

Variante sólida de quiste óseo aneurismático en raquis

N. López-Martín^a, L. Álvarez-Galovich^a, E. Calvo-Crespo^a e Y. Bouhajeb^b

^aServicio de Cirugía Ortopédica y Traumatología. Fundación Jiménez Díaz. Madrid.

^bServicio de Anatomía Patológica. Fundación Jiménez Díaz. Madrid.

Introducción. Presentamos un caso de la variante sólida del quiste óseo aneurismático en una niña de 6 años de edad.

Caso clínico. Los hallazgos de la radiología convencional y de la tomografía computarizada (TC) en este caso son indistinguibles de un proceso maligno. En la resonancia magnética (RM) se observa una masa isointensa homogénea bien delimitada en T1, ocupando el hemicuerpo vertebral izquierdo extendiéndose por el pedículo, proceso transverso y la lámina ipsilateral de la segunda vértebra lumbar. También se visualiza una marcada compresión del canal sin cambios de señal en la médula. Los tejidos blandos perilesionales están intactos y no se observan niveles de fluidos en la masa. Se realiza una biopsia guiada por TC que es fisiológica como variante sólida del quiste óseo aneurismático.

Tratamiento. Se trata a la paciente mediante embolización con catéter de la lesión, seguida de una descompresión anterior y posterior más fusión posterior.

Palabras clave: *quiste aneurismático, tumor vertebral, embolización, fusión.*

El quiste óseo aneurismático (QOA) es una lesión benigna, expansiva y osteolítica de etiología desconocida. Fue descrita por primera vez por Lichtenstein¹ como una lesión insuflada en la radiología. Histológicamente está compuesta de espacios cavernosos llenos de sangre no coagulada delimitados por septos fibrosos que pueden contener hueso trabecular y osteoclastos. En 1983 Sanerkin et al² describieron una variante sólida del tumor, de características

Solid aneurysmal bone cyst of the spine

Introduction. We report a case of solid-variant aneurysmal bone cyst in a 6 year-old girl.

Case report. The findings of conventional radiology and computed tomography (CTscan) were indistinguishable from those of a malignant process. Magnetic resonance imaging (MRI) revealed a well-delimited, homogeneous, isointense mass in T1 that occupied the left vertebral hemibody and extended into the pedicle, transverse process, and ipsilateral lamina of the second lumbar vertebra. Marked compression of the canal with no changes in the spinal cord signal was visualized. The perilesional soft tissues were intact and no fluid levels were observed in the mass. A CT-guided biopsy revealed a solid-variant aneurysmal bone cyst.

Treatment. The patient was treated by catheter embolization of the lesion, followed by anterior and posterior decompression and posterior fusion.

Key words: *aneurysmal cyst, vertebral tumor, embolization, fusion.*

cas histológicas similares, pero sin los lagos vasculares. Esta comunicación resalta lo inespecífico de la clínica y de las pruebas de imagen en esta lesión benigna, similares a múltiples lesiones malignas, y la necesidad de una correcta identificación anatomo-patológica del proceso.

CASO CLÍNICO

Se trata de una niña de 6 años de edad que es remitida a nuestro centro para estudio de masa lumbar hallada de forma casual en un estudio radiológico de escoliosis. La lesión afecta al pedículo de L2 y se extiende hacia la lámina. La paciente está sana y no refiere historia de dolor lumbar. A la exploración presenta una ligera curva escoliótica en la columna toracolumbar sin rotación vertebral. La exploración neurológica es normal.

Correspondencia:

L. Álvarez-Galovich.
Servicio de Cirugía Ortopédica y Traumatología.
Fundación Jiménez Díaz.
Av. Reyes Católicos, nº 2.
28040 Madrid.
Correo electrónico: lalvarez@fd.es

Recibido: marzo de 2003.

Aceptado: septiembre de 2003.



Figura 1. Imagen en la tomografía computarizada (TC): en el corte axial se observa una lesión expansiva osteolítica ocupando el lado izquierdo del cuerpo vertebral que desplaza el saco neural hacia la derecha. La cortical está parcialmente destruida y se observa una mínima afectación de partes blandas. Al mismo tiempo existen múltiples calcificaciones en la zona central del tumor.

En la tomografía computarizada (TC) se observa una lesión expansiva osteolítica ocupando la hemivértebra izquierda y desplazando el saco neural hacia la derecha (fig. 1). La cortical está parcialmente destruida, observándose una mínima afectación de partes blandas. También existen múltiples calcificaciones en la zona central del tumor. En la gammagrafía con tecnecio-99 existe un aumento de captación a dicho nivel. La resonancia magnética (RM) revela

una masa homogénea en dicha zona, bien circunscrita e isointensa en T1 (fig. 2). Las imágenes en T2 muestran una señal heterogénea. El tejido blando circundante se encuentra intacto y no se observan niveles de fluidos. Se realiza una angiografía digital de sustracción observándose que la masa está bien vascularizada. Seguidamente se realiza una biopsia percutánea guiada por escáner que demuestra que la lesión corresponde a la variante sólida del quiste óseo aneurismático. Con estos datos se decide embolizar el tumor antes de la cirugía para evitar un sangrado excesivo durante la misma. La cirugía consiste en una descompresión medular anterior y posterior más legrado de la lesión y fusión vertebral con injerto autólogo de peroné y posterior instrumentación desde L1 a L3, con el objeto de estabilizar el segmento lumbar (fig. 3). El estudio histológico de ambas muestras es similar, apreciándose una celularidad variable, donde los elementos predominantes son los fibroblastos y fibrohistiocitos, con núcleos aumentados de tamaño y con algunas imágenes de mitosis, los cuales engloban grupos de células gigantes semejantes a osteoclastos (fig. 4). Aparecen además áreas de fibrosis, depósitos de hemosiderina y algún foco de osteoide. También existen pequeñas cavidades de contenido hemático en las que no se observa tapizamiento interno definido. En las pruebas de inmunohistoquímica se demuestra intensa positividad para vimentina, negatividad para citoqueratina AE1/AE3, y baja actividad proliferativa (M1B1). En el material quirúrgico se aprecia además extensión extraósea al tejido adiposo, alcanzando la lesión en algún punto tejido muscular estriado. El diagnóstico final es el de variante sólida del QOA. Tras 4 años y medio de seguimiento la paciente está asintomática, sin signos de recurrencia en las TC de seguimiento (fig. 5).

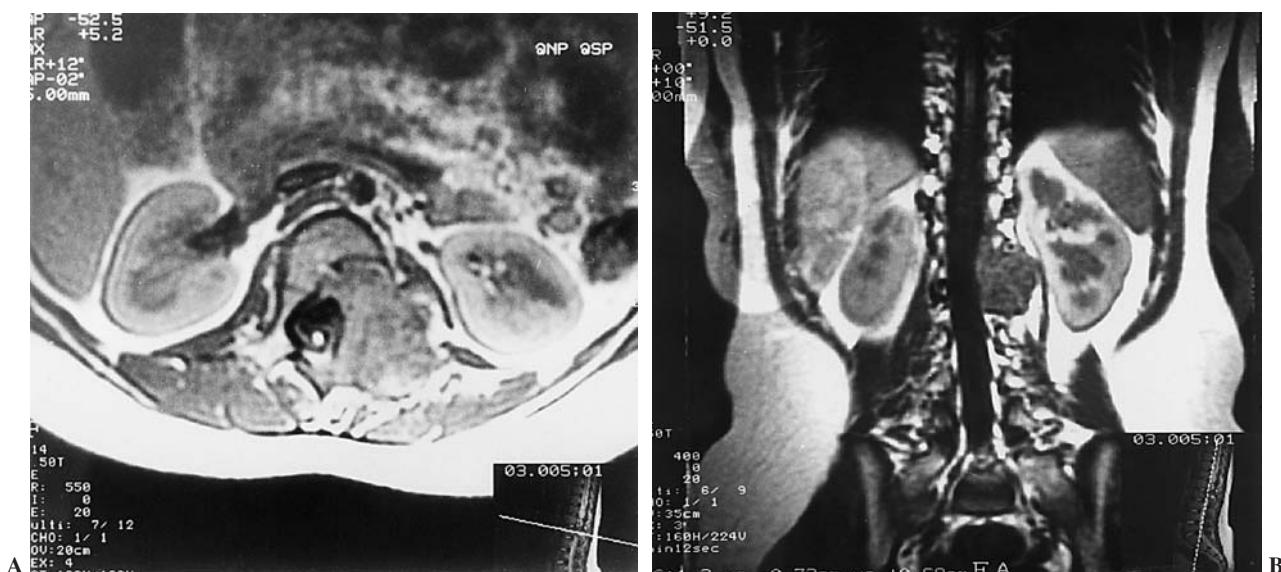


Figura 2. Imagen en la resonancia magnética (RM): corte axial (A) potenciado en spin eco T1 que muestra una masa isointensa de forma homogénea con ausencia de niveles y con marcada compresión del canal. Corte coronal (B) potenciado en spin eco T1 que revela que la masa afecta a la hemivértebra L2 izquierda, provocando una leve actitud escolítica. El tejido blando circundante se encuentra intacto.

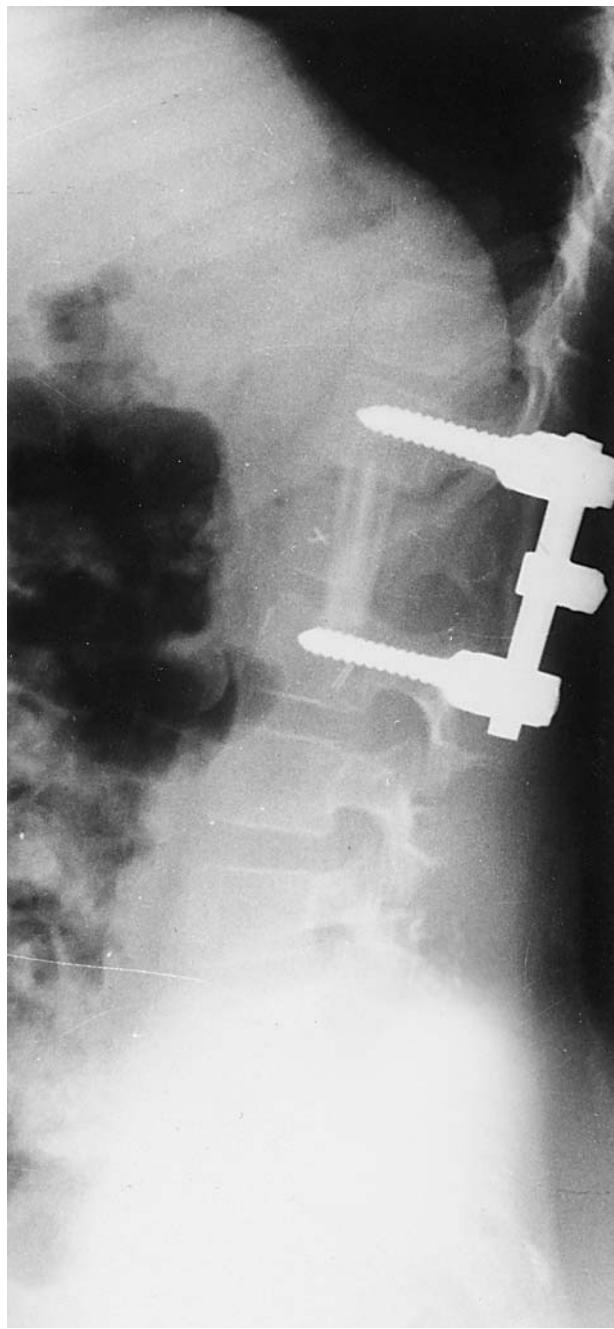


Figura 3. Radiografía lateral postcirugía: muestra la artrodesis posterior y la instrumentación combinada con la fusión intersomática anterior.

DISCUSIÓN

El QOA es una lesión vascularizada benigna, localmente agresiva, de origen desconocido que ocasionalmente origina dificultades para su correcto diagnóstico. Afecta generalmente a niños y adolescentes, con una pequeña preferencia por el sexo femenino³. Se localiza en la columna vertebral, incluyendo el sacro en el 20% de los casos^{3,4}.

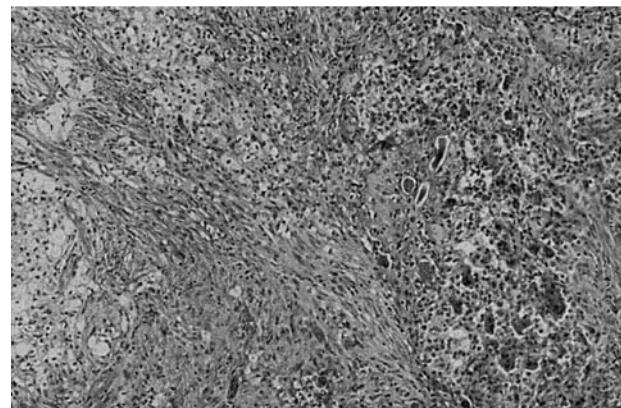


Figura 4. Muestra de la pieza quirúrgica: se observan los hallazgos típicos del tumor: un estroma muy celular con fibroblastos y fibrohistiocitos sin atipias con áreas de células gigantes semejantes a osteoclastos y pequeñas cavidades espaciadas por el estroma.

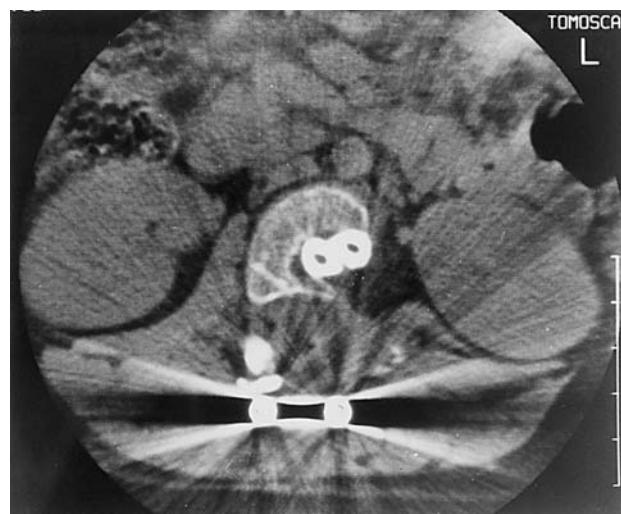


Figura 5. Imagen axial de tomografía computarizada (TC) postcirugía: corte axial TC tras 4 años de la cirugía, en el que no se observa evidencia de recurrencia local.

La columna posterior se afecta más que los cuerpos vertebrales y ocasionalmente puede implicar a más de una vértebra. Las manifestaciones clínicas más frecuentes son el dolor y los síntomas neurológicos en los casos localizados en la columna³. De forma excepcional se ha descrito una fractura patológica de cadera por la variante sólida⁵. La escoliosis reactiva es debida a la contractura muscular, como ocurre en el caso que presentamos.

La variante sólida es infrecuente, correspondiendo al 5%-7,5% de los QOA^{3,6}. Presenta una predilección por la distribución axial^{2,7} y casi siempre es sintomático⁶. Los hallazgos histológicos fueron descritos por primera vez por Sanerkin² y pueden originar diagnósticos equívocos con otras lesiones: el elemento fundamental es una proliferación fibroblástica con un elevado número de mitosis, que puede provocar confusión con tumores sarcomatosos^{2,3}. La ausen-

cia de atipias en la variante sólida del QOA permite distinguirlo de las formaciones malignas. Dentro de esta matriz se hallan pequeños núcleos de proliferación osteoclástica, siendo muy característica su semejanza con el tumor de células gigantes^{3,4}. También existe proliferación osteoblástica y de tejido fibromixoide, semejantes a los del osteosarcoma telangiectásico o el osteoblastoma, respectivamente, pero a diferencia de ellos en el QOA predomina la matriz fibrogenética^{3,4}. La presencia de calcificaciones en la matriz con una distribución similar al tejido condroide, presente en el 35% de los casos, puede confundirlo con un condroblastoma^{2,3}. El último hallazgo histológico característico es la presencia de minúsculos sinusoides aneurismáticos en la matriz fibroblástica² que nada tienen que ver con los grandes lagos del QOA, los cuales son el hallazgo dominante en la histología de este tumor. Por todo esto es fundamental el concurso de un anatomopatólogo experimentado para un adecuado diagnóstico.

Radiológicamente la variante sólida aparece como una lesión excéntrica, lítica, que insufla el contorno del hueso⁸. Las lesiones pueden mostrar una tenue trabeculación sin apenas calcificaciones. Estos hallazgos son inespecíficos y en un 20% de los casos es imposible diferenciar entre un proceso benigno o maligno^{1,6}. La TC apenas aporta información precisa. Mientras que en el QOA se caracteriza por la presencia de niveles de fluidos y la rotura frecuente de la cortical con afectación pequeña y bien definida de los tejidos blandos adyacentes⁹, el escáner en el caso de la variante sólida únicamente muestra una lesión osteolítica, con una zona amplia de transición entre la zona sana y el tumor, con la cortical rota y afectación de partes blandas⁷.

La RM del QOA muestra una lesión lobulada con un borde delgado claramente delimitado. También se visualizan los septos internos con múltiples niveles en su interior¹⁰, probablemente debidos a productos de degradación de la sangre dentro del quiste^{9,11}. Por contra, en la variante sólida no se visualizan niveles, y la presencia de una masa al nivel espinal puede confundir la lesión con un osteoblastoma, un tumor de células gigantes o un sarcoma de Ewing¹². Arteriográficamente el QOA es hipervascular, con la zona central más hipovascular¹³.

La ausencia de signos característicos en las pruebas de imagen y la presencia de rasgos similares a los de los tumores malignos, hace imprescindible la confirmación anatomo-patológica para un manejo adecuado de la enfermedad^{1,6,12}.

El tratamiento convencional en la variante común consiste en el legrado del tumor y aporte de injerto óseo. La recurrencia se presenta en el 10%-20%^{3,8,14}. En cualquier caso la variante sólida presenta un mejor comportamiento y ninguno de los tumores espinales publicados han recurrido^{1,2,6,15}. En uno de los casos se trató con radioterapia³, sin embargo esta técnica presenta la posible complicación de una degeneración sarcomatosa postradiación⁸. La embolización se

realiza junto a la cirugía o de forma aislada en casos de difícil acceso^{3,16,17}. El uso aislado en la columna de la embolización sigue en discusión. Papagelopoulos, en una serie de 52 casos de QOA, obtiene los mejores resultados usando la embolización y posterior legrado de la lesión⁴, mientras Boriani, en una serie reciente de 41 quistes aneurismáticos de columna, concluye que la embolización aislada es eficaz excepto en los casos con clínica neurológica, fractura patológica o recurrencia tras dos embolizaciones, en los cuales ésta se asocia a cirugía¹⁸. En el caso actual se opta por el legrado de la lesión más fusión con instrumentación tras la embolización para descomprimir la médula que se encuentra desplazada y para estabilizar la columna.

BIBLIOGRAFÍA

1. Sato K, Sugiura H, Yamamura S, Takahashi M, Nagasaka T, Fukatsu T. Solid variant of an aneurismal bone cyst (giant cell reparative granuloma) of the 3rd lumbar vertebra. Nagoya J Med Sci 1996;59:159-65.
2. Sanerkin NG, Mott MG, Roylance J. An unusual intraosseous lesion with fibroblastic, osteoclastic, osteoblastic, aneurysmal and fibromixoid elements. Solid variant of aneurysmal bone cyst. Cancer 1983;50:2278-86.
3. Vergel de Dios AM, Bond JR, Shives TC, Mcleod RA, Unni KK. Aneurysmal bone cyst. A clinicopathologic study of 238 cases. Cancer 1992;69:2921-31.
4. Papagelopoulos PJ, Currier BL, Shaughnessy WJ, Sim FH, Ebersold MJ, Bond JR, et al. Aneurismal bone cyst of the spine. Management and outcome. Spine 1998;23:621-8.
5. Claus-Peter A. Solid aneurysmal bone cyst with pathologic bone fracture. Skeletal Radiol 1995;24:214-6.
6. Bertoni F, Bacchini P, Ruggieri P, Biagini R, Ferruzzi A, Bettelli G, et al. Solid variant of aneurysmal bone cyst. Cancer 1993;71:729-34.
7. Buirski G, Watt I. The radiological features of solid aneurysmal bone cyst. Br J Radiol 1984;57:1057-65.
8. Dahlin DC, Mcleod R. Aneurismal bone cyst and other non neoplastic conditions. Skeletal Radiol 1982;8:243-50.
9. Hudson TM. Fluid levels in aneurysmal bone cyst: as CT feature. AJR 1984;142:1001-4.
10. Munk PL, Helms CA, Holt RG, Johnston J, Steinbach L, Neumann C. MR imaging of aneurismal bone cysts. Am J Surg Pathol 1989;153:99-101.
11. Hudson TM, Hamlin DJ, Fitzsimmons T. Magnetic resonance imaging of fluid levels in an aneurysmal bone cyst and anti-coagulated human blood. Skeletal Radiol 1985;13:267-70.
12. Weinstein JB, Siegel MJ, Griffith R. Spinal Ewing sarcoma: misleading appearances. Skeletal Radiol 1984;11:262-5.
13. Mark J, Kransdorf, Donald E. Aneurysmal Bone Cyst: Concept, controversy, clinical presentation and imaging. AJR 1995;164:573-80.
14. Chiriboga Accini C, Pérez Domínguez M, Veras del Monte L, López C, Castellanos Robles J, Mateo Montañes X. Quiste óseo aneurismático. Rev Ortop Traumatol 1997;41:594-9.
15. Oda Y, Tsuneyoshi M, Shinohara T. Solid variant of aneurysmal bone cyst (giant cell reparative granuloma) in the axial skeleton and long bones: a study of its morphologic spectrum and distinction from allied giant cell tumors. Cancer 1992;70:2641-9.

16. De Cristofaro R, Biagini R, Boriani S, Ricci S, Ruggieri P, Rossi G, et al. Selective arterial embolization in the treatment of aneurysmal bone cyst and angioma of bone. *Skeletal Radiol* 1992;21:523-7.
17. Aquerreta Beola JD, Bilbao Jaureguizar JI, San Julian Aran gueren MP, Fernández Virgos A, Villas Tomé C, Lecumberri Olaverri FJ. Quiste óseo aneurismático. Embolización terapéutica y seguimiento radiológico. *Rev Ortop Traumatol* 1989;33IB:191-4.
18. Boriani S, De Iure F, Campanacci L, Gasbarrini A, Bandiera S, Biagini R, et al. Aneurismal Bone Cyst of the Mobile Spine. Report on 41 Cases. *Spine* 2001;26:27-35.

Conflicto de intereses. Los autores no hemos recibido ayuda económica alguna para la realización de este trabajo. Tampoco hemos firmado ningún acuerdo por el que vayamos a recibir beneficios u honorarios por parte de alguna entidad comercial. Por otra parte, ninguna entidad comercial ha pagado ni pagará a fundaciones, instituciones educativas u otras organizaciones sin ánimo de lucro a las que estemos afiliados.