

# ***Quiste óseo aneurismático gigante en húmero***

## **Giant aneurismatic osseous cyst of the humerus**

**N. Velázquez Carranza**  
**M. Ruiz del Portal Bermudo**  
**E. Sebastián Garrido**

Departamento de Cirugía Ortopédica y Traumatológica. Hospital Universitario Virgen del Rocío. Sevilla. España.

---

### **RESUMEN**

*Objetivos.* Presentar un caso de quiste óseo aneurismático en húmero distal con recidiva.

*Paciente y método.* Niña de 2 años, con quiste óseo aneurismático en metafisis distal de húmero derecho que se trató inútilmente con inyección intraósea esclerosante de Ethibloc®, y que evolucionó con un gran aumento de tamaño por lo que requirió exéresis e injerto autólogo de peroné. Al año presentó una recidiva que necesitó nueva cirugía con legrado radical e injerto.

*Resultados.* Buena evolución con reconstrucción de la metafisis humeral, aunque con desviación tolerable de la paleta humeral en varo, y satisfactoria recuperación funcional.

*Conclusiones.* Aunque los quistes óseos aneurismáticos son tumores benignos que responden generalmente bien al tratamiento con esclerosantes, a veces evolucionan de forma tórpida y recidivante necesitando varias cirugías y pudiendo comprometer, en los niños, las articulaciones adyacentes.

### **ABSTRACT**

*Objectives.* To present the case of a recurrent aneurismatic osseous cyst in the distal humerus.

*Patient and method.* A two year old girl with an aneurismatic osseous cyst in the distal metaphysis of the right humerus that had been treated unsuccessfully with an intraosseous sclerosant injection of Ethibloc®. The cyst increased in size, requiring exeresis and an autologous fibular graft. The following year the cyst recurred and surgery was required again and a radical curettage and graft were performed.

*Results.* The evolution was good with reconstruction of the humeral metaphysis. There was a tolerable deviation of the shoulder blade in varus position and a satisfactory functional recovery.

*Conclusions.* Although aneurismatic osseous cysts are benign tumours that normally respond well to treatment with sclerosants, on occasions they progress slowly and recur and require several surgeries and can compromise the adjacent articulations in children.

---

Palabras clave: Quiste óseo aneurismático. Tumor óseo. Tumor húmero. Ethibloc®. Recidiva.

---

Key words: Aneurismatic osseous cyst. Osseous tumour. Humeral tumour. Ethibloc®. Recurring.

---

---

**Correspondencia:** Dra. Nuria Velázquez Carranza.  
Infantes, 5 bis. 41003 Sevilla. España.  
Correo electrónico: nvelazquez@yahoo.es.

## INTRODUCCIÓN

El quiste óseo aneurismático supone el 6% de las lesiones óseas primarias<sup>1</sup>. Puede aparecer de novo o estar asociado a lesiones benignas como el tumor de células gigantes, el osteoblastoma, el condroblastoma, el fibroma condromixoide y la displasia fibrosa, así como a lesiones malignas como el osteosarcoma, el fibrosarcoma o el condrosarcoma<sup>2-4</sup>, puede ser localmente agresivo,

El quiste óseo aneurismático típico afecta a la medular de la metáfisis de los huesos largos<sup>5</sup>, aunque también puede aparecer en la diáfisis, en huesos planos, tubulares cortos<sup>6</sup> e incluso en la columna<sup>7</sup>.

Se observa predominantemente en la infancia, y en el 76% de los casos aparece en menores de 20 años<sup>8</sup>, con ligero predominio por el sexo femenino<sup>9,10</sup>.

Los síntomas más frecuentes en huesos largos son el dolor y la tumefacción local<sup>11,12</sup>.

El diagnóstico está basado en sus características radiográficas, se presenta como una lesión multiquística, expansiva y excéntrica con reacción perióstica. Presenta un patrón geográfico de destrucción ósea y trabeculación en su interior<sup>13,14</sup>.

Aunque en general las radiografías son suficientes para evaluar la lesión, otras técnicas como la tomografía computarizada (TC), la gammagrafía y la resonancia magnética (RM) pueden ayudar al diagnóstico. La TC es superior a la radiografía<sup>15,16</sup>; se pueden observar la presencia de niveles líquidos. La gammagrafía con Tc99 es de utilidad ya que refleja la naturaleza vascular de la lesión; algunos autores describen una captación aumentada con un patrón en anillo<sup>17-19</sup>. Los hallazgos en la RM son bastante característicos y permiten un diagnóstico específico, lesión bien definida, de contornos lobulados y cavidades quísticas con niveles líquidos<sup>20</sup>.

El tratamiento puede incluir un agente fibrogénico y trombólástico, formado por una mezcla viscosa, cuyos ingredientes activos son alcohol y una proteína vegetal, Ethibloc®, propuesto recientemente como opción terapéutica de este tumor. Los estudios publicados concluyen que la inyección percutánea es segura, eficaz y no invasiva, a veces es necesario repetir la infiltración<sup>21,22</sup>. En un pequeño número de casos, como ocurrió en esta paciente, la tumoración aumentó de tamaño y hubo que recurrir a la cirugía<sup>21</sup>. El Ethibloc® también constituye

una alternativa a la cirugía cuando ésta es técnicamente imposible o hay riesgo para el enfermo<sup>22</sup>.

El objetivo de este trabajo es exponer el caso de un quiste óseo aneurismático de comportamiento agresivo que no respondió al tratamiento con Ethibloc® y requirió varias cirugías.

## PACIENTE Y MÉTODO

Paciente de 2 años de edad, cuyos padres consultan por notar pérdida de fuerza y movilidad en el brazo derecho. Como antecedentes personales se recoge una adenoidectomía, ausencia de alergias conocidas y otras enfermedades.

En su centro de referencia se le había diagnosticado y tratado de pronación dolorosa. Pasadas 2 semanas la paciente sufrió un traumatismo en el codo derecho con dolor e impotencia funcional; fue derivada al hospital.

Se realizó una radiografía y se detectó una lesión lítica expansiva que afectaba a la epífisis y a la metáfisis distal del húmero derecho, que rompía la cortical, con reacción perióstica en triángulo de Codman e invasión de partes blandas (fig. 1). Dado el hallazgo se ingresa para estudio.



Fig. 1.—Lesión lítica y expansiva en metáfisis distal de húmero (26-7-2001).

Fig. 1.—Lytic expansive lesion in the distal metaphysis of the humerus.



Fig. 2. —Intensa captación isotópica en tercio distal de húmero.

Fig. 2.—Intense isotopic uptake in the distal third of the humerus.

Se realiza TC y gammagrafía donde se describen las características de la lesión:

— TAC. Lesión que rompe la cortical medial; con reacción perióstica en triángulo de Codman. No se evidenciaban signos de lesión fisaria.

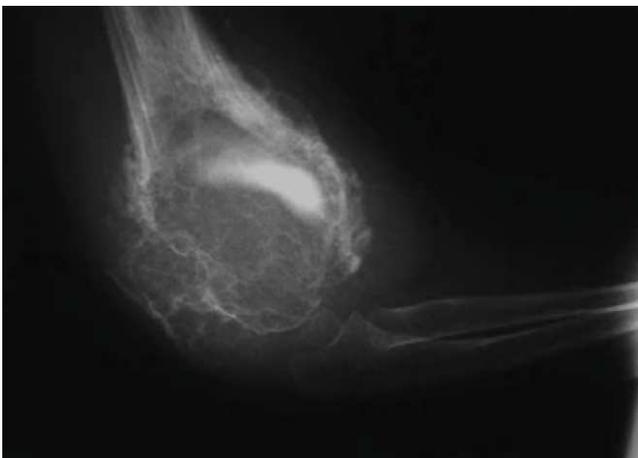
— La gammagrafía con Tc99 informa de un intenso aumento de la captación (fig. 2).

Se realiza punción biopsia bajo anestesia, la técnica histoquímica usada fue fijación en formaldehído al 10%, descalcificación con ácido nítrico e inclusión en parafina, cortes y tinción con hematoxilina-eosina. El informe de la biopsia fue de lesión con múltiples espacios rellenos de sangre alternándose con áreas más sólidas, revestidos de una capa simple de células indiferenciadas, sugestiva de quiste óseo aneurismático de características agresivas.

Dadas las características de la lesión, la paciente es derivada a nuestro hospital para tratamiento.

Una vez en nuestro hospital, el primer tratamiento que se instaure tras realizar una arteriografía (planteada con fines diagnóstico y terapéutico de embolización —este último se descartó—) es la inyección intraquistica de Ethibloc® (20-8-2001). Se realizó de forma percutánea guiada por radioscopia.

En los seguimientos sucesivos se observa que la lesión sigue aumentando de tamaño y destruyendo más cortical (figs. 3 y 4), por lo que se realiza nueva biopsia, que informa de quiste óseo aneurismático, y se decide intervenir quirúrgicamente (25-9-2001). En ésta se practica, a través de un abordaje posterior de la articulación del codo, la resección en bloque de la tu-



Figs. 3 y 4. —Aumento de tamaño de la lesión tras la inyección intraquistica de Ethibloc® (20-9-2001).

Figs. 3 y 4. —3 and 4 Increase in the lesion size after intracystic injection of Ethibloc™.

moración y su sustitución por injerto libre intercalar autólogo no vascularizado de peroné, de unos 6,5 cm de longitud, e injerto de banco, que se estabilizó con una aguja de Kirschner, que se retiró 3 meses después (fig. 5).

Tras esta intervención es dada de alta y derivada al servicio de rehabilitación.

Presentó una nueva recidiva en mayo de 2002. Radiográficamente se observa que aparece de nuevo una lesión lítica y expansiva que interrumpe la cortical posterior (fig. 6). Se interviene de nuevo realizándosele legrado radical más injerto de banco y sustituto óseo (Osteoset®) (fig. 7). El injerto de peroné estaba integrado y no estaba afectado por la tumoración. El estudio anatomopatológico de la muestra informó de quiste óseo aneurismático.



Fig. 5. —Postoperatorio inmediato tras la primera intervención. Resección en bloque de la tumoración y sustitución por injerto autólogo intercalar de peroné, osteosíntesis con aguja de Kirschner.

Fig. 5. —5 Immediate post-surgery after the first intervention. Block tumour resection and replacement by intercalated autologous fibula bone graft.



Fig. 6. —Recidiva en mayo de 2002.

Fig. 6. —Recurrence in May 2002



Fig. 7. —Radiografía tras legrado e injerto.

Fig. 7. —Radiography after curettage and bone graft.



Fig. 8. —Radiografía a los 4 meses del legrado e injerto.  
Fig. 8. —Radiography at 4 months after curettage and bone graft.

Posteriormente se remitió de nuevo al servicio de rehabilitación donde siguió un programa de fisioterapia intensa. En la imagen radiográfica a los 4 meses del legrado e injerto se observa la osteointegración del injerto y la no evidencia de lesión (fig. 8) (25-9-2002).

## RESULTADOS

En enero de 2004 está libre de enfermedad con el siguiente rango de movimiento, flexión de 100°, extensión de -10°, pronación y supinación de 60°.

Sólo presenta una ligera deformidad del codo en varo (figs. 9 y 10) que funcionalmente es tolerable y un ligero acortamiento de la extremidad por la lesión que se produjo en el cartílago de crecimiento (fig. 11).

## DISCUSIÓN

Aunque la RM es una muy buena prueba complementaria para el diagnóstico de este tumor, en nuestro caso no se ha realizado debido a que,



Figs. 9 y 10. —Imagen clínica final: ligera deformidad en varo y adecuada movilidad (diciembre 2003).

Figs. 9 and 10. —9 and 10 Final clinical image: slight deformity in varus position and adequate mobility. (Dec. 2003)



Fig. 11. —Resultado final: no hay evidencia radiográfica de lesión tumoral (diciembre 2003).

Fig. 11. —Final result: there is no radiological evidence of the tumour lesion.

cuando fue remitido a nuestro servicio, ya se le había practicado una biopsia que confirmaba el diagnóstico clínico previo.

Actualmente se propone la inyección intralesional de agentes fibrogénicos y tromboblásticos como una alternativa a la cirugía, ya que es un tratamiento eficaz, seguro y mínimamente invasivo<sup>21-25</sup>. A veces es necesario repetir la infiltración, y como efectos adversos se describe la reacción local como el más frecuente. No obstante pueden darse complicaciones más graves<sup>26</sup>.

Cuando fracasa este tipo de tratamiento hay que recurrir a la cirugía, ya sea con extirpación en bloque de la lesión o mediante el legrado de la cavidad y relleno con injerto óseo autólogo o heterólogo. En los estudios publicados, las 2 formas de tratamiento muestran buenos resultados clínicos y radiográficos<sup>21,22,25,27</sup>.

Hay 2 estudios recientes publicados acerca del Ethibloc® en este tipo de tumor. En el trabajo de Adamsbaum et al<sup>21</sup> se utilizó el Ethibloc® en 17 pacientes de entre 2 y 18 años; 14 sólo precisaron una infiltración y 3 una inyección suplementaria; el seguimiento medio fue de 5 años y los resultados fueron: en 14 se consiguió la remisión completa, demostrada por un aumento de la cortical y del grosor de los septos; en los otros 3 hubo una progresión rápida tras la infiltración, por lo que hubo que recurrir a la cirugía. En el otro estudio, Dubois et al<sup>22</sup> utilizaron 2 agentes para la escleroterapia, el Ethibloc® en 14 pacientes y el Histoacryl glue en 3; se hizo un seguimiento de 2 a 9 años y se consideró un resultado excelente si quedaba menos del 20% de la lesión; el resultado fue excelente en el 94% de los pacientes, en 9 pacientes hubo que repetir la infiltración de 2 a 5 veces.

Se ha demostrado que, después del legrado, la lesión persiste en un 25% de los casos por lo que es aconsejable realizar una resección amplia siempre que sea posible, como se ha realizado en nuestro paciente.

Marcove y otros autores han utilizado con éxito la crioterapia adyuvante con nitrógeno líquido después del legrado. Muchos autores desaconsejan el uso de la radioterapia por el riesgo de que se produzcan cambios sarcomatosos.

También se ha descrito la embolización arterial a través de un catéter y la ablación con radioisótopos como el 32 P fosfato crómico<sup>28</sup>.

En nuestro caso, el primer tratamiento con inyección intralesional de Ethibloc® no fue efectivo; en los controles sucesivos se observó un aumento importante en el tamaño de la lesión; por ello, y por las características radiográficas, se consideró no repetir la inyección intraquística de Ethibloc® y recurrir directamente a la cirugía; para ello no se realizó nueva biopsia.

El diagnóstico diferencial a cualquier edad debe realizarse con el quiste óseo esencial y el fibroma condromixóide y tras la madurez esquelética con el tumor de células gigantes.

## CONCLUSIONES

— Aunque los quistes óseos aneurismáticos son tumores benignos que responden general-

- mente bien al tratamiento con esclerosantes, a veces evolucionan de forma tórpida y recidivante, por lo que son necesarias varias cirugías y, en los niños, se pueden comprometer las articulaciones adyacentes.
- El diagnóstico diferencial radiológico a cualquier edad debe realizarse con el quiste óseo esencial y el fibroma condromixóide y tras la madurez esquelética con el tumor de células gigantes.
- Histológicamente, el diagnóstico diferencial más importante hay que hacerlo con el osteosarcoma telangiectásico y distinguir el osteosarcoma de un quiste óseo aneurismático secundario.
- El tratamiento con Ethibloc® supone una alternativa a la cirugía para este tipo de lesiones, tratándose de una técnica mínimamente invasiva, segura y eficaz. Si fracasa la inyección intraquistica de Ethibloc®, la alternativa es la cirugía.

### BIBLIOGRAFÍA

1. Huvos AG. Bone tumors: diagnosis, treatment and prognosis. 2nd ed. Philadelphia: WB Saunders; 1991. p. 727-43.
2. 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.
3. Kinley S, Wiseman F, Wertheimer SJ. Giant cell tumor of the talus with secondary aneurysmal bone cyst. *J Foot Ankle Surg.* 1993;32:38-46.
4. Martínez V, Sissons HA. Aneurysmal bone cyst. A review of 123 cases including primary lesions and those secondary to other bone pathology. *Cancer.* 1988;61:2291-304.
5. Gibbs CP Jr, 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;81:1671-8.
6. Apaydin A, Ozkainak C, Yilmaz S, et al. Aneurysmal Bone Cyst of metacarpal. *Skeletal Radiol.* 1996;25:76-8.
7. Deo SD, Fairbank JC, Wilson-Macdonald J, Richards P, Pike M, Athanasau N, et al. Aneurysmal bone cyst as a rare cause of spinal cord compression in a young child. *Spine.* 2005;30:E80-2.
8. Nielsen GP, Fletcher CD, Smith MA, Rybak L, Rosenberg AE. Soft tissue aneurysmal bone cyst: a clinicopathologic study of five cases. *Am J Surg Pathol.* 2002;26:64-9.
9. Ruiter DJ, van Rijssel TG, van der Velde EA. Aneurysmal bone cysts: a clinicopathological study of 105 cases. *Cancer.* 1997;39:2231-9.
10. Tillman BP, Dahlin DC, Lipscomb PR, et al. Aneurysmal bone cyst: an analysis of ninety-five cases. *Mayo Clin Proc.* 1968;43:478-95.
11. Dabska M, Burazeuski J. Aneurysmal bone cyst. Pathologic, clinical course and radiologist appearances. *Cancer.* 1969;23:371-89.
12. Mulder JD, Kroon HM, Schutte HE. Radiologic atlas of bone tumors. Amsterdam: Elsevier; 1993. p. 557-78.
13. Freeby JA, Reinus WR, Wilson AJ. Quantitative analysis of the plain radiographic appearance of aneurysmal bone cyst. *Invest Radiol.* 1995;30:433-9.
14. Sherman RS, Soong KY. Aneurysmal bone cyst: its Roentgen diagnosis. *Radiology.* 1957;68:54-64.
15. Hudson TM. Radiologic-pathologic correlation of musculoskeletal lesions. Baltimore: Williams and Wilkins; 1987. p. 261-5.
16. Scully SP, Temple HT, O'Keefe RJ, et al. Case report 830. Aneurysmal bone cyst. *Skeletal Radiol.* 1994;23:157-60.
17. Heyman S, Treves S. Scintigraphy in pediatric bone tumors. En: Jaffe N, editor. *Bone tumors in children.* Littleton, MA: Wright; 1979. p. 79-96.
18. Makhija MC. Bone scanning in aneurysmal bone cyst. *Clin Nucl Med.* 1981;6:500-1.
19. Simon MA, Kirchner PT. Scintigraphic evaluation of primary bone tumors. Comparison of technetium-99m phosphate and gallium citrate imaging. *J Bone Joint Surg.* 1980;62A:758-64.
20. Mahnken AH, Nolte Ernsting CC, Wildberguer JE, et al. Aneurysmal bone cyst, value of MR imaging and conventional radiography. *Eur Radiol.* 2003;13:1118-24.
21. Adamsbaum C, Mascard E, Guinebretiere JM, et al. Intralesional Ethibloc® injection in primary aneurysmal bone cyst: an efficient and safe treatment. *Skeletal Radiol.* 2003;32:559-66.
22. Dubois J, Chigot V, Grimard G, et al. Sclerotherapy in aneurysmal bone cyst in children. A review of 17 cases. *Pediatr Radiol.* 2003;33:365-72.
23. Rai AT, Collins JJ. Percutaneous treatment of pediatric aneurysmal bone cyst at C1: a minimally invasive alternative: a case report. *AJNR Am J Neuroradiol.* 2005;26:30-3.
24. Chartrand-Lefebvre C, Dubois J, Roy D, et al. Direct intraoperative sclerotherapy of an Aneurysmal Bone Cyst of the sphenoid. *AJNR Am J Neuroradiol.* 1996;17:870-2.

25. Guibaud L, Herbreteau D, Dubois J, et al. Aneurysmal bone cyst: percutaneous embolization with an alcoholic solution of zein. Series of 18 cases. *Radiology*. 1998;208:369-73.
26. Peraud A, Drake JM, Armstrong D, Hedden D, Babyn P, Wilson G. Fatal Ethibloc embolization of vertebrobasilar system following percutaneous injection into aneurysmal bone cyst of the second cervical vertebra. *AJNR Am J Neuroradiol*. 2004;25:1116-20.
27. Lejman T, Sulko J. Treatment of aneurysmal bone cyst. *Chir Narzadow Ruchu Ortop Pol*. 2002;67:593-7.
28. Bush CH, Drane WE. Treatment of an aneurysmal bone cyst of the spine by radionuclide ablation. *AJNR Am J Neuro-radiol*. 2000;21:592-4.

---

## Cisti ossea aneurismatica gigante nell'omero

### RIASSUNTO

**Obiettivi.** Presentare un caso di cisti ossea aneurismatica nell'omero distale con recidiva.

**Paziente e metodo.** Bambina di due anni con cisti ossea aneurismatica nella metafisi distale dell'omero destro, trattata senza esito positivo con iniezione intraossea sclerosante di Ethibloc®. L'evoluzione della patologia ha registrato un gran aumento delle dimensioni della cisti che ha reso necessaria l'exeresi e l'innesto autologo di perone. Dopo un anno si è presentata una recidiva per la quale è stato necessario un nuovo intervento chirurgico con sbrigliamento radicale e innesto.

**Risultati.** Buona evoluzione con ricostruzione della metafisi omerale, seppur con deviazione tollerabile della scapola in varo, e soddisfacente ripresa funzionale.

**Conclusioni.** Sebbene le cisti ossee aneurismatiche siano tumori benigni che rispondono generalmente bene al trattamento con sclerosanti, talvolta evolvono in modo torpido e recidivante. Richiedono quindi vari interventi chirurgici e possono compromettere, nei bambini, le articolazioni adiacenti.

---

## Kyste osseux anévrysmal géant sur l'humérus

### RÉSUMÉ

**Objetifs.** Exposer un cas de kyste osseux anévrysmal sur l'humérus distal avec récidence.

**Patient et méthode.** Petite fille âgée de deux ans présentant un kyste osseux anévrysmal sur la métaphyse distale de l'humérus droit. Cette enfant avait été traitée sans succès par injection intra-osseuse sclérosante d'Ethibloc®. L'évolution se fit vers une grande augmentation de taille, ce qui imposa une exérèse et une autogreffe du péroné. Une année plus tard, une récidence obligea à pratiquer une nouvelle intervention avec curetage radical et greffe.

**Résultats.** Bonne évolution avec reconstruction de la métaphyse humérale, bien qu'avec une déviation tolérable de la palette humérale en varus, et récupération fonctionnelle satisfaisante.

**Conclusions.** Bien que les kystes anévrysmaux soient des tumeurs bénignes qui répondent généralement bien au traitement avec des sclérosants, l'évolution est quelquefois torpide et récidivante, ce qui impose plusieurs chirurgies qui, chez les enfants, peuvent mettre en jeu les articulations adjacentes.

---

## Stark ausgeprägte aneurysmatische Knochenzyste des Humerus

### ZUSAMMENFASSUNG

**Ziele.** Vorstellung des Falles einer aneurysmatischen Knochenzyste des distalen Humerus mit Rückfall.

**Patient und verfahren.** Zweijähriges Mädchen mit aneurysmatischer Knochenzyste in distaler Metaphyse des rechten Humerus, die erfolglos mit sklerosierender Intraossär-Injektion von Ethibloc® behandelt wurde und die stark an Größe zunahm, so dass eine Ektomie und ein autologes Transplantat aus dem Wadenbein notwendig wur-

den. Nach einem Jahr kam es zu einem Rückfall, der einen neuen Eingriff mit radikalem Kürettieren und Einsetzen eines Transplantats notwendig machte.

Ergebnisse. Gute Entwicklung mit Neubildung der Metaphyse des Humerus, jedoch mit annehmbarer Abweichung des Schulterbeins nach innen. Zufriedenstellende Wiederherstellung der Bewegungsfunktion.

Schlussfolgerungen. Obwohl es sich bei aneurysmatischen Knochenzysten um gutartige Tumore handelt, die im Allgemeinen gut auf die Behandlung mit sklerosierenden Injektionen ansprechen, verläuft die Entwicklung in manchen Fällen jedoch torpide und mit Rückfällen und erfordert wiederholte chirurgische Eingriffe. Dabei können bei Kinder auch die angrenzenden Gliedmaßen betroffen werden.