

Quiste óseo aneurismático poliostótico.

H. FRAGA GARCIA, J.J. SAMPEDRO COSTAS, J.A. PERNAS PUENTES, I. GONZALEZ GONZALEZ
y J.A. ALVAREZ MARTIN.

*Hospital "Juan Canalejo".
Servicio de Traumatología y Cirugía Ortopédica.
La Coruña.*

Resumen.— Se presenta un caso de quiste óseo aneurismático de localización bifocal, correspondiente a una niña de 12 años de edad. La primera lesión diagnosticada se localizó en la metáfisis proximal de la tibia izquierda y dos años más tarde, se descubrió una lesión similar en el calcáneo derecho.

El estudio individualizado de estas lesiones no demuestra diferencias significativas respecto a las clásicamente descritas para los quistes óseos aneurismáticos genuinos, monostóticos.

En una amplia revisión bibliográfica sólo hemos podido encontrar un caso de localización plurifocal.

Descriptores: Tumores óseos. Quiste óseo aneurismático.

Summary.— A bifocal aneurysmatic bone cyst presenting in a 12-year-old is reported. The first lesion detected was situated in the proximal metaphysis of the left tibia; the second lesion was diagnosed two years later in the right calcaneus. Individual evaluation of these lesions discovered no significant differences with respect to classical monostotic, true aneurysmatic bone cysts. An exhaustive review of the literature yielded only one case exhibiting plurifocal location.

Key Words: Bone tumors. Aneurysmatic bone cyst.

INTRODUCCIÓN

El quiste óseo aneurismático (Q.O.A.) ha sido definido como una entidad anatomo-clínica con personalidad propia en 1942, fecha en la que Jaffe y Lichtenstein lo aislaron del entonces ambiguo tumor de células gigantes (1,2). En aquel momento, quedó delimitada esta afección como una lesión quística del hueso multilobulada con septos conjuntivos que separan diversos compartimentos repletos de sangre fluida o coagulada. En estos tabiques se encuentran fibras colágenas, histiocitos, infiltrado de células hemáticas, depósitos de hemosiderina y células gigantes de tipo osteoclastico, así como osteoide en diversos grados de maduración. Recientemente, lo define la OMS como una lesión osteolítica expansiva, constituida por espacios de tamaño va-

riable, llenos de sangre, separado por tabiques conectivos que contienen trabéculas de tejido óseo u osteoide y células gigantes osteoclasticas, englobándola con otras afecciones en el grupo de las lesiones óseas pseudotumorales (3).

Si bien el Q.O.A. genuino, monostótico, no es una afección rara (3,4,5), así es excepcional su presentación plurifocal, no habiendo sido descrito en las referencias señaladas, así como en los trabajos de Jaffe (1), Lichtenstein (2) y tantos otros estudiosos de la patología tumoral esquelética. Solamente tenemos constancia de un caso descrito por Huttig y Rittmeyer en 1978 (6), correspondiente a un niño de tres meses de edad, con asiento en ocho arcos costales, repartidos en ambos hemitórax y sin afectación vertebral concomitante.

CLASO CLÍNICO

Paciente de doce años del sexo femenino que acude a consulta por dolor en rodilla izquierda de presentación insidiosa y varias semanas de evolución, sin afectación del estado general.

Correspondencia:

Dr. D. ISIDRO GONZALEZ GONZALEZ.
Hospital "Juan Canalejo".
Xubias de Arriba, 84.
15006 La Coruña.

En la exploración física se evidencia una ligera tumefacción en la cara lateral del tercio proximal de la pierna, sin limitación de la movilidad de la rodilla ni otros signos patológicos reseñables.

La analítica convencional de sangre y orina era rigurosamente normal.

La exploración radiográfica puso de manifiesto una lesión lítica, excéntrica, localizada en la vertiente lateral de la metafisis proximal de la tibia, de aspecto unilocular y expandida, bien delimitada aunque con escasa esclerosis marginal; esta imagen era muy sugerente de Q.O.A. (Figura nº 1). Se decide realizar tratamiento quirúrgico mediante curetaje y relleno con injerto óseo. La evolución postoperatoria cursa sin incidentes reseñables.



Figura nº 1. Imagen radiológica del Q.O.A. localizado en metafisis tibial, excéntrica, insuflada, unilocular y con escasa esclerosis marginal.

Tras dos años, la enferma se revisó nuevamente en consulta, refiriendo dolor en el talón derecho. La exploración física no revela patología local, si bien se objetivaba una disimetría de 2 cm. en sus miembros inferiores, así como una moderada escoliosis lumbar. El estudio radiográfico demuestra la existencia de una lesión osteolítica que afecta al flanco medial del calcáneo derecho, con características morfológicas similares a la previamente descrita en la tibia (Figura nº 2). Igualmente,

se constata la incurvación escoliótica a la que hacíamos referencia en la exploración física (Figura nº 3).

En un mismo tiempo quirúrgico se procede al curetaje y relleno de la lesión del calcáneo y a la fijación mediante grapas de Blount de los cartílagos fisarios proximal y distal de la tibia y fémur izquierdos respectivamente, a efectos de compensar la disimetría señalada.

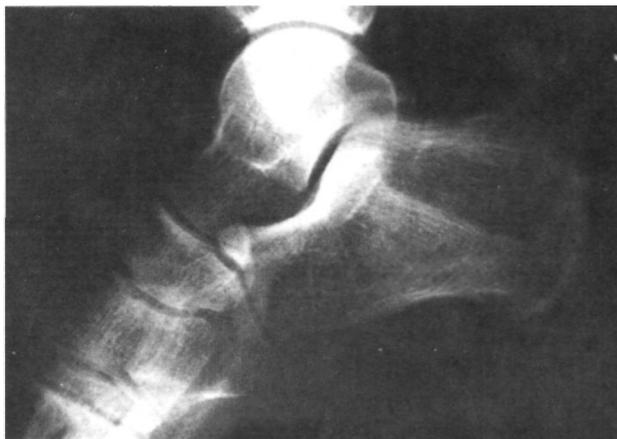


Figura nº 2. A. Visión lateral (A) del Q.O. A. localizado en la cara medial del calcáneo derecho de similares características radiológicas al localizado en tibia.



Figura nº 2. B. Visión axial (B) del Q.O.A. localizado en la cara medial del calcáneo derecho de similares características radiológicas al localizado en tibia.

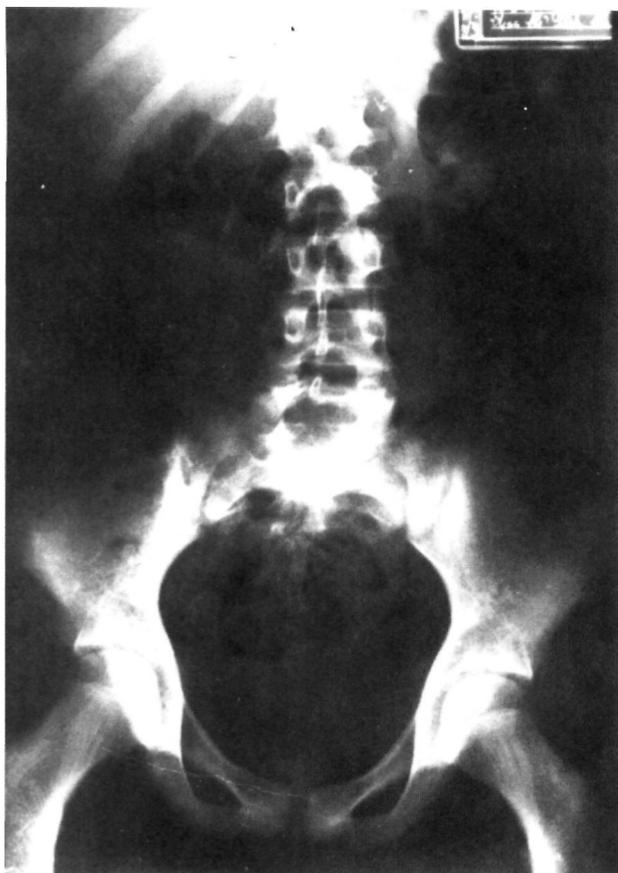


Figura n° 3. Imagen radiológica que muestra leve escoliosis compensadora por disimetría de miembros inferiores consecutiva a cierre precoz de la fisis probablemente ocasionada por cirugía de la lesión tibial.

El estudio anatomopatológico del material extraído tanto del foco tibial como del calcáneo, confirmó en ambos casos las sospechas preoperatorias de Q.O.A., con una morfología fundamental común para las dos localizaciones consistente en la existencia de abundantes canales vasculares, a menudo quísticamente dilatados, rellenos de sangre. Su estroma muestra una infiltración hemática con zonas de hemorragia antigua y macrófagos cargados de hemosiderina, además de tejido fibroso con células fusiformes y células gigantes de tipo osteoclástico. La única diferencia reseñable desde el punto de vista microscópico es la existencia, en la localización calcánea, de un endotelio de revestimiento en las dilataciones quísticas referidas.

En un control clínico-radiográfico verificado recientemente, a los diez años de la primera intervención, se demuestra la evolución favorable de sus lesiones, sin evidencia de recidivas y la corrección parcial de su escoliosis y disimetría.

DISCUSIÓN

Del análisis de nuestro caso y del previamente descrito por Huttig y Rittmeyer (6), no se derivan, a parte de la localización plurifocal, otras caracte-

rísticas diferenciales respecto a los de asiento monostótico.

El Q.O.A. muestra una discreta predilección por el sexo femenino y una marcada mayor incidencia en las tres primeras décadas de la vida.

Puede asentar en cualquier hueso, pero con acusada preferencia por el fémur, tibia y vértebras. Aquí se han descrito casos de afectación plurivertebral, pero a expensas de una invasión por contigüidad, al comprometer en su expansión los discos adyacentes al foco quístico inicial, bien distinto del caso que nos ocupa, en el cual, la lejana topografía de ambos asentamientos deja fuera de toda duda esta posibilidad evolutiva. En los huesos largos se aprecia, con mayor frecuencia, en las metafisis.

Los rasgos clínicos más comunes se manifiestan como dolor de intensidad variable, una mayor sensibilidad a la presión local, así como tumefacción o franco abombamiento del área comprometida. A estos se suele sumar limitación funcional en las localizaciones yuxtaarticulares. A nivel vertebral, se manifiestan por dolor y rigidez y cuando hay compromiso neurológico por parálisis o neuralgia (3,7,8).

Radiológicamente se expresan como una lesión lítica, habitualmente bien definida, que puede ser central pero más frecuentemente excéntrica y que en los asientos metafisarios de los pacientes en desarrollo suele detener su expansión a nivel del cartílago fisario, pudiendo propiciar cambios en la maduración esquelética, tanto estimulando el desarrollo como inhibiéndolo o provocando dismorfismos locales. En nuestro caso, pensamos, que la disimetría de los miembros inferiores bien podría relacionarse con el asiento yuxtafisario del quiste tibial, que además coincide con el cartílago de crecimiento fértil para este hueso. La lesión ósea puede presentar un aspecto insuflado y la cavidad es única o multiloculada, adoptando una imagen en pompas de jabón o en panal de abeja. Dada su rápida evolución expansiva no suele evidenciarse una franca demarcación reactiva esclerosante, al menos en su lado medial. En el área expandida periférica sin embargo, es habitual observar una delimitación bien definida a expensas de la reacción perióstica contigua a la cortical dilatada. A veces, la reacción perióstica puede diseñar imágenes similares al triángulo de Codman, que en ocasiones dieron lugar a problemas de diagnóstico diferencial con el osteosarcoma. En localizaciones epifisarias del adulto joven puede confundirse bien centradas con el quiste óseo esencial.

El diagnóstico positivo queda reservado al estudio anatomopatológico que evidencia un aspecto macroscópico representado por una cavidad quística multilobulada, repleta de sangre. Los septos que la compartimentan son fibrosos, para algunos autores (3) estos septos no están revestidos de endotelio, mientras que para otros (5) el revestimiento no es homogéneo sino discontinuo. En nuestro caso, la capa endotelial está presente en el foco calcáneo y no se observó en el tibial. Pensamos, no obstante, que este parámetro histológico no merece ser enfatizado y a lo sumo, puede abogar o ir en contra de los que invocan la etiopatogenia del Q.O.A. a expensas de un disturbio vascular. Los tabiques están constituidos por fibras colágenas, histiocitos, osteoclastos e infiltrados de células hemáticas y depósitos de hemosiderina. Se encuentran, también, trabéculas óseas y tejido osteoide en diversas fases de remodelación.

La etiología del Q.O.A. es desconocida; aunque se invoca el traumatismo en más del 50% de los casos, no se ha podido comprobar ni explicar su protagonismo en el desarrollo de esta lesión. Lo más probable es que el traumatismo sirva para alertar sobre una lesión preexistente.

La patogenia sigue siendo debatida sin existir hasta el momento ningún argumento concluyente. Para algunos se desarrollaría sobre una hemorragia subperióstica, cobrando particular interés etiológico el traumatismo. Para otros, se trataría de un disturbio vascular del tipo de una trombosis venosa o una comunicación arteriovenosa. Hadders y Oterdoom (9) afirman que el Q.O.A. es una forma de expresión del hemangioma. Lo que hoy está fuera de duda es la posibilidad de que el Q.O.A. se desarrolle sobre una lesión preexistente, habiéndose encontrado al respecto abundante bibliografía, en especial en la última década (3). Se estima que aproximadamente un 30% de los Q.O.A. surgen como alteración de una afección ósea previa, destacando entre ellas: el tumor de células gigantes, condroblastoma, fibroma condromixioide, osteoblastoma, displasia fibrosa, etc..

Coinciden la mayoría de los autores en el hecho de que cuando un Q.O.A. se asocia a otra afección del hueso, representaría un cambio de esta última y no a la inversa. Esta interpretación viene avalada por numerosas observaciones clínico-radiológicas de lesiones quiescentes que súbitamente experimentan cambios en su sintomatología y morfología coherentes con los expuestos para el Q.O.A. genuino. La edad del paciente y la localización estarían, en estos casos, en correspondencia con la lesión preexistente, lo que abundaría en el carácter secundario de este grupo de quistes óseos aneurismáticos. En nuestro caso, no se observaron datos clínicos, radiológicos ni histológicos que permitieran sospechar la preexistencia de otra lesión esquelética. En el trabajo de Huttig y Rittmeyer (6) tampoco aparecen evidencias de lesión subyacente, haciendo específicamente diagnóstico diferencial con la displasia fibrosa poliosfóptica, la encondromatosis múltiple y las lesiones óseas del hiperparatiroidismo primario.

El tratamiento de elección es el quirúrgico, curetaje seguido de relleno de hueso esponjoso o, preferiblemente, resección en bloque cuando el quiste asienta en zonas cuya exéresis no comprometa la función. El curetaje va seguido de un 15 a un 20% de recidivas, más en función de una extirpación incompleta que de una agresividad local exagerada, no habiendo sido descritas en las resecciones en bloque. Las recidivas suelen surgir entre los 6 y 24 meses, siendo excepcionales a partir de los 4 años.

La radioterapia es útil, pero peligrosa, por la eventualidad de interferir con el desarrollo esquelético y el riesgo de desencadenar sarcomas post-radiación. Tillman y cols. (10) han referido tres casos en Q.O.A. irradiados. Por ello, debe reservarse para localizaciones inaccesibles o peligrosas a la cirugía o lesiones de gran tamaño que arriesgarán a un curetaje incompleto. De hecho, no ha sido publicada ninguna observación de malignización de Q.O.A. que no hubiera sido sometido previamente a irradiación.

Bibliografía

- 1.- **Jaffe, H.L.:** Tumors and tumorous conditions of the bone and joint. Lea Febiger. Filadelfia. E.U.A. 1958.
- 2.- **Lichenstein, L.:** Tumores óseos. Ed. Elicien, 1975, 347.
- 3.- **Schajowicz, F.:** Tumores y lesiones pseudotumorales de huesos y articulaciones. Buenos Aires. Ed. Panamericana. 1981, 345.
- 4.- **Dahlin, D.C.:** Bone Tumors. 3° Ed. Springfield, Illinois, Charles C. Thomas, 1978, 110.
- 5.- **Goidanich, I.F.:** Tumori primitivi dell'osso. S.P.A. Poligro. Il Resto del Carlino, Bologna, 1957, 465.
- 6.- **Hüttig, G., Rittmeyer, K.:** Multiple aneurismatische Knochenzysten bei 3 Monate altem Säugling. Fortschr. Röntgenstr. 1978, 6: 796.
- 7.- **Sjput, H. et al.:** Institute of Pathology Armed Forces. Washington D.C. 1971, 197.
- 8.- **Martinez, V., Sissons, H.A.:** Aneurysmal bone cyst. A review of 123 cases including primary lesions and those secondary to other bone pathology. Cancer, 1988, **11**: 2291.
- 9.- **Hadders, H.N., Oterdoom, H.J.:** The identification of aneurysmal bone cyst with hemangioma of the skeleton. J. Path. Bact. 1956, 71: 193.
- 10.- **Tillman, B.P., Dahlin, D.C., Lipscomb, P.R.:** Aneurysmal bone cyst: an analysis of 95 cases. Mayo Clin. Proc. 1968, 43: 478.