

El quiste óseo aneurismático en niños y adolescentes.

Aneurysmal bone cyst in children and adolescents.

J.E. MARTÍNEZ GIMÉNEZ, J.A. PAGÁN CONESA, J.E. SALINAS GILBERT, M. ALONSO DÍAZ-MARTA.

SERVICIO DE TRAUMATOLOGÍA Y CIRUGÍA ORTOPÉDICA. HOSPITAL GENERAL UNIVERSITARIO DE-ALICANTE

Resumen. Desde el año 1981 hasta el año 1996 hemos tratado en nuestro servicio un total de 12 pacientes con diagnóstico de Quiste Óseo Aneurismático (QOA). Esta entidad clínico-patológica continúa hoy teniendo un origen incierto que en la mayoría de las ocasiones no puede reconocerse. Los tratamientos empleados fueron: legrado e injerto óseo en siete casos, resección en bloque en tres casos, y en 2 casos tratamiento expectante.

Los resultados del tratamiento quirúrgico fueron satisfactorios en el 75 % de los casos, encontrando un 25% de recidivas, que ocurrieron en los pacientes más jóvenes con quistes más agresivos. El tiempo medio de seguimiento fue de 4 años (mínimo 1 - máximo 8). Realizamos en el trabajo, además, una comparación con otros métodos de tratamiento publicados como son la crioterapia intratumoral y la embolización arterial selectiva, los cuales encontramos de utilidad relativa ya que requieren una alta especialización y una selección precisa de los casos. También la radioterapia que tiene una utilidad restringida a aquellos casos de inaccesibilidad operatoria.

Summary. From 1981 to 1996 twelve patients were treated in our orthopaedic department with the diagnosis of Aneurysmal Bone Cyst (ABC). This pathologic and clinical entity has an unknown etiology that in the majority of cases it can't be elucidated. The treatment was: curettage and bone graft in seven cases; en bloc excision in three cases and expectant in two. Surgical treatment results were satisfactory in 75% of cases, with 25% of local recurrences that took place in younger patients with more aggressive cysts. Mean follow-up was four years (range: 1-8). In this study we make a comparison with other methods of treatment reported like intratumoral cryotherapy and selective arterial embolization. We find this methods of relative utility due to their high level of orthopaedist specialization and precise selection of cases. The radiotherapy has restricted application to cases of unresectable tumors.

Introducción. El quiste óseo aneurismático (QOA) es conocido como una lesión pseudotumoral, rara por su baja frecuencia (1% de los tumores primarios de hueso) (1,2), de origen desconocido, pero con una importante agresividad local. Fue descrito inicialmente por Jaffe y Lichtenstein en 1942 (3,4) para diferenciarlo por sus características clínico-patológicas del tumor de células gigantes y de los quistes óseos solitarios, siendo definida como una lesión osteolítica expansiva, constituida por espacios de tamaño variable llenos de sangre separados por tabiques de tejido conectivo, que contienen trabéculas de tejido óseo u osteoide y células gigantes de tipo osteoclastico (5).

Después de más de 50 años, todavía existe controversia a cerca de si constituye por sí solo una entidad radiológica y patológica o bien es el resultado de una alteración fisiopatológica inducida por una lesión preexistente (4,6-9), por todo ello los tratamientos empleados para su curación deben considerarse en cierto modo empíricos. De todos, el más empleado ha sido el legrado y relleno con injerto óseo, el cual por su elevada tasa de recurrencias ha provocado la búsqueda de otros tratamientos, como son la resección marginal o ampliada que ofrece tasas más bajas de recurrencia pero se acompaña de una mayor pérdida de masa ósea y de la necesidad de realizar reconstrucciones; la resección intratumoral asociada a

Correspondencia:

J.E. Martínez Giménez
C/ Torero José Mari Manzanares nº2
bloque 1 esc. 3 3º-izq.
Urb. Villateresa 2.
03005 Alicante
Teléfono: 965925198

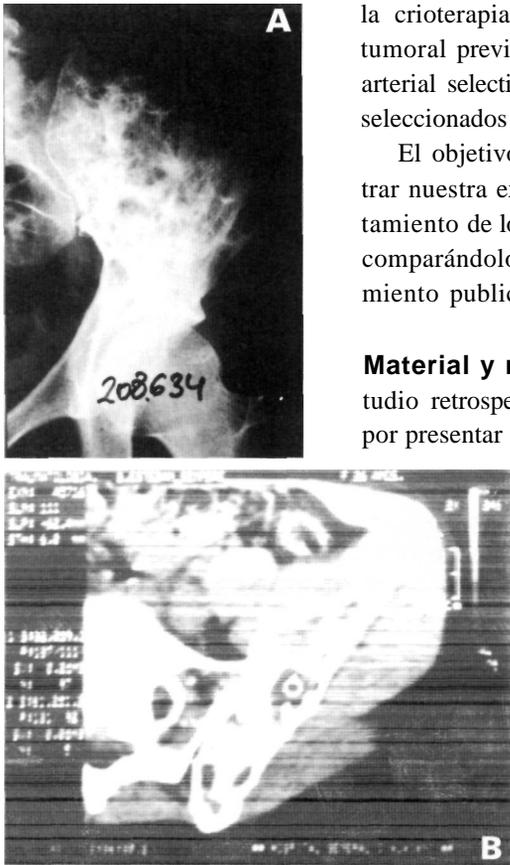


Fig. 1.- a) Radiografía que muestra QOA en ilíaco, inactivo; b) TAC de la misma paciente.

la crioterapia, y también la embolización tumoral previa a la cirugía, la embolización arterial selectiva y la radioterapia para casos seleccionados de difícil abordaje operatorio.

El objetivo del presente trabajo es mostrar nuestra experiencia y resultados del tratamiento de los quistes óseos aneurismáticos comparándolos con otros métodos de tratamiento publicados.

Material y métodos. Realizamos un estudio retrospectivo de 12 pacientes tratados por presentar quiste óseo aneurismático entre

1981 y 1996. Se recogen los datos clínicos de los pacientes referentes a la forma de presentación, localización de la lesión, complicaciones postoperatorias y datos radiológicos, utilizando la clasificación de Campanacci (10) para valorar la agresividad y localización del tumor, así como los datos patológicos de confirmación diagnóstica. Esta clasificación

divide a los tumores en tres categorías: a) quistes agresivos: aquellos cuyos límites están mal definidos y no existe reacción periostica ni osteogénesis reparadora; b) quistes activos: aquellos en los que existe reacción perióstica incompleta con bordes bien definidos; y c) quistes inactivos: aquellos con una reacción perióstica completa y bordes definidos y esclerosos. También recogimos los datos referentes al resultado funcional y la presencia o no de dismetría o desviaciones angulares.

Hemos incluido todos aquellos pacientes con diagnóstico radiológico y patológico compatibles, excluyendo los casos localizados en columna vertebral ya que fueron atendidos por otra unidad de nuestro centro.

Del total de 12 pacientes, siete eran varones y cinco mujeres. La edad media en el momento de la intervención fue de 14 años (mínimo 7 y máximo 26), siendo la mitad de los pacientes menores de 12 años y el tiempo medio de seguimiento fue de 4 años (mínimo 1 y máximo 8).

El tratamiento empleado fue: resección

intralesional (legrado) e injerto en siete casos (autólogo en tres casos, homólogo en cuatro), resección en bloque en tres casos, y en los dos casos restantes no fue precisa la intervención por tratarse de lesiones inactivas radiológicamente y asintomáticas (Fig. 1). En un caso de fractura patológica, añadimos una osteosíntesis en forma de clavo placa en fémur proximal.

La resección intratumoral consistió en la práctica de una ventana ósea lo suficientemente grande como para permitir un legrado amplio de la lesión después de evacuar su contenido hemático, para posteriormente introducir el injerto óseo. Utilizamos torniquete sin expresión venosa mediante elevación de la extremidad en los casos en que pudo aplicarse. Autorizamos la carga en la extremidad tras observar signos de consolidación en la imagen radiográfica.

Resultados. Según la clasificación radiológica de Campanacci encontramos en esta serie 7 casos de tumores activos, 3 agresivos y 2 inactivos, siendo los tipos más frecuentes el II y el III con 10 casos del total (Tabla 1). La forma de presentación más frecuente ha sido el dolor con deformidad de la extremidad en seis casos (50% del total), dolor y cojera en tres casos, fractura patológica en dos y en un caso como hallazgo casual. La localización más frecuente fue la metáfisis proximal de la tibia (cuatro casos) (Fig. 2) y el resto repartido de manera uniforme entre fémur proximal, humero proximal, peroné proximal y hueso ilíaco. Se presentaron tres recidivas locales (25%) a los 5, 6 y 9 meses respectivamente (todas dentro del primer año y en pacientes con fisis activas), que fueron tratadas de nuevo realizándose curetaje ampliado e injerto, tras lo cual sólo en un caso se presentó una segunda recidiva no agresiva que está actualmente en observación. En todos los casos se confirmó el diagnóstico patológico, encontrándose un caso secundario a displasia fibrosa.

Las complicaciones encontradas fueron un caso de genu valgo de 12° y dismetría positiva de 1.4 centímetros a partir de un QOA agresivo tipo III, localizado en meta-

fisis tibial proximal, que recidivó a los seis meses y que precisó de una segunda intervención (Fig. 3); y un caso de paresia de ciático poplíteo externo que se recuperó espontáneamente a los seis meses. No hubo infecciones profundas ni fracturas postoperatorias. Todos los injertos mostraron una incorporación y consolidación progresivas, y tras la última revisión el 91% de los pacientes tenía una función normal de su extremidad en cuanto a fuerza y movilidad y podían realizar de forma normal las tareas de la vida cotidiana.

Discusión. A pesar del gran desarrollo en las últimas décadas de las técnicas de diagnóstico por imagen, poco se ha dilucidado en cuanto al origen de este tumor (5-9,11-15). Se ha aceptado que esta lesión tiene unos rasgos clinico-patológicos propios que la identifican, aunque se ha demostrado su asociación hasta en un 30% de los casos según las series (2,10,16-18) con otros tumores preexistentes, sobre todo el tumor de células gigantes y otros como el osteblastoma, angioma, condroblastoma, displasia fibrosa, fibroma no osificante, quiste oseo solitario, granuloma eosinófilo y traumatismos. Esta lesión además puede simular algunos tumores malignos como el osteosarcoma telangiectásico o el fibrosarcoma por lo que es esencial el diagnóstico de certeza antes de su tratamiento, que depende en su mayor parte del patólogo que reconoce la benignidad o malignidad de la lesión (19,20).

Existe un ligero predominio de la lesión en el sexo femenino (5,21-23), aunque en otras series publicadas es semejante (2,16) o

a favor del masculino como lo es en la nuestra (9,17,18). Esta lesión aparece con mayor frecuencia por debajo de los 20 años (1,2,5,13,18,23), y en los pacientes más jóvenes parece haber una mayor incidencia de agresividad local y de recidivas tras la cirugía (21,24). Así en nuestra serie, los casos de recidiva afectan a pacientes menores de 12 años de edad y con un diagnóstico radiológico de tumor agresivo. Su localización más característica es la metáfisis de los huesos largos, siendo en raras ocasiones encontrado en diáfisis de huesos largos u otras localizaciones (5,18,25-30). Encontramos dos casos en nuestra serie cuya primera manifestación fue la fractura patológica, semejante en incidencia a otras series (2,17,18,31), que probablemente se correlacionan con su localización central (lesiones tipo II). De todos los métodos de tratamiento empleados es la cirugía el de elección para los tumores activos y agresivos, pudiendo quedar el tratamiento expectante para los casos de tumores inactivos en los que está descrito su comportamiento local no agresivo, con una alta probabilidad de curación espontánea (32), aspecto que hemos comprobado en dos de nuestros casos. A diferencia de lo que ocurre con el quiste óseo esencial, las inyecciones intraquísticas de metilprednisolona se



Fig. 2.- a) Radiografías y, b) TAC que muestran QOA en metáfisis tibial proximal de un varón de 14 años; c) y d) imágenes AP y L que muestran la curación a los 6 meses de realizar legrado e injerto óseo.

Tabla 1.

Tabla de resultados del tratamiento del quiste óseo aneurismático

Caso	Sexo/Edad	Localización	Tipo Radiología	Tratamiento	Recidiva	Complicaciones	Seguimiento (años)
1	M/11	Fémur proximal	I activo	Legrado e injerto	Sí		6,5
2	M/8	Tibia proximal	III agresivo	Legrado e injerto	Sí	Dismetria/Valgo	4
3	F/13	Tibia proximal	I agresivo	Legrado e injerto	No		4
4	F/19	Fémur proximal	II activo	Legrado e injerto	No	Paresia de C.P.E.	3
5	M/26	Iliaco	II inactivo		No		6
e	M/26	Iliaco	II inactivo		No		4
7	M/7	Húmero proximal	II agresivo	Legrado e injerto	Sí		8
8	M/10	Peroné proximal	II activo	Resecc. En bloque	No		2,5
9	F/10	Húmero proximal	III activo	Legrado e injerto	No		4
10	F/12	Peroné proximal	II activo	Resecc. En bloque	No		3,5
11	M/14	Tibia proximal	III activo	Legrado e injerto	No		2
12	M/17	Tibia proximal	III activo	Resecc. En bloque	No		1



Fig. 3.- a) Radiografías y b) TAC de QOA en paciente varón de 11 años que recidivó a los 6 meses de ser intervenido mediante legrado e injerto.

muestran poco efectivas en el QOA (16,27).

El método con menor índice de recidivas es la resección en bloque (2,16), sin embargo, aunque consigue la curación, provoca un importante defecto óseo difícil de tratar, sobre todo en tumores de gran tamaño, por lo que se reserva como alternativa tras la recidiva, pero puede ser de primera elección en localizaciones concretas como es la cabeza del peroné, o en tumores de pequeño tamaño y en zonas de hueso no sometidas a carga y accesibles para el cirujano (5,16,33). En segundo lugar la cirugía intralesional es la que mayor difusión ha tenido (5,10,16,18,28,33-38). El método más utilizado es el legrado intratumoral asociado a relleno de la cavidad resultante con hueso esponjoso, que presenta como ventajas el preservar mejor las zonas anatómicas afectadas por el tumor y ser menos agresivo, y como desventaja el arrojar un mayor índice de recidivas que podría englobarse según las series por debajo del 50%. Es importante ser cuidadosos con el cartílago de crecimiento al realizar el legrado en zonas metafisarias, pues su lesión puede provocar una epifisiodesis que dará posteriormente lugar a una disimetría y alteración en el eje (5,16,44). Esta complicación ocurrió en un caso de nuestra serie, en el cual, el quiste estaba en contacto con el cartílago de crecimiento en la tibia proximal.

Para tratar de reducir los fracasos con la

cirugía intralesional, se ha intentado mejorar ésta empleando sustancias que desde el interior del quiste destruyan las células que no hayan sido extirpadas mediante el legrado. Así en algunos centros se está empleando nitrógeno líquido para congelar las paredes del tumor, o bien el PMMA para destruir estas paredes por calor y en un segundo tiempo rellenarlas de hueso. Estos nuevos métodos parecen demostrar a corto plazo un índice de recidivas algo menor, según series entre el 4% y el 12% (Tabla 2) pero tienen un mayor número de complicaciones como son la infección profunda y las fracturas postoperatorias, así como una mayor demanda técnica y experiencia del equipo que utiliza estas sustancias tóxicas (36,37,39,40).

El uso de la radioterapia queda restringido al tratamiento de quistes localizados en zonas inaccesibles al cirujano como son las vertebrae y el sacro, dada su demostrada capacidad para inducir segundos tumores malignos sobre la lesión previa, como el osteosarcoma (10,34,37,40).

En los últimos años se está debatiendo los resultados del tratamiento mediante el empleo de la embolización arterial selectiva, para tumores con una gran vascularización o de gran tamaño y de difícil acceso quirúrgico, así como la embolización tumoral preoperatoria para reducir el tamaño tumoral y el sangrado operatorio (27,41-46).

Agradecimientos:

A los Dres. A. Payá y A. Calderón por la aportación de casos clínicos.

Tabla 2.

Tipos diferentes de tratamiento y recidivas del quiste óseo aneurismático

Autores	irradiación		Legrado + irradiad.		legrado + injerto		Legrado + crioter.		resecc. marg.		resecc. amplia		seguim. medio (meses)	Tiempo 1º recid. (meses)
	N	R	N	R	N	R	N	R	N	R	N	R		
Campanacci (17)	8	2	15	3	91	19			47	0			84	2 a 72
Clough y Price (56)	1	0	2	0	15	8			3	0			79	5 a 48
Freiberg (33)					7	5							>24	<14
Marcove (49)	11	1			44	26	51	9					85	3 a 102
Vergel De Dios (27)	1	0	12	2	124	27					17	0	>24	90% <24
Schreuder (43)							27	1					47	36

Bibliografía

1. **Ballester JA, Sabater A, Salas R, Barrios M.** Quiste óseo aneurismático de cúbito. A propósito de un caso. *Avances* 1993; 23:150-4.
2. **Cottalorda J, Bollini G, Panuel M, Scheiner C, Jouve JL, Labriet C, cols.** Le kiste aneurysmal des os chez l'enfant. *Rev Chir Orthop* 1993; 79:272-80.
3. **Jaffe HL, Lichtenstein L.** Solitary unicameral bone cyst, with emphasis on the roentgen picture, the pathologic appearance and the pathogenesis. *Arch Surg* 1942; 44:1004-25.
4. **Jaffe HL.** Tumores y estados tumorales óseos y articulares. La Prensa Medica Mejicana. Mexico DF; 1996.
5. **Schajowicz F.** Lesiones pseudotumorales. En: Schajowicz F, editor. Tumores y lesiones pseudotumorales de huesos y articulaciones. Buenos Aires: Panamericana; 1981. p. 430-44.
6. **Clough JR, Price CHG.** Aneurysmal bone cyst. Review of twelve cases. *J Bone Joint Surg* 1968; 50B:116-27.
7. **Dabska M, Buraczewski J.** Aneurysmal bone cyst. Pathology, clinical course and radiologic appearance. *Cancer* 1969;23:371-89.
8. **Forest M, Le Charpentier Y, Carlioz A.** Kiste aneurysmal des os maladie ou symptome. *Nouv Presse Med* 1977; 32:2889-90.
9. **Lichtenstein L.** Aneurysmal bone cyst: observations of fifty cases. *J Bone Joint Surg* 1957; 39A:873-82.
10. **Campanacci M, Capanna R, Picci P.** Unicameral and aneurysmal bone cysts. *Clin Orthop* 1986; 204:25-36.
11. **Bonakdarpour A, Levy WM, Aegerter E.** Primary and secondary aneurysmal bone cyst: a radiological study of 75 cases. *Radiology* 1978; 126:75-83.
12. **Edling NR** Is aneurysmal bone cyst true pathologic entity?. *Cancer* 1965; 18:1127-30.
13. **Martínez V, Sissons HA.** Aneurysmal bone cyst. A review of 123 cases including primary lesions and those secondary to other bone pathology. *Cancer* 1988; 61:2291.
14. **Munk R, Helms C, Holt R, Johnston J, Stunbach L, Neuman C.** MR imaging of aneurysmal bone cysts. *A J Radiol* 1988;153:99-101.
15. **Retcliffe PJ, Grimer RJ.** Aneurysmal bone cyst arising after tibial fracture. A case report. *J Bone Joint Surg* 1993; 75A:1225.
16. **Arlet V, Rigault R, Padovani JR, Mallet JF, Finidori C, Touzet PH.** Le kiste aneurysmal des os chez l'enfant. *Rev Chir Orthop* 1987; 73:337-48.
17. **Baró R, Lorenzo JC, Rivas A, Herrera M, Junyent R.** Quiste óseo aneurismático. Estudio clínico, radiológico y patológico. *Rev Ortop Traumatol* 1985; 29:209-22.
18. **Jiménez A, García-Siso A, Curto A, Guaza E.** Quiste óseo aneurismático. Consideraciones sobre su clasificación y tratamiento. *Rev Ortop Traumatol* 1995; 39:18-25.
19. **Ruiter DJ, Van Riessel THG, Van Der Velde EA.** Aneurysmal bone cysts; clinico-pathological study of 105 cases. *Cancer* 1977; 39:2231-9.
20. **Sanjuán A, Ferreres A, Prat S, Macule F, Arandes JM.** Asociación de quiste óseo aneurismático y osteosarcoma telangiectásico. *Rev Ortop Traumatol* 1995; 39:35-39.
21. **Biesecker JL, Marcove RC, Huvos AG, Mike V.** Aneurysmal bone cysts: a clinicopathologic study of 66 cases. *Cancer* 1973; 26:615-25.
22. **Hay MC, Paterson D, Taylor TKF.** Aneurysmal bone cysts of the spine. *J Bone Joint Surg* 1978; 60B:406-11.
23. **Unni KK.** Dahlin's bone tumors. General aspects and data on 11,087 cases. Fifth edition. Lippincott. Raven. Philadelphia; 1996.
24. **Freiberg AA, Loder RT, Heidelberg KR, Hensinger RN.** Aneurysmal bone cysts in young children. *J Pediatr Orthop* 1994; 14:86-91.
25. **Apaydin A, Ozkaynak C, Yilmaz S, Adyildiz F, Sindel T, Turan Aydin A y cols.** Aneurysmal bone cyst of metacarpal. *Skeletal Radiol* 1996; 25:76-78.
26. **Bongioanni F, Assadurian E, Polivka M, George B.** Aneurysmal bone cyst of the atlas: Operative removal through an anterolateral approach. A case report. *J Bone Joint Surg* 1996; 78A:1574-796.
27. **Campanacci M, Ruggieri R.** Lésions pseudotumorales. En: *Encycl Méd Chir. Appareil locomoteur.* Paris: Edition Techniques; 1993. P. 14-030.
28. **Mankin KR, Bischoff RJ, Gelberman RH, Roseberg AE.** Aneurysmal bone cyst involving the lunate. *J Hand Surg* 1995; 20B:12-15.
29. **Platt AJ, Klugman DJ.** Aneurysmal bone cyst of the capitulum. *J Hand Surg* 1995; 20B:8-11.
30. **Shannon R, Bédard Y, Bell R, Kandel R.** Aneurysmal cyst of soft tissue: report of a case with serial magnetic resonance imaging and biopsy. *Human Pathol* 1997; 28:255-7.
31. **Adler CR.** Solid aneurysmal bone cyst with pathologic bone fracture. *Skeletal Radiol* 1995; 24:214-6.
32. **Tillman BP, Dahlin DC, Lipscomb PR, Stewart JR.** Aneurysmal bone cyst. An analysis of ninety-five cases. *Mayo Clin Proc* 1968; 43:478-95.
33. **Szendroi M, Cser I, Konya A, Renyi-Vamos A.** Aneurysmal bone cyst. A review of 52 primary and 16 secondary cases. *Arch Orthop Trauma Surg* 1992; 111:318-22.
34. **Chiriboga C, Pérez M, Veras L, López C, Castellanos J, Mateo X.** Quiste óseo aneurismático. *Rev Ortop Traumatol* 1997; 41:594-8.
35. **Clough JR, Price CH.** Aneurysmal bone cyst: pathogenesis and long term results of treatment. *Clin Orthop* 1973; 97:52-63.
36. **Kransdorf MJ, Sweet DE.** Aneurysmal bone cyst: Concept, controversy, clinical presentation and imaging. *AJR* 1995; 164:573-80.
37. **Marcove RC, Sheth DS, Takemoto S, Healey JH.** The treatment of aneurysmal bone cyst. *Clin Orthop* 1995; 311:157-63.
38. **Vergel AM, Bond JR, Shives TC, McLeod RA, Unni KK.** Aneurysmal bone cyst: a clinicopathologic study of 238 cases. *Cancer* 1992; 69:2921-31.
39. **Ozaki T, Hillmann A, Lindner N, Winkelmann W.** Cementation of primary aneurysmal bone cysts. *Clin Orthop* 1997; 337:240-8.
40. **Schreuder HWB, Veth RPH, Pruszczynski M, Lemmens JAM, Schraffordt H, Molenaar WM.** Aneurysmal bone cyst treated by curettage, cryotherapy and bone grafting. *J Bone Joint Surg* 1997;79B:20-5.
41. **Amillo JR, Cañamares Sio L, Fernández Bayón J, Peidró L, García F.** Quiste óseo aneurismático del iliaco. Presentación de un caso. *Rev Ortop Traumatol* 1989; 6:621-4.
42. **Aquerreta JD, Bilbao JI, San Julian MR, Fernández A, Villas C, Lecumberri FJ.** Quiste óseo aneurismático. Embolización terapéutica y seguimiento radiológico. *Rev Ortop Traumatol* 1989; 31B:191-4.
43. **Dick HM, Bigliani LU, Michelsen WJ, Johnston AD, Stinchfield FE.** Adjuvant arterial embolization in the treatment of benign primary bone tumors of children. *Clin Orthop* 1979; 139:133-41.
44. **Green A, Bellemore MC, Marsden FW.** Embolización in the treatment of aneurysmal bone cysts. *J Pediatr Orthop* 1997; 17:440-3.
45. **Koci TM, Mehringer CM, Yamagata N, Chiang F.** Aneurysmal bone cyst of the thoracic spine: evolution after particulate embolization. *AJNR* 1995; 16:857-60.
46. **Schoedel K, Shankman S, Desai R.** Intracortical and subperiosteal aneurysmal bone cysts: a report of three cases. *Skeletal Radiol* 1996; 25:455-9.