysmal bone cysts must be differentiated from the secondary form – the latter develops against the background of bone pathology. About one third of all cysts develop against the background of a giant cell tumor, osteoblastoma, or chondroblastoma.

Aneurysmal bone cysts are mainly observed in children and adolescents, with 80% occurring in patients under the age of 20–30. Women suffer a little more often M: F = 1: 1.16.

Aneurysmal bone cysts can lead to a pathological fracture, which can dramatically worsen symptoms. Inside the spine, lesions can cause neurological disorders caused by massive exposure to the spinal cord or exit from nerve roots. Since they usually manifest in the pediatric population, growth plates can be affected, resulting in deformation of the limb.

In practice, diagnosing AKC can be difficult. The differential diagnosis includes a giant cell tumor, fibrous dysplasia, a simple bone cyst, ossifying hematoma, chondroma, chondromyxoid fibroma, enchondroma, hemophilic pseudotumor and metastases. ACC is not a neoplastic lesion and it is very important to differentiate this nosology from malignant bone lesions.

This article presents a rare clinical case of aneurysmal bone cyst of the frontal sinus and cells of the ethmoid labyrinth in a child before and after treatment.

Purpose. Demonstration a clinical case of aneurysmal bone cyst before and after surgical treatment.

Keywords: aneurysmal bone cyst, magnetic resonance imaging

Conflict of interest. The authors declare no conflict of interest. The study had no sponsorship.

For citation: Staroseltceva O.A., Mnatsakanova I.V., Nudnov N.V. Clinical case: aneurismatic bone cyst in a child before and after treatment. *Medical Visualization*. 2020; 24 (1): 105–112. <https://doi.org/10.24835/1607-0763-2020-1-105-112>

Received: 23.10.2019.

Accepted for publication: 09.03.2020.

Published online: 22.03.2020.

Введение

Аневризматическая костная киста была впервые описана Drs. Jaffe и Lichenstein в 1942 г., когда они описали повреждения таза и позвоночника, “при вскрытии повреждения и вскрытии его тонкой стенки хирург сразу же столкнулся с большой дырой, содержащей много жидкой крови...” [1]. Тем не менее название аневризматической костной кисты оказалось неправильным, поскольку эти поражения не являются ни аневризматическими, ни действительно кистозными, поскольку у них отсутствует эндотелиальная стенка. Вместо этого эти доброкачественные, расширяющиеся поражения производят полости внутри кости, которые заполняются кровью и выстилаются пролиферативными фибробластами, гигантскими клетками и губчатой костью [2]. Исторически считалось, что они являются результатом повышенного венозного давления, вызывающего экстравазацию содержимого клеток и крови в кистоподобные пустоты в кости [3].

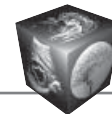
Как правило, образования расположены в метафизе длинных костей, прилегающих к не сросшейся ростовой пластинке, включая бедренную, большеберцовую и малоберцовую кости и верхнюю конечность. Однако они могут присутствовать в позвоночнике, тазу, крестце, ключице, стопе и пальцах [4].

Аневризматические костные кисты состоят из заполненных кровью пространств переменного размера, которые разделены соединительной тканью, содержащей трабекулы костной или остеонной ткани и гигантские клетки остеокластов. Они не выстланы эндотелием [5].

На рентгеновском снимке аневризматические костные кисты классически проявляются в виде эксцентрично расположенных рентгенопрозрачных кистозных поражений, ограниченных тонким слоем кортикальной кости. Трабекуляции в очаге поражения могут придать многослойный вид, который в разговорной речи описывается как “вид мыльного пузыря”. Однако одних только простых рентгенограмм недостаточно для полной характеристики очага поражения [6].

Крмпьютерная томография (КТ) лучше оценивает нарушение кортекса и распространение в мягкие ткани. Кроме того, КТ может демонстрировать уровни жидкости.

Магнитно-резонансная томография (МРТ) способна продемонстрировать характерные уровни жидкости, а также идентифицировать наличие твердого компонента, что позволяет предположить, что аневризматическая киста кости является вторичной. Кисты имеют переменный сигнал с окружающим ободком низкого сигнала T1 и T2.



Фокусные области с высоким сигналом по T1 и T2 также видны, по-видимому, они представляют собой участки крови разного периода. После проведения внутривенного контрастирования может быть усиление МР-сигнала перегородками образования.

Важно помнить, что наличие уровней жидкости, хотя и характерно для аневризматических костных кист, ни в коем случае не является уникальным для них и наблюдается также и в других поражениях, как доброкачественных, так и злокачественных (например, опухоли гигантских клеток, хондробластома, простые костные кисты и телеангиэктатические остеосаркомы) [4].

Клинически пациенты могут испытывать боль в области образования, ограничение движения, припухлость мягких тканей на уровне поражения.

Аневризматические костные кисты могут привести к патологическому перелому, который может резко ухудшить симптомы. Внутри позвоночника поражения могут вызывать неврологические нарушения, обусловленные массовым воздействием на спинной мозг или выход из нервных корешков [7]. Поскольку они обычно проявляются в педиатрической популяции, то могут быть затронуты ростовые пластины, приводящие к деформации конечности и расхождению в длину [6].

Главными целями лечения являются остановка прогрессирования поражения, облегчение боли, предотвращение или стабилизация патологических переломов и снижение частоты рецидивов. С этой целью были описаны различные методы лечения – от хирургических процедур до облучения и медицинской терапии.

Злокачественная трансформация встречается редко и может происходить с использованием или без использования адьювантов во время первичного лечения. Существуют случаи злокачественной трансформации в остеосаркому.

Клиническое наблюдение

Мама пациента Н., 2005 года рождения, обратилась в клинику МРТ-Эксперт Столица 10.02.2019 для прохождения МР-исследования головного мозга с внутривенным контрастированием для своего сына.

Ребенок предъявлял жалобы на безболезненный отек в области верхнего века с января 2019 г., заложенность носа. Травмы, оперативные вмешательства и онкологические заболевания отрицал.

Исследование проводилось на МР-томографе фирмы Siemens с напряженностью магнитного поля 1,5 Тл с использованием стандартных режимов сканирования (T1, T2 и режим жироподавления), а также программы DWI и внутривенного контрастирования в трех взаимно перпендикулярных плоскостях.

При проведении МРТ-исследования головного мозга было выявлено:

- объемное образование в области лобной пазухи с обеих сторон, распространяется в передние и средние ячейки решетчатого лабиринта справа и единичные передние ячейки решетчатого лабиринта слева, в правые отделы полости носа (верхний, средний и частично нижний носовые ходы с деформацией и утолщением всех носовых раковин справа), в область правой орбиты (с деформацией медиальных и верхних отделов орбитальной клетчатки; верхней прямой и медиальной косой мышц глаза) без признаков инвазии в зрительный нерв и глазное яблоко (рис. 1);

- образование неправильной формы, общими максимальными размерами 6,5 × 4,4 × 6,4 см, преимущественно гиперинтенсивного МР-сигнала за счет белкового компонента, неоднородной структуры за счет наличия множественных кист с уровнем седиментации жидкости и включениями гемосидерина (преимущественно по контуру), с четкими неровными контурами, без перифокального отека и признаков ограничения диффузии по DWI (рис. 2);

- с масс-эффектом в виде сдавления прилежащих отделов правой орбиты, лобных долей головного мозга и прилежащих субарахноидальных пространств и борозд (преимущественно справа и минимально – слева) (рис. 3);

- после проведения внутривенного контрастного усиления отмечается нерезкое накопление парамагнетика по контуру кистозных компонентов (рис. 4).

На основании данных анамнеза, клинической картины и результатов МРТ-исследования был поставлен диагноз: МРТ-картина объемного образования лобной пазухи и ячеек решетчатого лабиринта с распространением в правые отделы полости носа и правую орбиту (может соответствовать аневризматической костной кисте). Пациент был прооперирован в ФГАУ “НИИЦ нейрохирургии имени Н.Н. Бурденко”, операционный материал направлен на гистологическое и иммуногистохимическое исследование.

Произведена операция: микрохирургическое удаление объемного образования передних отделов основания черепа с интра- и экстракраниальным распространением с пластикой обширного дефекта основания аутоканьями (расщепленный костный лоскут и надкостничный фартук на “ножке”).

Заключение биопсийного операционного материала: данные гистологического и иммуногистохимического исследований в большей степени соответствуют аневризматической костной кисте.

Послеоперационный период протекал без осложнений. Гемодинамические и соматические показатели в пределах нормы. В неврологическом статусе нарастания дефицита не наблюдалось. Ликвореи не было.

Результаты лабораторных исследований: биохимический и общий анализы крови в пределах нормы.

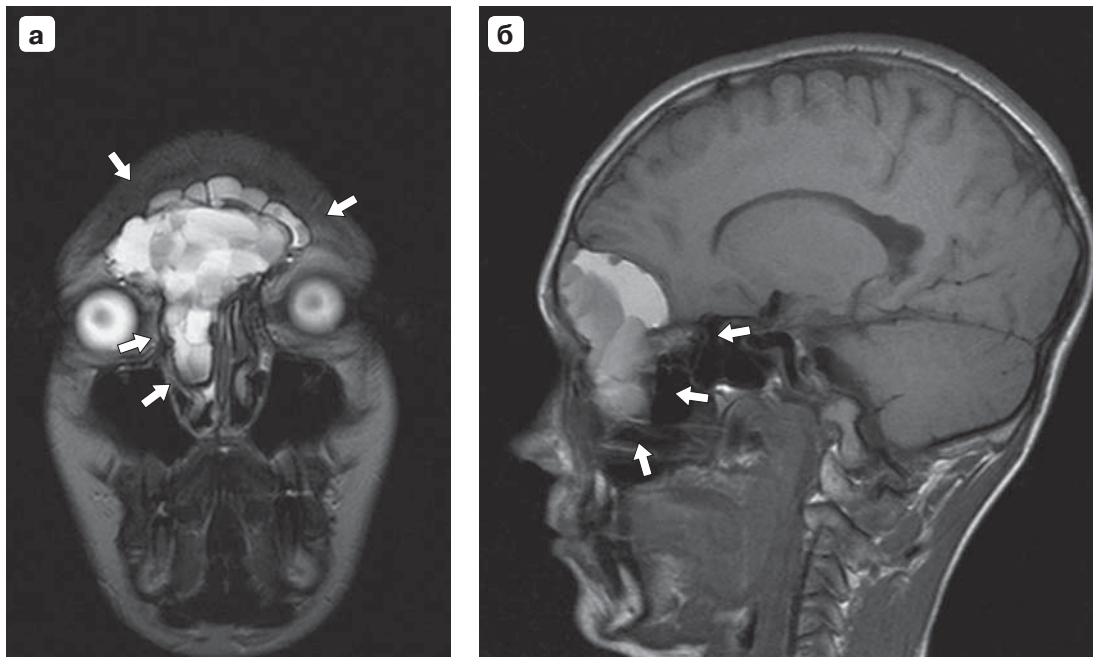


Рис. 1. МР-томограммы. **а** – фронтальная проекция Т2ВИ; **б** – сагиттальная проекция Т1ВИ. Заполнение объемным образованием полости лобной пазухи, распространение в передние и средние ячейки решетчатого лабиринта справа и единичные передние ячейки решетчатого лабиринта слева, в правые отделы полости носа, в область правой орбиты.

Fig. 1. MR-tomograms. **a** – frontal projection T2; **б** – sagittal projection T1. Filling with a volumetric formation of the frontal sinus cavity, spreading to the front and middle cells of the ethmoid labyrinth on the right and single anterior cells of the ethmoid labyrinth on the left, to the right sections of the nasal cavity, to the region of the right orbit.

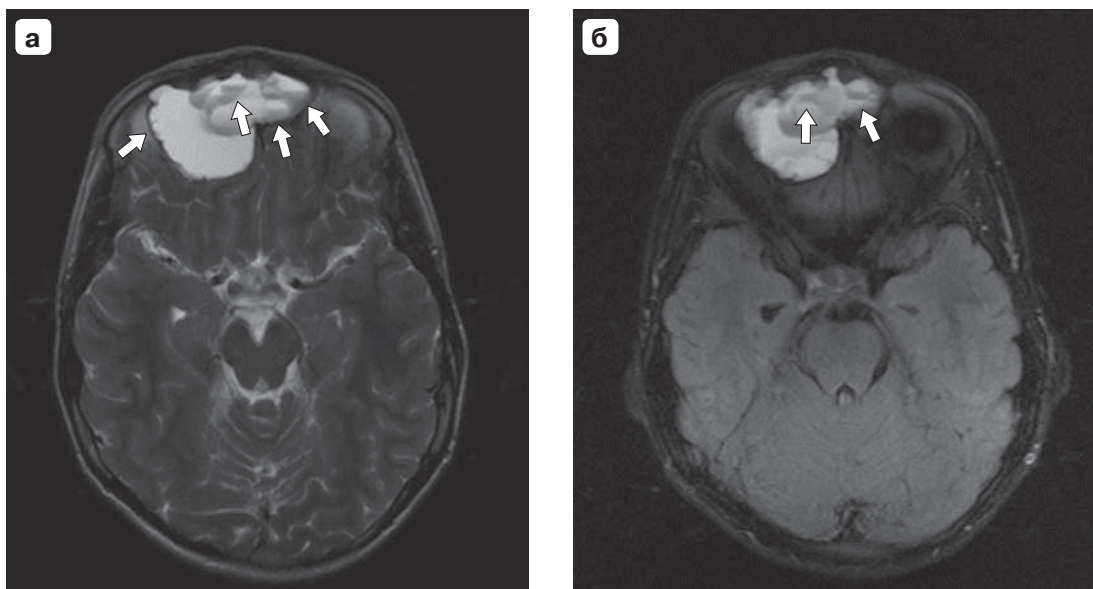


Рис. 2. МР-томограммы. **а** – аксиальная проекция Т2ВИ; **б** – аксиальная проекция FLAIR. Наличие множественных кист с горизонтальным уровнем седиментации жидкости и включениями гемосидерина (преимущественно по контуру).

Fig. 2. MR-tomograms. **a** – axial projection T2; **б** – axial projection FLAIR. The presence of multiple cysts with a horizontal level of sedimentation of fluid and inclusions of hemosiderin (mainly along the contour).

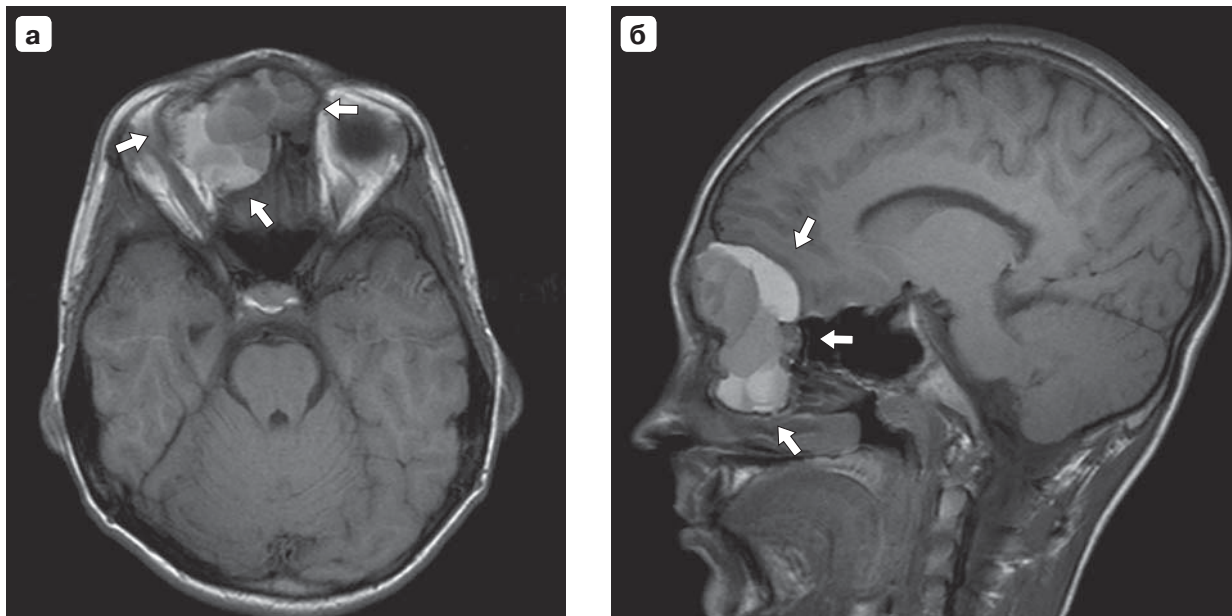


Рис. 3. МР-томограммы. **а** – аксиальная проекция Т1ВИ; **б** – сагиттальная проекция Т1ВИ. Масс-эффект в виде сдавления прилежащих мягких тканей правой орбиты, лобных долей головного мозга и прилежащих субарахноидальных пространств и борозд (преимущественно справа и минимально – слева).

Fig. 3. MR-tomograms. **a** – axial projection T1; **б** – sagittal projection T1. Mass effect in the form of compression of adjacent soft tissues of the right orbit, frontal lobes of the brain and adjacent subarachnoid spaces and grooves (mainly on the right and minimum on the left).

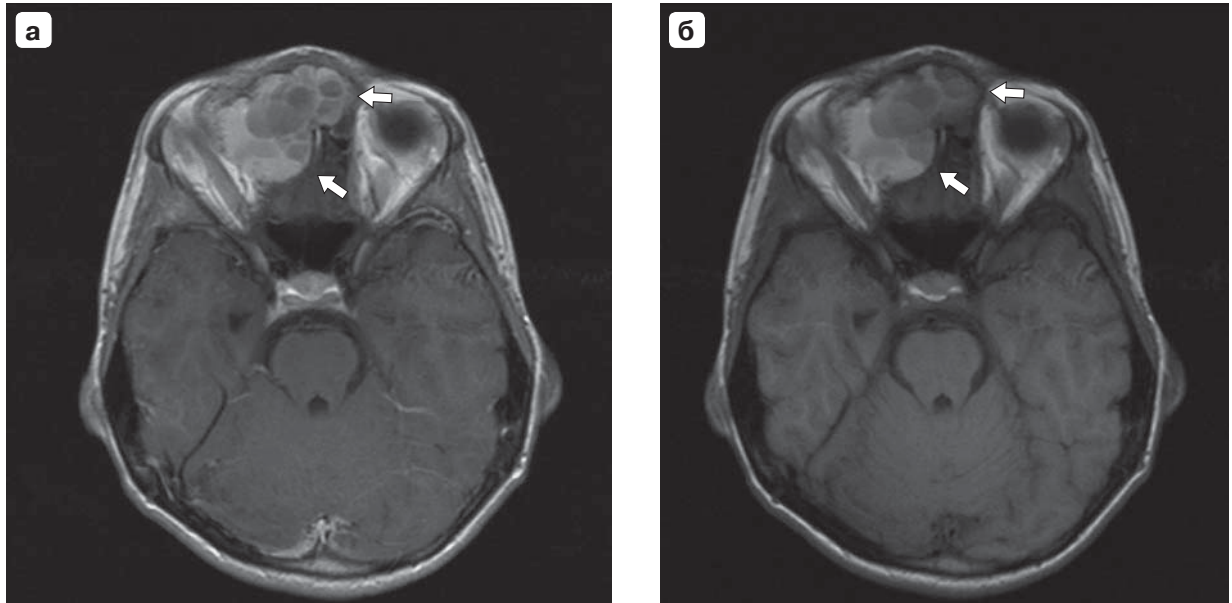


Рис. 4. МР-томограммы в аксиальной проекции до и после введения контрастного препарата. Нерезкое накопление парамагнетика по контуру кистозных компонентов.

Fig. 4. MR-tomograms in axial projection before and after administration of a contrast agent. Unsharp accumulation of paramagnet along the contour of cystic components.

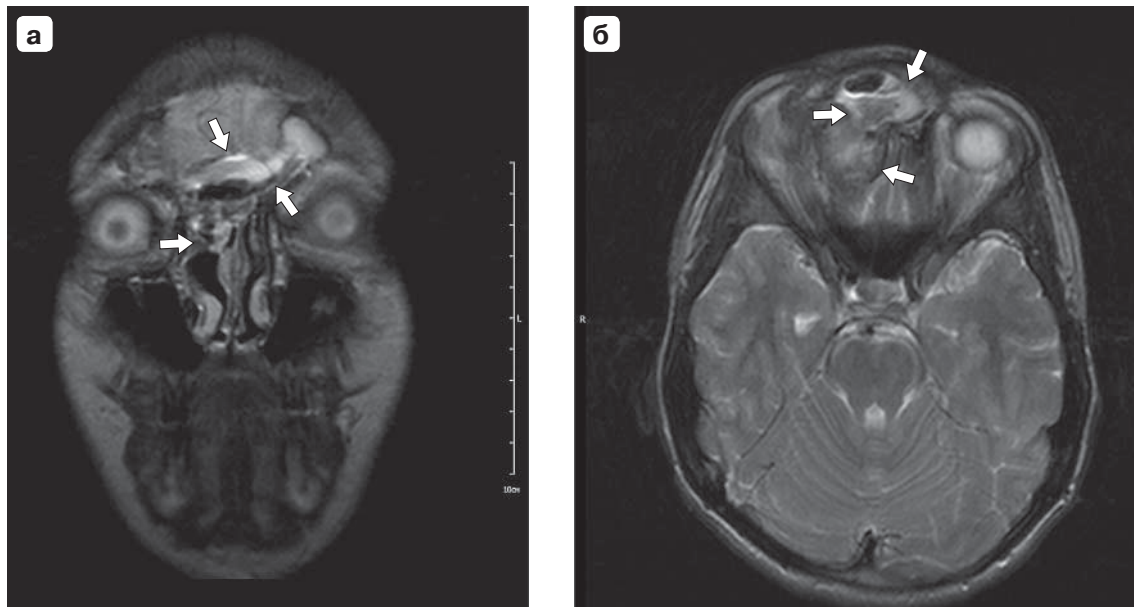


Рис. 5. МР-томограммы. **а** – фронтальная проекция T2ВИ; **б** – аксиальная проекция T2ВИ. Неравномерные воспалительные изменения в области лобной пазухи с обеих сторон.

Fig. 5. MR-tomograms. **a** – frontal projection of T2; **b** – axial projection of T2. Uneven inflammatory changes in the frontal sinus on both sides.

Клинический анализ спинномозговой жидкости: цвет – бесцветный; прозрачность полная; белок – 0,17; цитоз – 1; микроскопия: лимфоциты – 1; нейтрофиллы – 1. Ребенок был выписан в удовлетворительном состоянии.

Спустя месяц после операции пациент обратился в клинику МРТ-Эксперт Смоленск. Состояние ребенка было стабильным, активных жалоб не было. Визуально значительно снизился отек в области верхнего века. При МРТ-исследовании были выявлены следующие изменения:

- неравномерные воспалительные изменения в области лобной пазухи с обеих сторон, распространяющиеся в передние и средние ячейки решетчатого лабиринта справа и единичные ячейки решетчатого лабиринта слева (рис. 5). Сохраняется деформация прилежащих отделов правой лобной доли и правой орбиты и деформация средней носовой раковины справа.

На постконтрастных томограммах определяется контрастное усиление сигнала по контуру лобных пазух и ячеек решетчатого лабиринта – соответствует воспалительному процессу (рис. 6).

В лобных пазухах определяется скопление жидкостного содержимого, гиперинтенсивного по T2ВИ, изоинтенсивного по T1ВИ.

В правой лобной доле определяется зона постоперационных глиозных изменений неправильной формы с нечеткими неровными контурами, размерами 1,8 × 3,1 × 2,2 см (сагиттальный × фронтальный × вертикальный) (рис. 7). В режиме DWI признаков ограничения диффузии не определяется.

По сравнению с предыдущим исследованием определялось:

- отсутствие ранее визуализируемого кистозного образования с белковым содержимым;
- значительное снижение компрессии прилежащих отделов правой орбиты и правой лобной доли.
- отсутствие компрессии левой лобной доли.
- появление глиозных изменений в правой лобной доле.

Обсуждение

Аневризматические костные кисты придаточных пазух носа – довольно редкое явление. Точный и своевременный диагноз имеет решающее значение, поскольку дифференциальная диагностика включает как доброкачественные, так и злокачественные поражения. [4]. Применение МРТ для дифференциальной диагностики опухолей опорно-двигательной системы особо подчеркивается в литературе [8, 9]. Перед операцией по поводу аневризматической костной кисты МРТ проводится, как правило, у всех больных.

В приведенном клиническом случае подтверждено наличие неопластического процесса, уточнена его локализация и распространенность, высказано предположение о морфологической принадлежности данной патологии, что в дальнейшем полностью совпало с данными биопсии. Это позволило хирургам определиться с объемом опе-

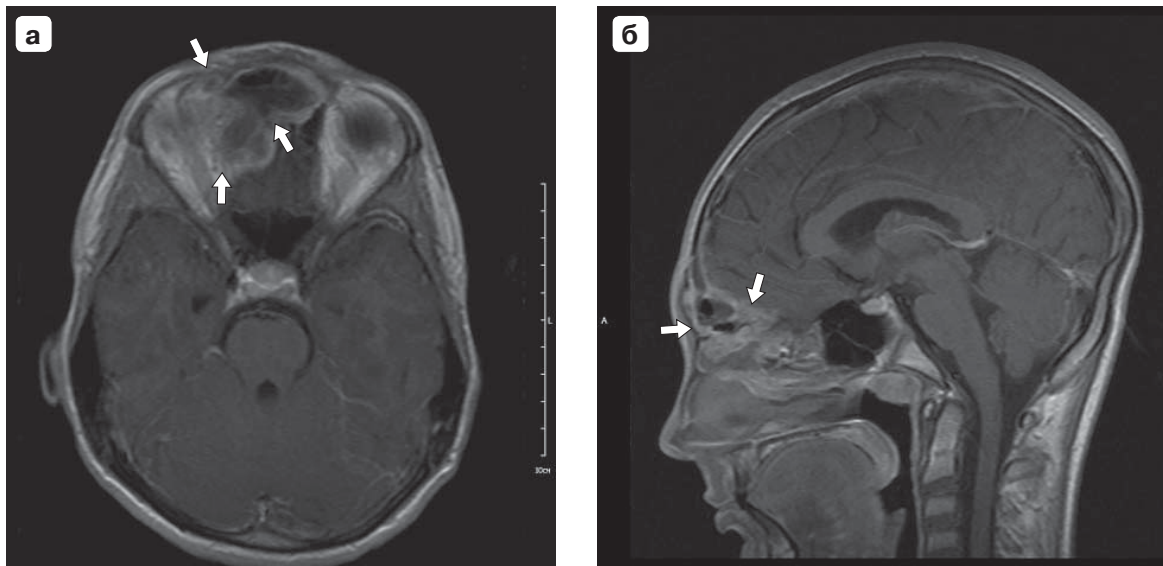


Рис. 6. МР-томограммы после введения контрастного препарата: **а** – аксиальная проекция; **б** – сагиттальная проекция. Контрастное усиление сигнала по контуру лобных пазух и ячеек решетчатого лабиринта.

Fig. 6. MR-tomograms after administration of a contrast preparation. **a** – axial projection; **б** – sagittal projection. Contrast enhancement of the signal along the contour of the frontal sinuses and cells of the ethmoid labyrinth.



Рис. 7. МР-томограммы. **а** – аксиальная проекция FLAIR; **б** – фронтальная проекция T2ВИ. Зона постоперационных глиозных изменений в правой лобной доле.

Fig. 7. MR-tomograms. **a** – axial projection FLAIR; **б** – frontal projection T2. Zone of postoperative gliotic changes in the right frontal lobe.



ративного вмешательства и назначить соответствующее лечение.

Заключение

Высокопольная МРТ занимает важное место в диагностике объемных образований передней черепной ямки и придаточных пазух носа; с высокой точностью позволяет решить проблемы выявления данного патологического процесса и как следствие помочь лечащему врачу определиться с дальнейшей тактикой лечения.

Участие авторов

Старосельцева О.А. – проведение исследования, сбор и обработка данных, статистическая обработка данных, анализ и интерпретация полученных данных, написание текста, участие в научном дизайне.

Мнацаканова И.В. – проведение исследования, сбор и обработка данных, написание текста, подготовка и редактирование текста, участие в научном дизайне, подготовка, создание опубликованной работы, ответственность за целостность всех частей статьи.

Нуднов Н.В. – подготовка и редактирование текста, участие в научном дизайне, подготовка, создание опубликованной работы, утверждение окончательного варианта статьи.

Authors' participation

Olga A. Staroseltceva – conducting research, collection and analysis of data, statistical analysis, analysis and interpretation of the obtained data, writing text, participation in scientific design.

Irina V. Mnatsakanova – conducting research, collection and analysis of data, writing text, text preparation and editing, participation in scientific design, preparation and creation of the published work, responsibility for the integrity of all parts of the article.

Nikolay V. Nudnov – text preparation and editing, participation in scientific design, preparation and creation of the published work, approval of the final version of the article.

Список литературы [References]

1. Jaffe H.L. Solitary unicameral bone cyst. *Arch. Surg.* 1942;44(6):1004. <https://doi.org/10.1001/archsurg.1942.01210240043003>
2. Copley L., Dormans J.P. Benign pediatric bone tumors. Evaluation and treatment. *Pediatr. Clin. N. Am.* 1996; 43 (4): 949–966. [https://doi.org/10.1016/S0031-3955\(05\)70444-2](https://doi.org/10.1016/S0031-3955(05)70444-2)
3. Ye Y., Pringle L.M., Lau A.W., Riquelme D.N., Wang H., Jiang T., Lev D., Welman A., Blobel G.A., Oliveira A.M., Chou M.M. TRE17/USP6 oncogene translocated in aneurysmal bone cyst induces matrix metalloproteinase production via activation of NF-kappaB. *Oncogene.* 2010; 29 (25): 3619–3629. <https://doi.org/10.1038/onc.2010.116>
4. Leithner A., Windhager R., Lang S., Haas O.A., Kainberger F., Kotz R. Aneurysmal bone cyst. A population based epidemiologic study and literature review. *Clin. Orthop. Relat. Res.* 1999; (363): 176–179.
5. Murphey M.D., wan Jaovisidha S., Temple H.T., Gannon F.H., Jelinek J.S., Malawer M.M. Telangiectatic osteosarcoma: radiologic-pathologic comparison. *Radiology.* 2003; 229 (2): 545–553. <https://doi.org/10.1148/radiol.2292021130>
6. Kogan S., Zeng Q., Ash N., Greenes R.A. Problems and challenges in patient information retrieval: a descriptive study. *Proc. AMIA Symp.* 2001: 329–333.
7. Novais E.N., Rose P.S., Yaszemski M.J., Sim F.H. Aneurysmal bone cyst of the cervical spine in children. *J. Bone Jt Surg. Am.* 2011; 93 (16): 1534–1543. <https://doi.org/10.2106/JBJS.J.01430>
8. Revel M.P., Vanel D., Sigal R., Luboinski B., Michel G., Legrand I., Masselot J. Aneurysmal bone cyst of the jaws: CT and MR findings. *J. Comput. Assist. Tomogr.* 1992; 16 (1): 84–86.
9. Schulte M., Sarkar M.R., von Baer A., Schultheiss M., Suger G., Hartwig E. Die Therapie der aneurysma-tischen Knochenzyste. *Unfallchirurg.* 2000; 103: 115–121.

Для корреспонденции*: Нуднов Николай Васильевич – 117997, Москва, Профсоюзная ул., д. 86. Российский научный центр рентгенодиагностики. Тел.: +7-985-224-04-68. E-mail: nudnov@rncrr.ru

Старосельцева Ольга Алексеевна – канд. мед. наук, врач-рентгенолог МРТ-Эксперт Столица, Москва. <https://orcid.org/0000-0001-8230-3686>

Мнацаканова Ирина Владимировна – врач-рентгенолог МРТ-Эксперт Столица, Москва. <https://orcid.org/0000-0001-6437-0551>

Нуднов Николай Васильевич – доктор мед. наук, профессор, заместитель директора по научной работе ФГБУ “РНЦРР” Минздрава России, Москва. <https://orcid.org/0000-0001-5994-0468>

Contact*: Nikolay V. Nudnov – 117997, Profsoyuznaya str., 86, Moscow, Russia. Russian Scientific Center of Roentgenoradiology. Phone: +7-985-224-04-68. E-mail: nudnov@rncrr.ru

Olga A. Staroseltceva – Cand. of Sci. (Med.), radiologist, MRI-Expert Capital, Moscow. <https://orcid.org/0000-0001-8230-3686>

Irina V. Mnatsakanova – radiologist, MRI - Expert Capital, Moscow. <https://orcid.org/0000-0001-6437-0551>

Nikolay V. Nudnov – Doct. of Sci. (Med.), Professor of FSBI “RSCRR” Ministry of healthcare of Russia, Moscow. <https://orcid.org/0000-0001-5994-0468>