

COMUNICACIÓN BREVE

Quiste óseo aneurismático coexistente con osteosarcoma. Discusión radiopatológica

A. Bello Báez^{a,*}, M.Á. López Pino^b, D. Azorín Cuadrillero^c y S. Sirvent Cerdá^b

^aServicio de Radiodiagnóstico Hospital Universitario Nuestra Señora de la Candelaria, Tenerife, España

^bServicio de Radiodiagnóstico, Hospital Infantil Universitario Niño Jesús, Madrid, España

^cServicio de Anatomía Patológica, Hospital Infantil Universitario Niño Jesús, Madrid, España

Recibido el 8 de julio de 2009; aceptado el 13 de enero de 2010

Disponible en Internet el 20 de marzo de 2010

PALABRAS CLAVE

Quiste óseo
aneurismático;
Osteosarcoma;
Tumores óseos

KEYWORDS

Aneurysmatic bone
cyst;
Osteosarcoma;
Bone tumors

Resumen

El quiste óseo aneurismático es una lesión ósea benigna de etiopatogenia incierta. Se ha postulado que pudiera tratarse de una lesión reactiva a un traumatismo o a un tumor óseo primario benigno (tumor de células gigantes, condroblastoma, etc.) o maligno (osteosarcoma) que acaba produciendo cambios hemodinámicos locales. Existe controversia sobre su posible malignización. Presentamos un caso de evolución radiológica de osteosarcoma de bajo grado indistinguible de quiste óseo aneurismático.

© 2009 SERAM. Publicado por Elsevier España, S.L. Todos los derechos reservados.

Aneurysmatic bone cyst coexisting with osteosarcoma. Radiopathologic discussion

Abstract

Aneurysmatic bone cysts are benign lesions of unknown origin. It has been postulated that they might occur in reaction to trauma or to a primary benign (giant cell tumor, chondroblastoma, etc.) or malignant (osteosarcoma) bone tumor that results in local hemodynamic changes. Their malignant transformation is controversial. We present a case of low grade osteosarcoma with a radiologic progression that was indistinguishable from that of an aneurysmatic bone cyst.

© 2009 SERAM. Published by Elsevier España, S.L. All rights reserved.

Introducción

El quiste óseo aneurismático (QOA) es un raro tumor óseo que se da en las tres primeras décadas de vida. Suele comportarse como una lesión benigna, no agresiva; pero en raras ocasiones presenta un crecimiento rápido y destructivo. Posee un ligero predominio por el género femenino¹

*Autor para correspondencia.

Correo electrónico: adanbellobaez@gmail.com (A. Bello Báez).

y suele afectar de forma preferente a la metáfisis de los huesos largos y a la columna vertebral (especialmente elementos posteriores)¹. Clínicamente se manifiesta con dolor y tumefacción de menos de 6 meses de evolución¹. Su malignización, sin tratamiento radioterápico previo, constituye una rara entidad clínica. No obstante, se han descrito varios casos en la literatura²⁻⁶.

La malignización del QOA suele ocurrir tras varias recidivas del mismo; sin embargo, este hecho es poco específico para su diagnóstico, pues hasta un 14–59% de todos los casos tratados pueden recidivar^{7,8}. La persistencia o empeoramiento de la clínica y sobre todo la imagen radiológica es lo que nos debe hacer sospechar patología maligna asociada. Nuestro caso de QOA presentó muy mala evolución clinicoradiológica, descubriéndose en la última biopsia regiones de QOA coexistentes con osteosarcoma.

Presentación del caso

Niña de 11 años que consulta por dolor en miembro superior derecho de una semana de evolución tras realizar un esfuerzo. En la radiografía simple de hombro se identifica una lesión central en la metáfisis proximal del húmero, lítica, de bordes geográficos no escleróticos, con un margen de transición impreciso, adelgazamiento de la cortical con focos de interrupción de la misma, reacción perióstica continua y ausencia de matriz tumoral. Asocia una fractura patológica en la metáfisis proximal humeral (fig. 1). Posteriormente, se realiza una RM en la que se aprecia una imagen quística con niveles líquido-líquido y septos finos en su interior, asociando un mínimo componente de partes blandas, hiperintenso en las secuencias potenciadas en T2, que rodea circunferencialmente la metáfisis proximal del húmero, que probablemente se corresponda con edema (fig. 2).

El diagnóstico clinicoradiológico fue de QOA asociado a fractura patológica como primera posibilidad estableciéndose diagnóstico diferencial con el osteosarcoma telangiectásico. Se realizó biopsia quirúrgica mediante curetaje y posterior relleno con aloinjerto óseo. El diagnóstico anatomopatológico confirmó el diagnóstico de QOA, demostrando la presencia de tabiques conectivos con

frecuentes células gigantes multinucleadas de tipo osteoclasto, que delimitaban espacios hemáticos. No se observaron atipias, ni pleomorfismos.

A los 7 meses, la lesión recidivó, realizándose nuevamente curetaje, fenolización y aloinjerto. Tres meses después, volvió a recidivar, presentando un patrón radiológico muy agresivo, con destrucción metafiso-epifisaria y clara afectación medular diafisaria con importante masa de partes blandas. Tanto el componente medular como la afectación de partes blandas presentaron realce tras la administración de contraste i.v. (fig. 3). El diagnóstico radiológico sugerido en este caso fue el de osteosarcoma telangiectásico. Se efectuó nueva biopsia quirúrgica. El análisis histológico mostró áreas de QOA coexistiendo con zonas sólidas de osteosarcoma. Finalmente, la paciente fue tratada con quimioterapia y desarticulación del miembro superior. Un año después, se encuentra libre de enfermedad.

Discusión

Histológicamente, el QOA está compuesto por cavernas o espacios hemorrágicos rodeados y atravesados por septos que contienen fibroblastos, células inflamatorias y, en menor número, unas células gigantes multinucleadas similares al osteoclasto².

La radiografía simple debe ser la primera prueba de imagen a realizar ante cualquier sospecha de patología ósea. El QOA típico suele presentarse como una lesión lítica de bordes geográficos y esclerosos con zona de transición estrecha, localización excéntrica y metafisaria, carácter insuflante, adelgazamiento de la cortical (con posible disrupción de la misma), reacción perióstica continua y fina trabeculación en su interior¹. El estudio mediante TC es útil para definir con mayor especificidad la integridad de la cortical y del periostio⁹, así como para detectar fractura patológica¹. La RM nos ayuda a realizar una mejor caracterización de los bordes de la lesión, que suelen estar bien delimitados por una halo hipointenso en todas las secuencias de pulso sugiriendo de lesión benigna⁹; así mismo, nos permite una correcta caracterización del interior de la lesión y visualizar niveles líquido-líquido típicos, aunque no específicos, de QOA⁹. También nos ayuda

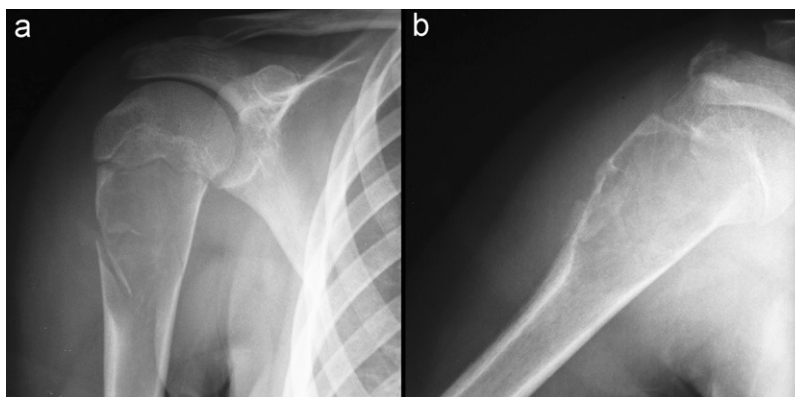


Figura 1 A) Radiografía simple de miembro superior derecho anteroposterior. B) Radiografía simple de miembro superior derecho lateral. Lesión lítica metafiso-diafisaria proximal humeral, con bordes parcialmente mal definidos con una zona de transición imprecisa en su borde inferior, que produce remodelamiento endostal y mínima insuflación.

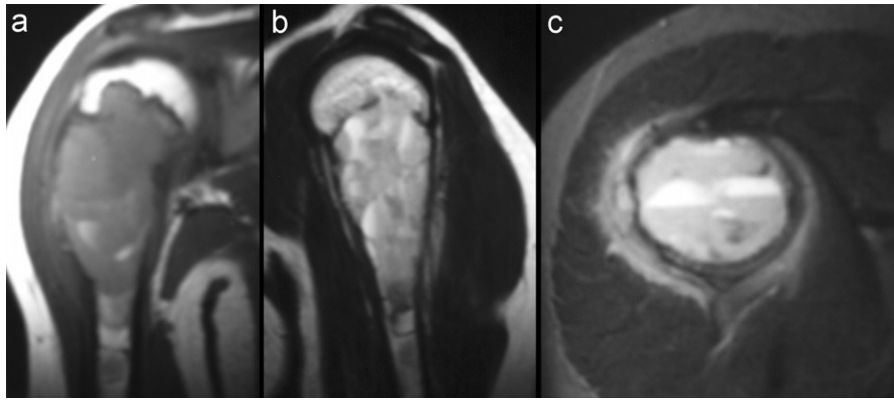


Figura 2 RM. A) T1 en plano coronal. B) T2 STIR en plano sagital. C) T2 STIR en plano axial. Lesión metafiso-diafisaria con niveles líquido-líquido en su interior y pequeño componente de partes blandas, hiperintenso, que rodea circunferencialmente al húmero.

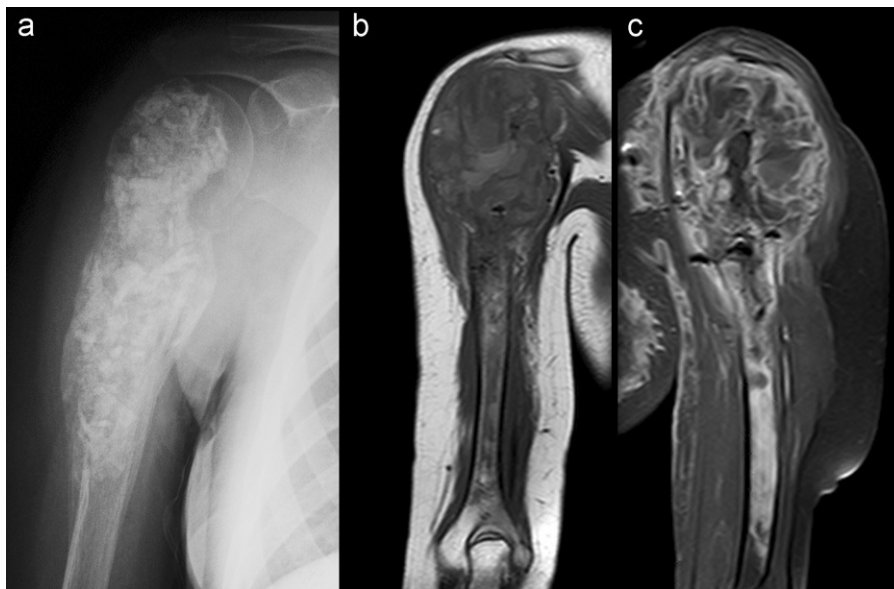


Figura 3 Diez meses después del diagnóstico. A) Radiografía simple de miembro superior derecho, proyección anteroposterior. Cambios postquirúrgicos metafiso-epifisarios y diafisarios proximales en el húmero, por cementación ósea, con reacción perióstica continua. B) RM potenciada en T1 en plano coronal. Destrucción de la metáfisis y la epífisis proximales del húmero con una gran masa de partes blandas asociada y alteración en la intensidad de señal de la médula ósea diafisaria, que alcanza la metáfisis distal. C) RM tras administración de contraste i.v. con supresión grasa. Realce intenso de los septos de la lesión metafiso-epifisaria y de la médula ósea diafisaria humeral, así como de la masa de partes blandas.

a descartar la presencia de datos sospechosos de malignidad como son: tabiques conectivos gruesos, componente sólido (nódulos periféricos-masa) y afectación de partes blandas. El contraste i.v. nos facilita la delimitación de la extensión medular diafisaria y de partes blandas. Los estudios de sustracción por RM podrían resultar de ayuda para demostrar realce nodular en los QOA pues eliminan cualquier hiperintensidad que pudiera haber en el estudio basal T1¹⁰.

Los tumores que se han relacionado en la literatura con la evolución maligna del QOA son los siguientes: osteosarcoma, osteosarcoma telangiectásico, osteosarcoma de superficie y fibrohistiocitoma maligno⁶. Si en la RM, además de niveles líquido-líquido, existe componente sólido intralesional o

masa de partes blandas hay que considerar especialmente en el diagnóstico diferencial la posibilidad de osteosarcoma telangiectásico.

Nuestro caso presentaba algunas características atípicas de QOA tanto en la radiografía simple (la lesión es central y no excéntrica, el margen de transición no es claramente estrecho y no se identifica halo escleroso periférico) como en la RM (ausencia de borde intacto de baja señal rodeando la lesión). No obstante, su localización preferentemente metafisaria, el carácter insuflante, la fina trabeculación, la ausencia de matriz ósea y la reacción perióstica continua así como los niveles líquido-líquido y la no visualización de componente sólido intralesional apoyaban el diagnóstico inicial de QOA.

Las muestras histológicas iniciales fueron revisadas exhaustivamente por patólogos de diversos centros hospitalarios, siendo valoradas como QOA, sin encontrar imágenes de osteosarcoma que pudieran justificar un error diagnóstico inicial.

La transformación maligna del QOA en pacientes que no presentan factores de riesgo tales como enfermedad de Paget o tratamiento radioterápico previo⁶ constituye toda una rareza. Algunos autores creen que lo que ocurre en muchos de estos casos es una incapacidad tanto histológica como radiológica de detectar un subtipo de osteosarcoma conocido como osteosarcoma de bajo grado indistinguible de QOA («osteosarcoma-QOA like»)². También se ha considerado que en otras ocasiones sí puede tener lugar una auténtica malignización de un QOA (lesión de novo) siendo, únicamente el menor o mayor tiempo que tardan estas lesiones en presentar datos de malignidad el único criterio para su diferenciación². Si atendemos a este criterio temporal deberíamos pensar que desde el inicio en nuestro caso hemos estado ante un osteosarcoma que se manifestó radiológica e histológicamente como un QOA.

En conclusión, creemos que aunque es infrecuente, una lesión previamente diagnosticada y tratada como QOA puede evolucionar como una lesión maligna. Esto puede deberse a que en realidad se trata de un osteosarcoma de bajo grado indistinguible de QOA o a que con el paso de los años tiene lugar una auténtica malignización. Esta posibilidad deberá tenerse en cuenta a pesar del diagnóstico histológico inicial, sobre todo, cuando no presente una imagen completamente característica de benignidad como en nuestro caso.

Autorías

A. Bello Báez ha contribuido en la concepción y diseño del trabajo, en la obtención de los datos y en su análisis e interpretación. Ha intervenido en la redacción del trabajo y en su revisión crítica, haciendo aportaciones intelectuales relevantes.

M.A. López Pino ha contribuido en la concepción y diseño del trabajo, en la obtención de los datos y en su análisis e interpretación. Ha intervenido en la redacción del trabajo y en su revisión crítica, haciendo aportaciones intelectuales relevantes.

D. Azorín Cuadrillero ha contribuido en la concepción y diseño del trabajo, en la obtención de los datos y en su

análisis e interpretación. Ha intervenido en la redacción del trabajo y en su revisión crítica, haciendo aportaciones intelectuales relevantes.

S. Sirvent Cerdá ha contribuido en la concepción y diseño del trabajo, en la obtención de los datos y en su análisis e interpretación. Ha intervenido en la redacción del trabajo y en su revisión crítica, haciendo aportaciones intelectuales relevantes.

Conflicto de intereses

Los autores declaran no tener ningún conflicto de intereses.

Bibliografía

1. Kransdorf MJ, Sweet DE. Aneurysmal bone cyst: concept, controversy, clinical presentation, and imaging. *AJR Am J Roentgenol.* 1995;164:573–80.
2. Kyriakos M, Hardy D. Malignant transformation of aneurysmal bone cyst, with an analysis of the literature. *Cancer.* 1991; 68:1770–80.
3. Anract P, de Pinieux G, Jeanrot C, Babinet A, Forest M, Tomeno B. Malignant fibrous histiocytoma at the site of a previously treated aneurysmal bone cyst: a case report. *J Bone Joint Surg Am.* 2002;84:106–11.
4. Hsu CC, Wang JW, Huang CH, Chen WJ. Osteosarcoma at the site of a previously treated aneurysmal bone cyst. A case report. *J Bone Joint Surg Am.* 2005;87:395–8.
5. Wuisman P, Roessner A, Blasius S, Grunert J, Vestering T, Winkelmann W. High malignant surface osteosarcoma arising at the site of a previously treated aneurysmal bone cyst. *J Cancer Res Clin Oncol.* 1993;119:375–8.
6. Brindley GW, Greene JFJ, Frankel LS. Case reports: malignant transformation of aneurysmal bone cysts. *Clin Orthop Relat Res.* 2005;438:282–7.
7. Biesecker JL, Marcove RC, Huvos AG, Mike V. Aneurysmal bone cysts. A clinicopathologic study of 66 cases. *Cancer.* 1970;26: 615–25.
8. Koskinen EV, Visuri TI, Holmstrom T, Roukkula MA. Aneurysmal bone cyst: evaluation of resection and of curettage in 20 cases. *Clin Orthop Relat Res.* 1976:136–46.
9. Beltran J, Simon DC, Levy M, Herman L, Weis L, Mueller CF. Aneurysmal bone cysts: MR imaging at 1.5 T. *Radiology.* 1986; 158:689–90.
10. Newatia A, Khatri G, Friedman B, Hines J. Subtraction imaging: applications for nonvascular abdominal MRI. *AJR Am J Roentgenol.* 2007;188:1018–25.