

Quiste óseo aneurismático en el húmero distal. Reporte de un caso y tratamiento actual

Aneurysmal bone cyst in distal humerus. Case report and current treatment

Md. Julio Pacheco Morán¹, Md. Santiago Melo²,
Dr. Ramiro Sarmiento³, Dr. Esteban Holguin⁴.

Posgrado de Ortopedia y Traumatología (R3), Universidad Católica del Ecuador, Hospital Metropolitano, Quito-Ecuador¹;

Posgrado de Ortopedia y Traumatología (R2), Universidad Católica del Ecuador, Hospital Metropolitano, Quito-Ecuador²;

Servicio de Ortopedia y Traumatología, Hospital Metropolitano, Quito-Ecuador³;

Servicio de Ortopedia y Traumatología, Subespecialidad Cirugía Oncológica, Hospital Metropolitano, Quito-Ecuador⁴.

Recibido: 16/02/2018 Aceptado: 30/03/2018

Resumen:

El quiste óseo aneurismático es una lesión ósea benigna que se presenta a edad temprana; su comportamiento suele ser agresivo por lo cual, la resección quirúrgica y la prevención de su recidiva son los pilares fundamentales de el tratamiento.

Presentamos el caso de una paciente de 6 años de edad residente en Gualaceo, Ecuador, con masa de crecimiento progresivo y deformante en el codo izquierdo. Por las características de los exámenes de imagen y el cuadro sintomático se dignostica quiste óseo aneurismático que fue tratado con cirugía de resección intralesional y terapia adyuvante (fresado de alta velocidad, coagulación térmica y crioterapia). Se confirmó el diagnostico mediante el estudio histopatológico posquirúrgico.

Revisamos en la literatura las múltiples opciones terapéuticas y sus indicaciones.

Palabras claves: quiste óseo aneurismático, terapia adyuvante, crioterapia, coagulación térmica.

Abstract:

The aneurysmal bone cyst is a benign osseous lesion of presentation at an early age whose behavior is usually aggressive, so its surgical resection and the prevention of its recurrence is the fundamental pillar for the treatment. We present the case of a girl of 6 years of age living in Gualaceo, Ecuador, with a mass of progressive and deforming growth in the left elbow. By characteristics in the imaging tests and clinical picture it was considered as an aneurysmal bone cyst which was treated with intralesional resection surgery and adjuvant therapy (high speed burr, thermal coagulation and cryotherapy). The diagnosis was confirmed with postoperative histopathological study.

We review in the literature the multiple therapeutic options and their indications.

Key words: aneurysmal bone cyst, adjuvant therapy, cryotherapy, thermal coagulation

Correspondencia: Md. Julio Pacheco Morán
Teléfono: (593) 996 400 121
email: jpachecocz5@gmail.com

INTRODUCCIÓN

El quiste óseo aneurismático (QOA) es considerado una neoplasia benigna de comportamiento agresivo, de la cual se concebía que presentaba un sustrato secundario de otras lesiones tumorales como fisiopatología; sin embargo, actualmente se la considera una tumoración primaria cuya patología dista mucho de un tumor vascular (lo que usualmente se entiende por su nombre).

Representa el 1% de todos los tumores primarios óseos y es más frecuente durante las 2 primeras décadas de la vida; no presenta una real predilección entre los sexos. Aunque se ha reportado casos de QOA en casi todos los huesos, su prevalencia es mayor en los huesos largos; v.gr.: fémur, tibia, y húmero; además, pelvis y columna vertebral; los puntos más afectados son la región metafisiaria y diafisiaria¹.

El húmero es un hueso que se afecta de forma relativamente frecuente; sin embargo, la metafisis y la epífisis distal son sitios de presentación poco usual; de hecho, en un reporte de 150 casos estudiados durante 30 años, fue reportado apenas 1 caso en el húmero distal² lo que demuestra la poca información que puede encontrarse.

La base genética descrita en la actualidad es la translocación cromosómica t(16;17) (q22;p13) que modifica el gen de la proteasa específica USP6 que induce una metaloproteasa de matriz extracelular; dicha enzima es responsable de la expansión ósea marcada que se puede evidenciar en esta patología³.

Características generales: microscópicamente se aprecia un número variable de espacios vasculares rodeados de tejido compuesto por fibroblastos, colágeno, células gigantes y hueso inmaduro⁴. Macroscópicamente, es un tumor lobulado con tejido encapsulado friable, de color rojo amarillado, que presenta gran tendencia a sangrar; se encuentra contenido en una estructura ósea semejante a un panal de abejas⁵.

CASO CLÍNICO

Paciente de sexo femenino, 6 años de edad, nacida en Cuenca y residente en Gualaceo, provincia del Azuay. Antecedente patológico personal de asma bronquial en tratamiento con ciclos de fluticasona inhalatoria. No refiere antecedentes quirúrgicos. Peso y talla concordantes con la edad. Esquema de vacunación completo.

Acude porque desde hace 9 meses presenta una masa en el codo izquierdo, de crecimiento progresivo, deformante, que se acompaña de dolor de tipo sordo y limitación en los arcos de movilidad del codo afectado.

DISCUSIÓN

El quiste óseo aneurismático ha evolucionado en cuanto a su entendimiento durante los últimos 60 años desde que Lichtenstein lo describió en 1942³, hasta reconocer su fisiopatología primaria causada por una translocación genética. Sin embargo, permanece clasificado como una lesión de naturaleza neoplásica no definida por la OMS⁶.

Su amplia expansión intramedular acompañada de la fragilidad ósea cortical hace que esta lesión presente al dolor como síntoma alarmante, que puede estar exacerbado por una fractura patológica. La deformidad concurrente es uno de los síntomas que más llama la atención del paciente.

Su comportamiento agresivo y destructivo hace entender que, pese a su benignidad, el tratamiento expectante conlleva pobres resultados⁷, por lo que una intervención cruenta es la mejor opción de tratamiento.

El curetaje de la lesión y el injerto óseo ha sido el tratamiento instaurado durante muchos años, pero su efectividad es variable⁸; sin embargo, actualmente existen nuevos abordajes que se los usa de forma sinérgica y han demostrado ser satisfactorios para controlar la recurrencia.

En el caso expuesto, la paciente presenta QOA de localización atípica y, aunque la biopsia previa determinaba otra estirpe tumoral, se decidió realizar una intervención dirigida a tomar biopsia excisional y efectuar curetaje con broca de alta velocidad (Burr), crioterapia con nitrógeno líquido y adyuvancia con argón. La paciente ha evolucionado de forma satisfactoria y la nueva biopsia confirmó el diagnóstico de quiste óseo aneurismático.



Figura 1. Examen físico: masa de 4 x 4 cm en el tercio distal del brazo izquierdo acompañado de halo eritematoso, cambios tróficos y escoriación cutánea, así como úlcera central con recubrimiento cóstroso. Rangos de movilidad de codo: flexión 80°, extensión 0°, pronación 85°, supinación 60°.



Fi Figura 2. Primera radiografía del codo a los 2 meses de evolución.

La paciente fue valorada en 3 ocasiones previas por facultativos que solicitan exámenes y biopsia que reporta proceso neoplásico compatible con osteoblastoma. Radiografía convencional y tomografía: masa metafisaria dependiente del hueso, radiolúcida, expansiva, lítica, tabicada en su interior y margen radiopaco esclerótico (Figuras 2 y 3).

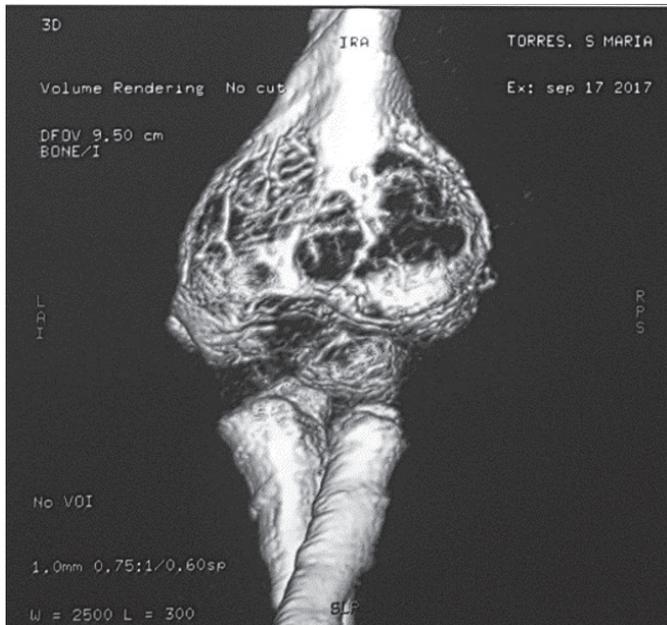


Figura 3. Reconstrucción 3D de la lesión.

Resonancia magnética: todas las secuencias muestran una masa dependiente del hueso con múltiples quistes, niveles líquidos – líquido a manera de panal de abejas, con un margen esclerótico de baja señal y edema en los tejidos óseo y blando adyacentes (Figura 4). A los 9 meses, la lesión muestra patrón agresivo con crecimiento progresivo y zonas de solución de continuidad (Figura 5).



Figura 4. RMN T2 coronal lesión del codo.



Figura 5. Radiografía del codo, 9 meses de evolución.

Por la sintomatología y características imagenológicas se diagnosticó quiste óseo aneurismático del húmero distal izquierdo por lo cual se decide realizar intervención quirúrgica con resección del defecto y terapia intralesional adyuvante.

Mediante abordaje lateral del codo tipo Kocher se accedió a la lesión y encontró una masa sangrante, blanda, que erosiona la pared lateral del húmero distal y respeta la fisis. Se toma muestras para realizar un nuevo estudio histopatológico (Figura 6).



Figura 6. Masa observable en la imagen transquirúrgica.

Se realiza fresado extenso de las paredes y bordes de la lesión y, posteriormente, terapia adyuvante mediante coagulación térmica con gas argón (Figuras 7. A y B).



A.



B.
Figura 7. A. Fresado intralesional con Burr. B. Coagulación térmica con gas argón.



Figura 8. Crioterapia con nitrógeno líquido.

Acto seguido realizamos crioterapia con nitrógeno líquido sobre toda la cavidad y los bordes del defecto (Figura 8).



Figura 9. Defecto post intervención.

Finalmente, en toda la cavidad del defecto, se colocó un injerto óseo sintético tipo granulado y en pasta, se suturó las heridas e inmovilizó (Figuras 9 y 10).



Figura 10. Colocación del injerto óseo.

La evaluación histológica del tumor concuerda con el diagnóstico de QOA (Figura 11).

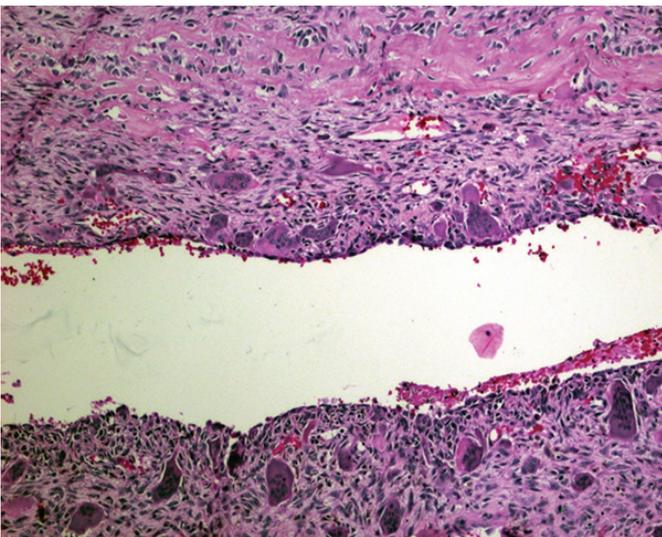


Figura 11. Histopatológico de la lesión.

TRATAMIENTO

Clásicamente, el tratamiento de elección ha sido el curetaje intralesional más injerto óseo dentro del defecto; sin embargo, los índices de recurrencia son muy elevados (59%)⁸; por este motivo se han descrito diversas formas de adyuvancia para disminuir el índice de recidiva.

El objetivo de la radioterapia es destruir las células tumorales en los lugares poco accesibles para la cirugía, siendo la columna vertebral uno de los sitios de aplicación, aunque existen reportes de buenos resultados sin recidivas del tumor⁹; este tratamiento no está exento de complicaciones como los sarcomas post radiación¹⁰.

Los tratamientos de embolización selectiva arterial presentan resultados favorables con un control local del 94% pero la

necesidad de múltiples intervenciones es tan alta (36%)¹¹ que limita su aplicación en las zonas de difícil acceso quirúrgico (pelvis, sacro).

El curetaje con broca de alta velocidad tipo Burr ha mostrado resultados alentadores al realizar una resección mecánica de las paredes tumorales luego de la extracción del contenido de la lesión; hay reportes que muestran un rango de curación de hasta 90% sin requerirse asociar con otras terapias adyuvantes¹².

El argón es un gas inerte que puede ser utilizado como recurso adyuvante porque genera una corriente eléctrica monopolar cuyo objetivo es coagular las paredes de la lesión ósea y, así, limitar el índice de recurrencia. Aunque se ha descrito que junto con otros métodos, como la resección con Burr, puede tener una efectividad del 100% de recurrencia¹³, la coagulación en el hueso puede causar osteonecrosis con fracturas patológicas como consecuencia; además, es una terapia poco difundida en varios centros hospitalarios.

El nitrógeno líquido produce destrucción celular al someter a bajas temperaturas a la lesión, logra bajos índices de recurrencia llegando al 5% en combinación con el curetaje¹⁴; sin embargo, su espectro de complicaciones (lesiones cutáneas, fistulas e infecciones de la piel) requiere que dicho tratamiento sea aplicado con precaución.

El uso de cemento y fenol (ácido carbólico) se sustenta en su efecto exotérmico y limpieza mecánica, respectivamente, como tratamiento adyuvante; no obstante, la evidencia es menos clara que con el resto de tratamientos, pues hay trabajos que demuestran índices de recurrencia similares al del tratamiento con resección con Burr y colocación de injerto.^{15,16}

Actualmente se ha estudiado el tratamiento con mínima invasión y propuesto que el tratamiento sea la propia biopsia para confirmar el diagnóstico; este tratamiento ha adquirido el calificativo de curopia y difiere de la biopsia con aguja en que la obtención de muestra se acompaña de curetaje "percutáneo" de los cuadrantes de la pared tumoral. Este tratamiento tiene 83% de efectividad; sin embargo, muestra una necesidad mayor de reintervención (18.6%) comparado con el tratamiento abierto.^{7,17}

Finalmente, mencionemos que existen alternativas farmacológicas cuyos resultados se muestran favorable para controlar el dolor e incluso la regresión de los tumores osteolíticos, entre ellos el QOA. Los bifosfonatos y el denosumab bloquean la resorción ósea mediada por los osteoclastos lo cual explica su efecto beneficioso. Sin embargo, la evidencia en la población esqueléticamente inmadura es escasa y no han faltado efectos adversos como la osteonecrosis de la mandíbula, etcétera; por lo cual, se mantienen como tratamientos alternativos y aún en estudio.^{18,19,20,21}

CONCLUSIÓN

El tratamiento del quiste óseo aneurismático ha preservado su esencia desde que se describió en el siglo pasado, siendo la resección intralesional la técnica más utilizada y aceptada en el mundo; sin embargo, de manera concomitante con el desarrollo e investigación oncológica, se siguen desarrollando

fármacos y técnicas cada vez menos invasivas con el fin de evitar mayores secuelas, recurrencia y mejora del tiempo de recuperación del paciente. Por este motivo, nuestro servicio mantiene actualizado su arsenal terapéutico para tratar las patologías oncológicas, siempre sustentados en la mejor evidencia disponible.

REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS Y FUENTES DE INFORMACIÓN

1. **John A. Herring MD.** Tachdjian's Pediatric Orthopaedics, 5th edition. Dallas Texas: Elsevier; 2014;pp.1088-1092.
2. **Henry J.** et al. Aneurysmal Bone Cyst: A review of 150 patients. *J Clin Oncol* 2005;23:6756-6762.
3. **Ye Y, Pringle LM, Lau AW,** et al. TRE17/USP6 oncogene translocated in aneurysmal bone cyst induces matrix metalloproteinase production via activation of NF-kappaB. *Oncogene.* 2010;29(25):3619-3629.
4. **Rădulescu R, Bădilă A, Manolescu R, Sajin M, Japie I.** Aneurysmal bone cyst-clinical and morphological aspects. *Rom J Morphol Embryol* 2014;55(3):977-978.
5. **Jaffe HL, Lichtenstein L.** Solitary unicameral bone cyst: with emphasis on the roentgen picture, the pathologic appearance and pathogenesis. *Arch Surg* 1942;44:1004-1025.
6. **Fletcher C.D.M., Unni K.K., Mertens F. (eds).** World Health Organization Classification Tumours. Pathology and Genetics of Tumours of Soft Tissue and Bone. IARC Press: Lyon 2002.
7. **M. Kadhim M. Thacker L. Holmes Jr.** Treatment of unicameral bone cyst: systematic review and meta analysis. *J Child Orthop* (2014) 8:171-191.
8. **Howard Y. Park.** Et al. Current management of aneurysmal bone cysts. *Curr Rev Musculoskelet Med* 2016;9:435-444.
9. **Zhu S, Hitchcock KE, Mendenhall WM.** Radiation therapy for aneurysmal bone cysts. *Am J Clin Oncol* 2015;1.
10. **Papagelopoulos PJ, Currier BL, Shaughnessy WJ,** et al. Aneurysmal bone cyst of the spine. Management and outcome. *Spine (Phila Pa 1976).* 1998;23(5):621-628.
11. **Rossi G, Rimondi E, Bartalena T,** et al. Selective arterial embolization of 36 aneurysmal bone cysts of the skeleton with N-2-butyl cyanoacrylate. *Skelet Radiol* 2010;39(2):161-167.
12. **Gibbs CP, Hefele MC, Peabody TD, Montag AG, Aithal V, Simon MA.** Aneurysmal bone cyst of the extremities. Factors related to local recurrence after curettage with a high-speed burr. *J Bone Joint Surg Am* 1999;81(12):1671-1678.
13. **Cummings JE, Smith RA, Heck RK.** Argon beam coagulation as adjuvant treatment after curettage of aneurysmal bone cysts: a preliminary study. *Clin Orthop Relat Res* 2010;468(1):231.
14. **Schreuder HW, Veth RP, Pruszczynski M, Lemmens JA, Koops HS, Molenaar WM.** Aneurysmal bone cysts treated by curettage, cryotherapy and bone grafting. *J Bone Joint Surg (Br)* 1997;79(1): 20-25.
15. **Kececi B.** Effect of adjuvant therapies on recurrence in aneurysmal bone cysts. *ACTA Orthop Traumatol Turc* 2014;48(5):500-506.
16. **Wallace MT, Henshaw RM.** Results of cement versus bone graft reconstruction after intralesional curettage of bone tumors in the skeletally immature patient. *J Pediatr Orthop* 2014;34(1):92-100.
17. **Krishna. I. A. Reddy , C. L. Gaston, R. J. Grimer, S. R. Carter.** Aneurysmal bone cysts: Do simple treatments Work? *Clin Orthop Relat Res* 2014;472:1901-1910.
18. **Cornelis F, Truchetet ME, Amoretti N,** et al. Bisphosphonate therapy for unresectable symptomatic benign bone tumors: a long-term prospective study of tolerance and efficacy. *Bone* 2014;58:11-16.
19. **Skubitz KM, Peltola JC, Santos ER, Cheng EY.** Response of aneurysmal bone cyst to denosumab. *Spine (Phila Pa 1976).* 2015;40(22):E1201-1204.
20. **Lange T, Stehling C, Fröhlich B,** et al. Denosumab: a potential new and innovative treatment option for aneurysmal bone cysts. *Eur Spine J* 2013;22(6):1417-1422.
21. **Miller PD.** A review of the efficacy and safety of denosumab in postmenopausal women with osteoporosis. *Ther Adv Musculoskelet Dis* 2011;3(6):271-282.