

Lipoma intraóseo, un tumor óseo benigno infrecuente: presentación de dos casos intervenidos quirúrgicamente y revisión de la literatura.

S. PÉREZ-ORTIZ¹, J. PERALTA-NIETO¹, JM. PELAYO-DE TOMÁS^{1,2}, JA. BLAS-DOBÓN¹, J. HURTADO-CEREZO¹, JL. RODRIGO-PÉREZ^{1,2}.

¹ SERVICIO DE CIRUGÍA ORTOPÉDICA Y TRAUMATOLOGÍA. HOSPITAL UNIVERSITARIO DR. PESET, VALENCIA. ESPAÑA.

² DEPARTAMENTO DE CIRUGÍA, FACULTAD DE MEDICINA. UNIVERSIDAD DE VALENCIA, ESPAÑA.

Resumen. *Introducción.* Los lipomas intraóseos son tumores benignos raros y de etiología poco clara. La mayoría cursan de manera asintomática, diagnosticándose de manera accidental en pruebas de imagen realizadas por otros motivos, y los sintomáticos presentan una clínica inespecífica. Radiográficamente pueden confundirse con otras entidades como fibromas simples o quistes. *Material y métodos.* Se presentan los casos de dos pacientes, de 39 y 25 años, que acuden a nuestro centro con una tumoración en tercio proximal de tibia derecha y distal de fémur izquierdo respectivamente sin signos inflamatorios y de crecimiento lentamente progresivo. En la radiografía simple se observa una lesión lítica intraósea bien definida, expansiva y sin disrupción cortical. En TC y RM predomina el tejido lipomatoso, siendo compatible con lipoma intraóseo. Las pacientes son intervenidas mediante la exéresis de la tumoración, confirmándose el diagnóstico de lipoma intraóseo tras su estudio anatomopatológico. *Resultados.* En el postoperatorio disminuye la tumefacción y dolor y, al 6º mes, las pacientes se encuentran asintomáticas y sin signos radiográficos de recurrencia. *Conclusiones.* Los lipomas intraóseos son lesiones que pueden pasar desapercibidas fácilmente siendo difícil su diagnóstico en radiografías simples de manera aislada, por lo que son necesarias otras pruebas de imagen, como la TC y RMN, para su diagnóstico y el estudio histopatológico para su confirmación. El tratamiento es conservador en los casos asintomáticos y quirúrgico en los sintomáticos, siendo rara la recurrencia y la malignización.

Intraosseous lipoma, an infrequent benign bone tumor: presentation of two surgically operated cases and review of the literature.

Summary. *Introduction.* Intraosseous lipomas are rare and benign tumors of unclear etiology. Most of them are asymptomatic, being accidentally diagnosed during imaging tests performed for other reasons and they usually have unspecific clinical presentations. Radiographically, they can be confused with other entities as non-ossifying fibromas or simple cysts. *Methods.* We report two cases, a 39-year-old and a 25-year-old Caucasian female patients, referred to our hospital with a mass in the proximal third of the right tibia and distal femur respectively with slowly progressive growth. In conventional X-ray images and computed tomography, a well-defined, expansive intraosseous lytic lesion without cortical disruption was observed in both cases. Magnetic resonance imaging demonstrated predominance of lipomatous tissue signal, being compatible with intraosseous lipoma. The patients underwent excision of the tumor, confirming the diagnosis of intraosseous lipoma after pathological study. *Results.* In the immediate postoperative period, swelling and pain decreased and at the 6th-month postoperative follow-up the patients are asymptomatic and without radiographic signs of recurrence. *Discussion.* Intraosseous lipomas are tumors that can go easily unnoticed, being difficult to diagnose on conventional X-ray images. Because of that, other imaging tests, such as CT and MRI, are necessary for diagnosis and histopathology for confirmation. Conservative treatment in asymptomatic patients and surgery in symptomatic cases is recommended. Recurrence and malignant transformation of these tumors is rare.

Correspondencia:
Sergio Pérez Ortiz
Servicio COT Hospital Universitario Dr. Peset.
Avda. Gaspar Aguilar nº 90.
46017 Valencia.
Correo electrónico: serperort@gmail.com

Introducción

Los lipomas intraóseos son tumores benignos de baja incidencia compuestos por tejido adiposo¹⁻⁴. Su etiología es controvertida, siendo para algunos autores una neoplasia benigna primaria y para otros una lesión ósea reactiva a un traumatismo o un infarto óseo^{5,6}.

La mayoría son asintomáticos, diagnosticados como hallazgo incidental al realizar pruebas de imagen por otros motivos⁷. En los casos sintomáticos se suelen presentar con una clínica inespecífica de dolor sordo, hiperestesia o tumefacción^{1,4,8,9}.

Su aspecto radiográfico puede llevar a la confusión con otras entidades como fibromas no osificantes, displasia fibrosa o quistes simples entre otros^{1,2,7,10,11}. Otras pruebas de imagen más sensibles como la tomografía computarizada (TC) o la resonancia magnética (RM) son de ayuda, pero se recomienda la confirmación mediante un examen histopatológico para el diagnóstico definitivo¹.

En este artículo se presentan dos casos de lipomas intraóseos intervenidos quirúrgicamente en nuestro centro y una revisión de la literatura de esta patología.

Material y métodos

Caso 1

Una paciente de 39 años acude a nuestro centro por una tumoración dolorosa en tercio proximal de tibia derecha, de crecimiento progresivo, de 4 años de evolución. A la exploración, no se observan signos inflamatorios ni infecciosos y la movilidad de la rodilla es completa.

En la radiografía simple (Fig. 1a) se observa una lesión lítica intraósea bien definida en tercio proximal de tibia derecha. En la TC se aprecia una lesión intramedular expansiva en la diáfisis proximal de tibia derecha

de, aproximadamente, 27 x 27 x 80 mm con adelgazamiento, sin destrucción, de la cortical con zonas escleróticas intermedias; y en la RM destaca un predominio de la señal correspondiente a tejido lipomatoso en el interior de la lesión, sin afectación de partes blandas ni realce de la lesión tras la administración de contraste intravenoso (IV), orientando al diagnóstico de una lesión no agresiva de estirpe lipomatosa, probablemente un lipoma intraóseo (Fig. 1b).

Caso 2

Una paciente de 25 años acude a nuestro centro por dolor en tercio distal de fémur izquierdo, de 2 años de evolución. A la exploración, no se observan signos inflamatorios ni infecciosos y la movilidad de la rodilla es completa.

En la radiografía simple (Fig. 2a) se observa una lesión lítica intraósea bien definida en tercio distal de fémur. En la TC se aprecia una lesión intramedular en la diáfisis distal de fémur izquierdo de, aproximadamente, 22 x 29 x 85 mm que contacta con la cortical posterior con adelgazamiento de la misma, sin destrucción, con predominio de tejido lipomatoso interpuesto entre trabéculas óseas y tejido escleroso; y en la RM destaca un predominio de la señal correspondiente a tejido lipomatoso en el interior de la lesión, sin afectación de partes blandas ni realce de la lesión tras la administración de contraste IV, orientando al diagnóstico de un probablemente un lipoma intraóseo (Fig. 2b).

Al tratarse de una lesión sintomática en ambos casos, se decide intervención quirúrgica, tras la firma de consentimientos informados, para la exéresis del tumor.

Técnica quirúrgica

Previo a la intervención, la lesión se indentifica mediante radioescopia intraoperatoria. Bajo anestesia



Figura 1. a: Imagen de radiografía simple de tibia derecha; lesión intraósea lítica bien definida. **b:** Imagen de resonancia magnética en secuencia T1 (izquierda) y tomografía computarizada (derecha); lesión intramedular expansiva sin disrupción de la cortical con predominio de la señal correspondiente a tejido lipomatoso.

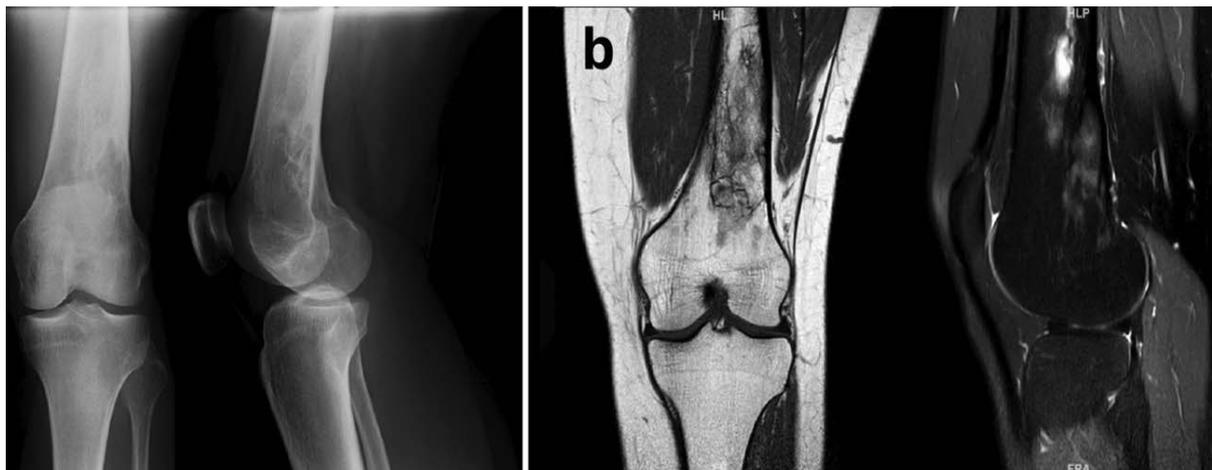


Figura 2. a: Imagen de radiografía simple de fémur izquierdo; lesión intraósea lítica bien definida. b: Imagen de resonancia magnética en secuencia T1 (izquierda) y SPIR (derecha); lesión intramedular de bordes mal definidos con adelgazamiento de la cortical y predominio de la señal correspondiente a tejido lipomatoso.

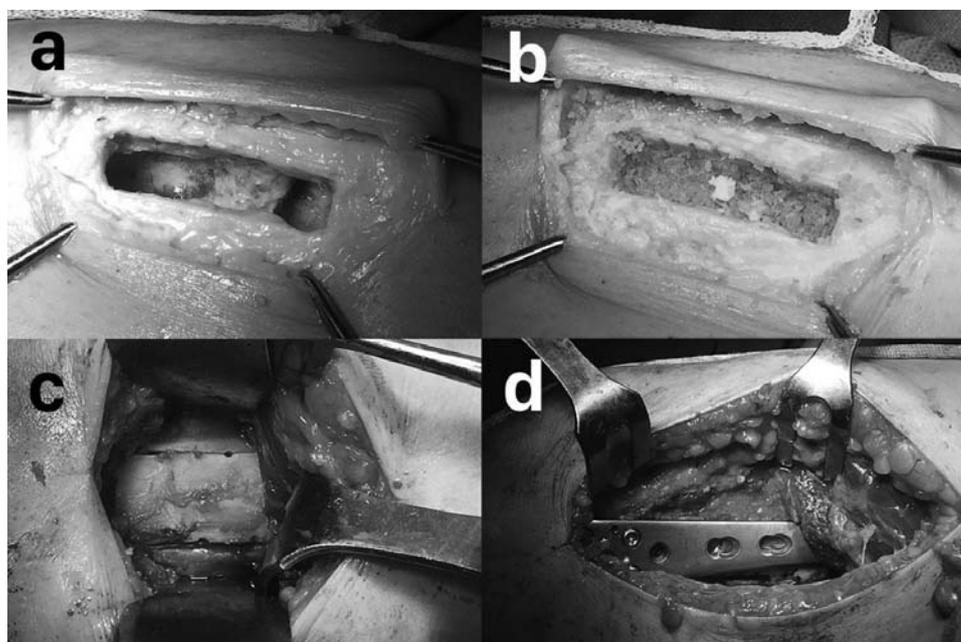


Figura 3. Imagen intraoperatoria. a: sarcófago en diáfisis tibial para acceder al tumor. b: relleno con aloinjerto óseo y chips de hueso esponjoso tras el curetaje. c: cobertura del defecto óseo con la tapa ósea retirada previamente. d: placa de estabilización tipo LCP (LISS, Synthes®) de 5 orificios sobre la tapa ósea del fémur.

e isquemia del miembro se lleva a cabo una incisión centrada sobre la lesión. Realizamos una ventana ósea en la cortical ósea marcando los límites del sarcófago con una broca y completando los cortes con una sierra oscilante para acceder a la cavidad medular. Se localiza la lesión de aspecto lipomatoso con hueso escleroso circundante en ambos casos. Se procede a su exéresis completa, se remite la muestra al servicio de Anatomía Patológica, y se realiza curetaje de los bordes esclerosos a través de la ventana (Fig. 3a). Se irriga el espacio remanente con fenol y se rellena el defecto con aloinjerto de cabeza de fémur y chips de hueso esponjoso (Allosource™, Biomedical™) (Fig. 3b). La tapa ósea

retirada previamente se utiliza para cubrir el defecto (Fig. 3c). En el caso de la exéresis del tumor femoral, se coloca una placa de estabilización tipo LCP (LISS, Synthes®) de 5 orificios para prevenir una posible fractura por fragilidad (Fig. 3d). Se coloca un drenaje tipo Redon subcutáneo y un vendaje compresivo.

Resultados

El examen histopatológico de la lesión confirmó en ambos casos el diagnóstico de lipoma intraóseo. El dolor y la tumefacción desaparecieron tras la intervención y no se ha observado recurrencia a los 6 meses de seguimiento en ninguno de los casos (Fig 4).



Figura 4. a: imagen de radiografía simple de tibia derecha correspondiente al postoperatorio inmediato. **b:** imagen de radiografía simple de fémur izquierdo correspondiente al postoperatorio inmediato.

Discusión

Los lipomas intráseos, descritos por primera vez en 1880, son uno de los tumores óseos benignos más raros a pesar de la abundancia de tejido adiposo en la médula ósea^{1,12,13}. Su incidencia es inferior al 0,1% de todos los tumores óseos primarios con cerca de 300 casos descritos. Esta incidencia, calculada por Dhalin, se considera inferior a la real debido a los casos asintomáticos no diagnosticados^{1,2,7,9,11}.

Aunque en el estudio de Milgram, en 1988, se observa una mayor frecuencia en varones con un ratio de 1.6:1 (estudio con 66 casos, serie de casos más larga descrita hasta el momento)^{4,14}, en series y en metaanálisis publicados recientemente, como el de Campbell y cols., no se encuentra predilección por sexos^{6,10,11,15}.

Estos tumores se dan con mayor frecuencia en adultos en torno a 40 años^{9,15-17}. La mayor parte son lesiones solitarias que afectan predominantemente a metáfisis de huesos largos de miembros inferiores (71%) localizándose sobre todo en calcáneo (32%), fémur (20%), tibia (13%) y peroné (6%). Se han descrito casos en miembros superiores (7%) y otras localizaciones menos frecuentes^{7,14,15,17}. La presencia de lipomas intráseos múltiples es muy poco frecuente, relacionándose con hiperlipoproteinemia y macrodistrofia lipomatosa^{9,12}.

Su etiología es desconocida, aceptándose que es un tumor benigno primario desarrollado a partir del tejido adiposo medular. Entre las etiologías propuestas se encuentran los infartos óseos (primarios o secundarios a traumatismos), infecciones y problemas nutricionales en los huesos largos, donde las células adiposas de la médula ósea podrían formar acúmulos creando una “masa lipomatosa”, pero ninguna de esas teorías explica adecuadamente la génesis de los lipomas intráseos^{2,4,10,11,17,18}.

La mayoría son asintomáticos, descubriéndose de manera incidental. Los pacientes sintomáticos presentan una clínica inespecífica con dolor en la zona de la lesión o referido a la articulación adyacente, hiperestesia o tumefacción local^{2,7,11,19}. Rara vez debutan con fracturas patológicas^{15,20}.

Las pruebas de imagen juegan un papel fundamental en el diagnóstico de este tumor. Radiográficamente se presenta como una lesión osteolítica bien definida rodeada por una zona esclerótica^{4,7,9,11,17}. En estadios más avanzados se observa un nidus radio-opaco debido a la necrosis grasa y calcificaciones en la región central de la lesión (definida clásicamente como una “imagen de escarapela” cuando ocurre en el calcáneo), formación de hueso fibrilar alrededor de la grasa calcificada y regiones quísticas^{1,19}. Pueden desarrollarse a partir de los tejidos blandos adyacentes al hueso o intramedularmente⁴, como en nuestro caso, expandiendo o remodelando los contornos óseos con resorción de la superficie cortical endóstica¹¹. Raramente aparecen como lesiones agresivas.

Radiológicamente el diagnóstico diferencial es extenso e incluye el infarto óseo, displasia fibrosa, fibromas no osificantes, tumores de células gigantes, encondroma, osteoblastoma, condroblastoma, condrosarcoma, abscesos de Brodie y quistes óseos simples o aneurismáticos^{2,7,9-11,14,16,17,19,20}.

En la RM se observa un aumento de intensidad de la señal en T1 similar a la grasa subcutánea, un aumento de intensidad de la señal en T2 en las zonas necróticas o quísticas y ausencia de señal en la secuencia STIR (Short Time Inversion-Recovery)^{10,12,15,21}.

Tanto la TC como la RM permiten delimitar la extensión de la lesión, detectar compromiso cortical y extensión a partes blandas^{2,15,21,22}.

El diagnóstico debe ser confirmado con un examen histopatológico. La escasez de hallazgos específicos supone un reto para los patólogos. Milgram describió un sistema de estadificación para el lipoma intraóseo reflejando el grado de involución de la lesión. Una lesión en estadio 1 recuerda al tejido adiposo normal con adipocitos viables, sin atipia, mitosis o tejido capsular y las células se intercalan con trabéculas óseas finas. En el estadio 2 se observa una transición focal, donde se encuentran adipocitos viables como en el estadio 1 y áreas de necrosis grasa con calcificaciones focales secundarias. Puede desarrollarse una osificación reactiva adyacente a las áreas de necrosis grasa, pareciéndose al hueso fibrilar (primitivo o *woven bone*). En el estadio 3 la lesión es un infarto completo, con necrosis y calcificación de la grasa, aparición de quistes y degeneración mucinosa, formación ósea periférica reactiva y agregados ocasionales de células grasas viables. La mayoría de los tumores descritos^{1, 14, 19, 23} se encuentran en el estadio 1. Chow y cols. sugieren que los cambios involutivos en estos tumores y en el hueso circundante son secundarios a un estado de isquemia causado por el aumento de presión intramedular debido a la proliferación de células tumorales con compromiso del aporte sanguíneo a nivel capilar^{5, 24}.

Actualmente se considera que las lesiones asintomáticas y sin compromiso de la estabilidad ósea pueden ser tratadas conservadoramente con un seguimiento clínico-radiológico al poder sufrir una involución espontánea^{14, 15, 8}.

El tratamiento de elección del lipoma intraóseo sintomático o con riesgo de fractura patológica inminente es quirúrgico, recomendándose la exéresis de la masa lipomatosa, curetaje de la lesión e implantación de injerto óseo^{9, 10, 14, 15, 23, 8, 25}. En el estudio publicado por Martín Salgado y cols. presentan la posibilidad de utilizar Kryptonite™ (*Doctors Research Group, Inc., Southbury, CT*), un tipo de cemento óseo con capaci-

dad de conducción ósea, como alternativa al relleno del defecto con injerto óseo, con una disminución del dolor postquirúrgico²⁷. La fenolización adyuvante no ha demostrado beneficios en el tratamiento de estos tumores¹⁰, pero fue utilizado en nuestros casos hasta disponer del diagnóstico histopatológico final para disminuir la posibilidad de recurrencia en el caso de que el diagnóstico radiológico de presunción no fuese correcto²⁷. El objetivo de la cirugía es aliviar el dolor y prevenir las posibles fracturas patológicas, especialmente cuando la lesión se localiza en un hueso que soporta carga^{1, 14, 19}. En nuestros casos, al presentar las pacientes sintomatología clínica, se optó por el tratamiento quirúrgico.

La recurrencia o transformación maligna de estos tumores, aunque rara y de resultado fatal, ha sido descrita²⁸.

Conclusión

El lipoma intraóseo es una lesión ósea benigna rara, generalmente asintomática, que puede pasar desapercibida fácilmente. Aparece como una lesión osteolítica bien definida siendo difícil de diagnosticar en radiografías simples de manera aislada al poder confundirse con otras entidades. La TC y la RM son de utilidad en su diagnóstico por su habilidad de mostrar la presencia de grasa intratumoral. De forma rara se pueden presentar como una lesión lítica mal definida radiográficamente y simular una lesión agresiva. Por ello, el diagnóstico debe ser confirmado con un examen histopatológico complementario a los hallazgos en las pruebas de imagen.

En los casos asintomáticos se considera que el tratamiento de elección es la observación y seguimiento clínico radiológico mientras que se prefiere la exéresis quirúrgica, curetaje y relleno con injerto óseo en los casos sintomáticos o con riesgo de fractura inminente, con un excelente resultado clínico y funcional.

Bibliografía

1. Pappas AJ, Haffner KE, Mendicino SS. An Intraosseous Lipoma of the Calcaneus: A Case Report. *J Foot Ankle Surg* 2014; 53(5):638-42.
2. Kang SY, Jung H-S, Lee JS, Jung H-J. First case report of an intracortical lipoma in an adult tibia. *Oncol Lett* 2014; 7(1):223-6.
3. Barcelo M, Pathria MN and Abdul-Karim FW. Intraosseous lipoma. A clinicopathologic study of four cases. *Arch Pathol Lab Med* 1992; 116: 947-50.
4. Cakarer S, Selvi F, Isler SC, Soluk M, Olgac V, Keskin C. Intraosseous lipoma of the mandible: a case report and review of the literature. *Int J Oral Maxillofac Surg* 2009; 38(8):900-2.
5. Chow LT, Lee KC. Intraosseous lipoma. A clinicopathologic study of nine cases. *Am J Surg Pathol* 1992; 16:401-10.
6. Barker GR, Sloan P. Intraosseous lipomas: clinical features of a mandibular case with possible aetiology. *Br J Oral Maxillofac Surg* 1986; 24(6):459-63.
7. Rabbani SA, Ilyas I, Alrumaih H. A rare presentation of an intraosseous lipoma in the proximal femur. *Am J Case Rep* 2013; 14:362-5.
8. Bagatur A.E., Yalcinkaya M., Dogan A., Gur S., Mumcuoglu E., Albayrak M. Surgery is not always necessary in intraosseous lipoma. *Orthopedics* 2010; 33(5).
9. De Moraes FB, Paranhos RM, Do Amaral RA, Bonfim VM, Jordão ND, Souza RD. Intraosseous lipoma of the iliac: case report. *Rev Bras Ortop* 2016; 51(1):113-7.
10. Radl R, Leithner A, Machacek F, Cetin E, Koehler W, Koppány B, y cols. Intraosseous lipoma: retrospective analysis of 29 patients. *Int Orthop* 2004; 28(6):374-8.
11. Eyzaguirre E, Liqiang W, Karla GM, Rajendra K, Alberto A, Gatalica Z. Intraosseous lipoma. A clinical, radiologic, and pathologic study of 5 cases. *Ann Diagn Pathol* 2007; 11(5):320-5.
12. Rehani B, Wissman R. Multiple intraosseous lipomatosis: a case report. *Cases J* 2009; 2:7399.
13. Unni KK, Dahlin DC. Dahlin's bone tumors: general aspects and data on 11,087 cases. Philadelphia: Lippincott-Raven, 1996.
14. Milgram J.W. Intraosseous lipomas. A clinicopathologic study of 66 cases. *Clin Orthop Relat Res* 1988; 231:277-302.
15. Campbell R.S.D., Grainger A.J., Mangham D.C., y cols. Intraosseous lipoma: report of 35 new cases and a review of the literature. *Skeletal Radiol* 2003; 32:209-22.
16. Boylan J.P., Springer K.R., Halpern F.P. Intraosseous lipoma of the calcaneus. A case report. *J Am Podiatr Med Assoc* 1991; 81:502-5.
17. Palczewski P, Świątkowski J, Gołębiowski M, Blasińska-Przerwa K. Intraosseous lipomas: A report of six cases and a review of literature. *Pol J Radiol* 2011; 76(4):52-9.
18. Hart J.A. Intraosseous lipoma. *J Bone Joint Surg Br* 1973; 55:624-32.
19. Karthik K, Aarthi S. Intraosseous lipoma of the calcaneus mimicking plantar fasciitis. *Foot Ankle Surg* 2011; 17(2):25-7.
20. Cebesoy O, Altinel L. Rare case of intraosseous lipoma with proximal femoral localization causing cortical expansion. *J Natl Med Assoc* 2006; 98(10):1702-4.
21. Blacksin M.F., Ende N., and Benevenia J. Magnetic resonance imaging of intraosseous lipomas: a radiologic-pathologic correlation. *Skeletal Radiol* 1995; 24:37-41.
22. Ramos A., Castello J., Sartoris D.J., y cols. Osseous lipoma: CT appearance. *Radiology* 1985; 157:615-9.
23. Milgram J.W. Intraosseous lipomas: Radiologic and pathologic manifestations. *Radiology* 1988; 167:155-60.
24. Murphey M.D., Carroll J.F., Flemming D.J., y cols. Benign musculoskeletal lipomatous lesions. *Radiographics* 2004; 24:1433-66.
25. Ulucay C, Altintas F, Ozkan NK, Inan M, Ugutmen E. Surgical treatment for calcaneal intraosseous lipomas. *Foot (Edinb)* 2009; 19(2):93-7.
26. Vaquerizo V, Abril JC, Ramírez A, Montes E. Tratamiento adyuvante con fenol en tumores óseos benignos agresivos y malignos de bajo grado en pacientes con esqueleto inmaduro. *Acta Ortop Mex* 2012; 26(2):107-11.
27. Salgado M, C. Córdova, C. Avilés, F. Fernández. A Case Report of Curettage and Kryptonite® use in Proximal Femur Intraosseous Lipoma. *Journal of Orthopaedic Case Reports* 2016; 6(2):98-9.
28. Milgram J.W. Malignant transformation in bone lipomas. *Skeletal Radiol* 1990; 19:347-52.