Rev esp cir ortop traumatol. 2010;54(5):310–313

Revista Española de Cirugía Ortopédica y Traumatología

www.elsevier.es/rot

NOTA CLÍNICA

Quiste óseo aneurismático subperióstico localizado en el quinto metatarsiano en una niña de 13 años: a propósito de un caso

L. Pino-Almero[a,*], M.F. Mínguez-Rey[a] y M.C. Faus-Alcañiz[b]

[a]*Servicio de Traumatología y Cirugía Ortopédica, Hospital Clínico Universitario de Valencia, Valencia, España*
[b]*Servicio de Anatomía Patológica, Hospital Clínico Universitario de Valencia, Valencia, España*

Recibido el 28 de diciembre de 2009; aceptado el 27 de abril de 2010
Disponible en Internet el 27 de mayo de 2010

PALABRAS CLAVE
Quiste óseo aneurismático;
Tumor;
Pie

Resumen
Objetivo: Se presenta un caso poco frecuente de quiste óseo aneurismático por su localización y por su forma de presentación clínica y radiográfica inicial.
Caso clínico: Mujer de 13 años que consultó por dolor atraumático en el borde externo del pie derecho con radiografía inicial normal y presentación al cabo de un mes de una lesión tumoral subperióstica en la diáfisis del quinto metatarsiano, cuyo diagnóstico definitivo fue de quiste óseo aneurismático tipo IV de Campanacci.
Conclusiones: Existen pocos casos en la literatura médica de quiste óseo aneurismático que presenten estas características. Por su localización poco frecuente, este tipo de lesiones pueden plantear dificultades diagnósticas con otro tipo de enfermedades, como tumores, fracturas de estrés o infecciones.
© 2009 SECOT. Publicado por Elsevier España, S.L. Todos los derechos reservados.

KEYWORDS
Aneurysmal bone cyst;
Tumour;
Foot

Subperiosteal aneurysmal bone cyst located in the fifth metatarsal shaft in a 13 year-old girl

Abstract
Objective: We present s a case of aneurysmal bone cyst, unusual and rare, both for its location and its initial clinical and radiographic presentation.
Case report: A girl of 13 years consulting for atraumatic pain in the outer edge of right foot, with a normal initial X-ray and then one month later presented with a subperiosteal tumour lesion in the fifth metatarsal shaft, which was definitively diagnosed as an aneurysmal bone cyst, Campanacci type IV.

*Autor para correspondencia.
Correo electrónico: laupialm@yahoo.es (L. Pino-Almero).

1888-4415/$ - see front matter © 2009 SECOT. Publicado por Elsevier España, S.L. Todos los derechos reservados.
doi:10.1016/j.recot.2010.04.004

Conclusions: There are few cases in the literature of aneurysmal bone cyst with these characteristics. Such lesions may pose significant diagnostic difficulties with other pathologies, such as tumours, stress fractures or infections, due to its unusual presentation.
© 2009 SECOT. Published by Elsevier España, S.L. All rights reserved.

Introducción

La OMS define el quiste óseo aneurismático como una lesión expansiva osteolítica consistente en espacios llenos de sangre de tamaño variable que están separados por septos del tejido conectivo que contienen trabéculas del hueso o el tejido osteoide y células gigantes osteoclásticas[1]. Constituye el 6% de las lesiones primarias óseas y aparece predominantemente en la infancia. El 76% de los pacientes son menores de 20 años, y la máxima incidencia es en la segunda década de la vida. La incidencia anual es de 0,14 casos por 100.000 habitantes con una relación hombre/mujer de 1:1,04[2].

Su forma típica afecta a la zona medular metafisaria de los huesos largos, mientras que la localización cortical o subperióstica es poco frecuente. Los huesos largos son los más afectados. La tibia es el hueso afectado con mayor frecuencia, seguida del fémur y el húmero[3].

El curso clínico es rápido; en el 72% de los casos, el período transcurrido entre la aparición de los síntomas y el tratamiento es menor de 6 meses. El primer síntoma suele ser dolor asociado a tumefacción de la zona y en un 25% de los casos el síntoma inicial está relacionado con un traumatismo.

Se presenta el caso de una paciente con un quiste óseo aneurismático de localización atípica y de rápida evolución clínica y radiográfica desde su clínica inicial, únicamente con dolor y sin expresión radiográfica inicial.

Caso clínico. Paciente de 13 años de sexo femenino que acudió a urgencias y refirió dolor difuso en el pie derecho sin ningún antecedente traumático previo. El dolor presentaba características mecánicas, aumentaba con la deambulación y disminuía con el reposo. Se realizó un estudio radiográfico inicial del pie con proyecciones dorsoplantar y oblicua sin apreciar ninguna lesión aparente (fig. 1), por lo que se recomendó a la paciente reposo y tratamiento con antiinflamatorios.

Transcurridos 10 días, la paciente acudió de nuevo a urgencias por persistencia del dolor en dicho pie. En esta ocasión, el dolor se localizó en el borde externo del pie sobre la diáfisis del quinto metatarsiano, por lo que se realizaron unas nuevas radiografías. En esta ocasión se detectó una imagen de reacción perióstica sobre la cortical externa de la diáfisis del quinto metatarsiano que se interpretó como una fractura por sobrecarga (fig. 1). Con este diagnóstico se le aplicó un vendaje enyesado y se envió para revisión a las 3 semanas.

Transcurrido este período se le retiró la inmovilización y se le autorizó la carga progresiva con plantillas, y se la citó para un nuevo control clínico y radiográfico en un mes. Cuando acudió a la revisión, la paciente se encontraba asintomática. Sin embargo, presentaba una tumoración de 2×2 cm de diámetro levemente eritematosa, no fluctuante ni dolorosa a la palpación y adherida a planos profundos localizada en el borde externo del pie sobre el quinto metatarsiano. Radiográficamente, se apreció una tumoración excéntrica, ovalada, polilobulada, de aspecto lítico, por debajo del periostio de la cortical lateral de la diáfisis del quinto metatarsiano (fig. 1) y sin lesión de la cortical ni de la zona medular. También observamos un despegamiento del periostio de la cortical medial. Ante estos hallazgos se decidió su ingreso hospitalario para estudio y tratamiento.

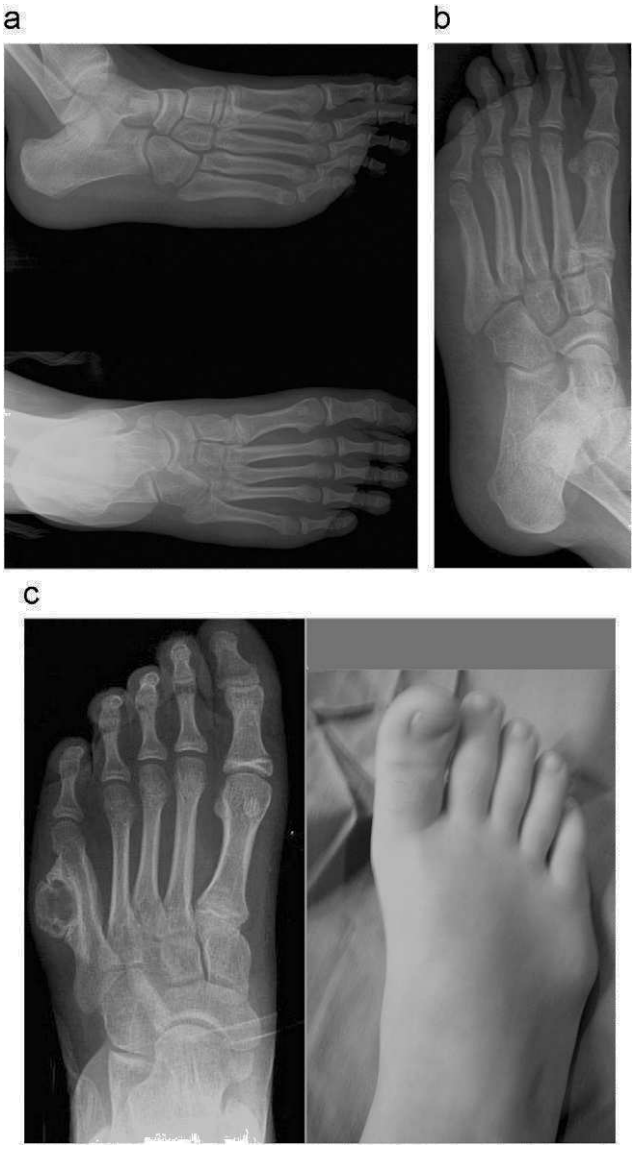

Figura 1 a) Radiografías iniciales sin apreciarse lesión. b) A los 10 días reacción perióstica en la cortical externa del quinto metatarsiano. c) A los 2 meses con tumoración sobre la cortical externa del quinto metatarsiano y despegamiento perióstico medial.

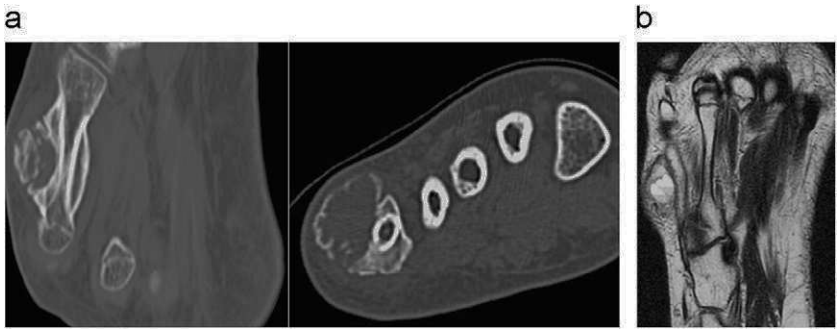

Figura 2 a) Cortes de la tomografía computarizada, excrecencia ósea en el contorno lateral del quinto metatarsiano. b) Resonancia magnética, exostosis excéntrica en vertiente lateral del quinto metatarsiano, ausencia de lesión cortical o medular, con niveles líquido-líquido en su interior y captación de contraste.

Figura 3 Radiografías a los 6 meses de la cirugía.

Para completar el estudio se solicitaron una TC y una RM del pie. En la TC (fig. 2) se apreció una gran excrecencia ósea en el borde lateral de la diáfisis del quinto metatarsiano que presentó un contorno irregular pero bien definido con zonas ocupadas por una densidad de las partes blandas sin calcificaciones en su interior, cuyas características orientaban a una tumoración cortical de crecimiento externo parostal asociado a una reacción cortical adyacente. En la RM (fig. 2) apareció una exostosis excéntrica hacia la vertiente lateral del quinto metatarsiano sin alteración significativa de las partes blandas adyacentes así como ausencia de lesión cortical o afectación medular con niveles líquido-líquido en su interior y captación de contraste, tras la administración de gadolinio, sin claras características de agresividad. Se planteó el diagnóstico diferencial con una proliferación osteocondromatosa parostal, condroma periostal y osteosarcoma superficial. El rastreo óseo informó de lesión hipercaptante en el quinto metatarsiano del pie sin lesiones periféricas que indiquen metástasis.

Se realizó una biopsia escisional de la lesión, cuyo informe anatomopatológico señaló un aspecto macroscópico del tumor indicativo de quiste óseo aneurismático y microscópicamente como tejido óseo maduro laminar y trabecular, que presentaba una formación quística central delimitada por células fusiformes, sin mitosis ni atipias, que se acompañan de células gigantes multinucleadas con hematíes y un crecimiento expansivo, lo que confirmó el diagnóstico de quiste óseo aneurismático.

La evolución clínica de la paciente tras la resección del tumor fue favorable (fig. 3) y no se observó recidiva tumoral a los 2 años del tratamiento quirúrgico.

Discusión

El quiste óseo aneurismático es una lesión tumoral benigna que generalmente presenta una localización intramedular y metafisaria. Rara vez se localiza superficialmente y subperióstico. En el artículo de Capanna et al[4], en su serie de 121 casos, el tipo subperióstico comprendió solo el 7% de sus casos; de los 238 casos de la Clínica Mayo, solo el 7% eran lesiones superficiales[5], y Maiya et al[6] recogieron 144 casos, de los que solo 23 tenían una localización superficial y 11 de ellos subperiósticos.

En cuanto al hueso afectado con mayor frecuencia, son los huesos largos seguidos por las vértebras[2,3,7–9]. Por tanto, aunque cualquier hueso del esqueleto puede afectarse, la localización en los huesos acros es rara, aunque se han descrito quistes óseos aneurismáticos en los metatarsianos[10], los metacarpianos[11–13], las falanges del pulgar[14,15], la rótula[16] y los huesos del tarso[17], pero ninguno de ellos con una localización subperióstica. Thompson[18] describió un caso subperióstico localizado en el cuello del astrágalo y Ríos et al[19] describieron otro de tipo v de Campanacci localizado en el astrágalo en un niño de 14 años asociado a un condroblastoma.

La patogenia de este tumor no está clara. Se ha indicado que los traumatismos podrían ser un factor causal en los de localización subperióstica[20]. Capanna et al[4] encontraron antecedente traumático en el 23% de sus casos.

Campanacci et al[3] desarrollaron un sistema de clasificación radiográfica para los quistes óseos aneurismáticos en 5 tipos. El caso descrito corresponde a un tipo IV, es decir, se trata de una forma subperióstica con erosión superficial de la cortical subyacente, en el que inicialmente la elevación del periostio puede verse solo con radiografías blandas o angiografía y, posteriormente, el periostio forma una capa del hueso reactivo que afecta característicamente a la

diáfisis. Es el subtipo menos frecuente. Entre los 198 casos recogidos por Campanacci et al[3], solo 9 eran tipo IV. Woertler et al[21] describieron 6 casos de formas subperiósticas, pero todos ellos en los huesos largos.

En las formas subperiósticas, el diagnóstico es más complicado debido a su localización atípica, pero sus características radiográficas similares a las de los intramedulares suelen orientar el diagnóstico hacia el quiste óseo aneurismático. Aunque la RM resulta muy útil para su diagnóstico por la presencia característica de septos, niveles de fluidos, estos hallazgos no son patognomónicos y sigue siendo necesaria la confirmación anatomopatológica. Histológicamente, las formas subperiósticas e intracorticales son idénticas a las intramedulares. Como formas relativamente poco frecuentes de esta entidad, deben incluirse en el diagnóstico diferencial radiográfico de otras lesiones intracorticales o subperiósticas. Así, se debe establecer el diagnóstico diferencial con el osteoma osteoide, el hemangioma, el osteosarcoma y el fibroma condromixoide[22].

El tratamiento de elección es quirúrgico, ya que la curación espontánea del quiste es poco frecuente. Clásicamente, el tratamiento estándar consistía en el legrado seguido de relleno con injerto óseo pero, debido a la alta tasa de recidivas, actualmente se tiende a aplicar tratamientos adyuvantes, como la cementación, la crioterapia y la embolización. La cementación con polimetilmetacrilato seguido de reemplazo a los 4–6 meses por injerto óseo parece ser más efectivo que solo el legrado y el injerto óseo. La crioterapia adyuvante también aumenta la tasa de curación y la embolización se puede utilizar previamente a la cirugía para interrumpir selectivamente la vascularización del quiste, y facilitar así la cirugía posterior, sobre todo en áreas de acceso limitado, como el raquis o la pelvis. En los subtipos subperiósticos (tipo IV y V) está indicada la resección total o parcial y ambas para asegurar la curación del quiste[3]. En nuestro caso se realizó una resección total del quiste con posterior estudio anatomopatológico que confirmó el diagnóstico.

Uno de los principales problemas de estas lesiones es su tendencia a la recidiva, por lo que se ha indicado la utilización de fresas de alta velocidad durante el legrado de la pared del quiste para disminuir la recurrencia de este[23].

En conclusión, los quistes óseos aneurismáticos aunque son tumores benignos, pueden presentar características clínicas y radiográficas de agresividad que dificultan su diagnóstico. Se deben sospechar ante lesiones bien delimitadas, expansivas, que crecen en la cortical o debajo del periostio con características radiográficas similares a los típicos quistes óseos aneurismáticos intramedulares.

Bibliografía

1. Schajowicz F. Histological Typing of bone tumors. World Health Organization International Histological Classification of Tumors. Berlin: Springer-Verlag; 1993 p. 37.
2. Leithner A, Windhager R, Lang S, Haas OA, Kainberg F, Kotz R. Aneurysmal bone cyst. A population based epidemiologic study and literature review. Clin Orthop Relat Res. 1999;363: 176–9.
3. Campanacci M, Capanna R, Picci P. Unicameral and aneurysmal bone cysts. Clin Orthop Relat Res. 1986;204:25–36.
4. Capanna R, Bettelli G, Biagini R, Ruggieri P, Bertoni F, Campanacci M. Aneurysmal bone cysts of long bones. Ital J Orthop Traumatol. 1985;11:409–17.
5. Vergel De Dios AM, Bone JR, Shives TC, Mc Leod RA, Unni KK. Aneurysmal bone cyst: A clinicopathologic study of 238 cases. Cancer. 1992;69:2921–31.
6. Maiya S, Davies M, Evans N, Grimer J. Surface aneurysmal bone cysts: A pictorial review. Eur Radiol. 2002;12:99–108.
7. Dormans JP, Hanna BG, Johnston DR, Khurana JS. Surgical treatment and recurrence rate of aneurysmal bone cysts in children. Clin Orthop Relat Res. 2004;421:205–11.
8. Marcove RC, Sheth DS, Takemoto S, Healey JH. The treatment of aneurysmal bone cyst. Clin Orthop Relat Res. 1995;311: 157–63.
9. Cottalorda J, Kohler R, Sales de Gauzy J, Chotel F, Mazda K, Lefort G, et al. Epidemiology of aneurysmal bone cyst in children: A multicenter study and literature review. J Pediatr Orthop B. 2004;13:389–94.
10. Hoeffel JC, Mainard L, Fornes P. A case of cystic lesion of aneurysmal type on a metatarsus. J Radiol. 1995;76:159.
11. Borrelli J, McCormack RR. Aneurysmal bone cyst involving the long finger metacarpal in a child: A case report. J Hand Surg (Am). 1994;19:800–2.
12. Feyeux M, Drevet D, Champion C, Joffre P, Garin C. Aneurysmal cyst of uncommon site. Apropos of a case. Contribution of MRI. J Radiol. 1994;75:369–72.
13. Duteille F, Gayet LE, Goujon JM, Duport G. Metacarpal aneurysmal cysts. Report of two cases and review of the literature. Ann Chir Main Mem Super. 1995;14:229–34.
14. Sakka SA, Lock M. Aneurysmal bone cyst of the terminal phalanx of the thumb in a child. Arch Orthop Trauma Surg. 1997;116:119–20.
15. Sproule JA, Salmo E, Mortimer G, O'Sullivan M. Aneurysmal bone cyst of the proximal phalanx of the thumb in a child. Hand Surg. 2002;7:147–50.
16. Del Pino JM, Laguía M, Gomar Sancho F, Martorell M. Quiste óseo aneurismático de localización rotuliana. Rev Esp Cir Ort. 1983;18:53–60.
17. Casadei R, Ruggieri P, Moscato M, Ferraro A, Picci P. Aneurysmal bone cyst and giant cell tumor of the foot. Foot Ankle Int. 1996;17:484–95.
18. Thompson PC. Subperiosteal giant-cell tumor: Ossifying subperiosteal hematoma aneurysmal bone cyst. J Bone Joint Surg (Am). 1954;36-A:281–306.
19. Ríos A, Fahandezh-Saddi H, Villa A, Soleto J, Vaquero J. Quiste óseo aneurismático en astrágalo. A propósito de un caso. Acta Ortop. Castellano-Manch. 2003;4:40–4.
20. Burnstein MI, DeSmet AA, Hafez GR, Heiner JP. Case report 611. Skeletal Radiol. 1990;19:294–7.
21. Woertler K, Brinkschmidt C. Imaging features of subperiosteal aneurysmal bone cyst. Acta Radiol. 2002;43:336–9.
22. Jackson RP, Reckling FW. Intracortical and subperiosteal lesion of unknown etiology. Clin Orthop Relat Res. 1978;130:260–2.
23. Ramírez AR, Stanton RP. Aneurysmal bone cyst in 29 children. J Pediatr Orthop. 2002;22:533–9.