

Caso clínico

## Quiste óseo aneurismático localizado en el techo acetabular en un varón de 11 años

Checa-Betegón P,\* Martínez-Aedo AU,\* García-Maroto R,\* Cebrián-Parra JL,\* Marco-Martínez F\*

Hospital Clínico Universitario San Carlos, Madrid, España.

**RESUMEN.** El quiste óseo aneurismático es una tumoración benigna poco común, de aparición en la infancia generalmente y a nivel de extremidades. El tratamiento más habitual consiste en el curetaje y relleno con injerto. No obstante, localizaciones poco accesibles a la cirugía suponen un reto terapéutico. Se presenta el caso de un paciente de 11 años con cojera y dolor en cadera derecha sin antecedente traumático ni infeccioso. En los estudios de imagen con TAC y RM se evidencia una lesión lítica expansiva que ocupa todo el techo del acetáculo y pala ilíaca derecha, sugestiva de un quiste óseo aneurismático presentando fractura acetabular asociada. Se realizó una biopsia que confirmó el diagnóstico. Se trató mediante embolización guiada por angiografía debido al gran volumen y alto riesgo de fractura, después del curetaje y relleno con aloinjerto evolucionó satisfactoriamente y el paciente se encuentra asintomático al año de la intervención.

**Palabras clave:** Quiste óseo aneurismático, tratamiento, embolización, curetaje, injerto.

**ABSTRACT.** The aneurysmal bone cyst is a benign rare tumor, which usually develops during childhood and it's more often found in limbs. The most accepted treatment consists in curetagge and filling with graft. However, certain locations may be inaccessible for surgery and represent therapeutic challenges. We present the case of an 11 year-old male patient with limping and right hip pain without any traumatic nor infectious record. In the image studies with CT and MRI a lytic and expansive lesion was found in the upper part of the right acetabulum and right iliac wing, all of which suggested an aneurysmal bone cyst with an associated acetabular fracture. A biopsy was performed which confirmed the diagnosis. He was treated with a CT-guided embolization and, due to its size, curetagge and allograft filling afterwards. He was asymptomatic after 1 year of follow-up.

**Key words:** Aneurysmal bone cyst, treatment, embolisation, curetagge, graft.

### Introducción

El quiste óseo aneurismático es una neoplasia benigna que se caracteriza por la formación de cavidades quísticas llenas de sangre y separadas por tabiques de tejido conectivo vascular. Tiene una incidencia de 13-14 casos/10,000,000 de habitantes/año y supone 1% de los tumores benignos. Es típico en la infancia (menores de 20 años) y por lo regular en miembros inferiores, fundamental-

mente a nivel metafisario en la rodilla. A nivel de pelvis se encuentra en 4-12% de los casos.

El síntoma más frecuente es el dolor, aunque otras manifestaciones pueden ser la tumefacción, masa palpable, fracturas patológicas, etcétera.

Es motivo de controversia el manejo de este tipo de lesiones, pudiéndose emplear inyecciones percutáneas de matriz ósea desmineralizada y variantes, embolizaciones repetidas, curetaje y relleno, etcétera.

\* Departamento de Cirugía Ortopédica y Traumatología, Hospital Clínico Universitario San Carlos, Madrid, España.

Dirección para correspondencia:

P Checa-Betegón

E-mail: pachebet@gmail.com

## Caso clínico

Se presenta el caso de un varón de 11 años de edad, sin reacciones alérgicas ni antecedentes médico-quirúrgicos de interés que consultó por clínica de dolor inguinal y cojera en miembro inferior derecho de varios meses de evolución que le obligaba a la ingesta de analgésicos de manera ocasional. El paciente no refería ningún antecedente traumático.

En la anamnesis y exploración física el paciente no presentaba ningún hallazgo sugestivo de que se tratase de un proceso infeccioso.

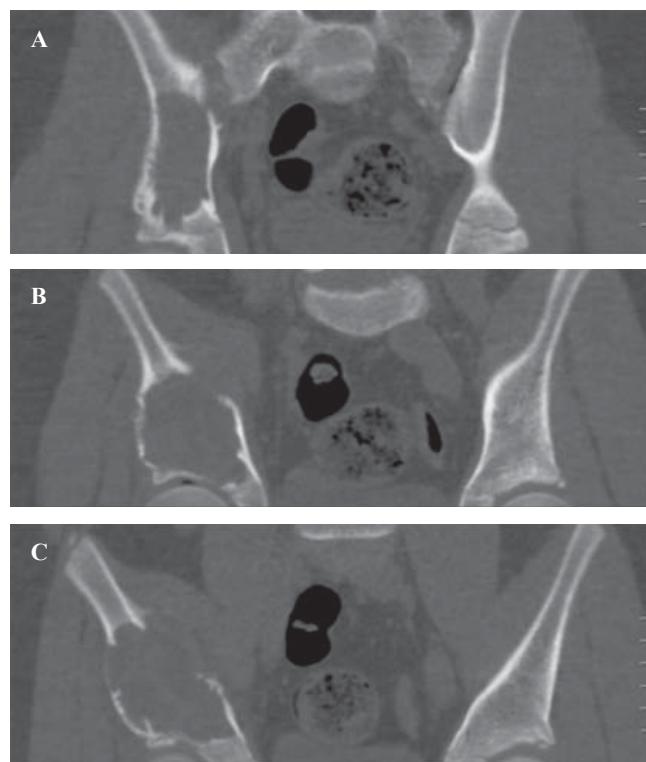
En la radiografía simple se evidenció una lesión lítica que insuflaba la cortical en acetáculo y pala ilíaca derecha (*Figura 1*). En la TAC se confirmó la presencia de una lesión lítica expansiva en pala ilíaca derecha que afectaba al techo del acetáculo derecho, con una densidad similar a la de los planos musculares y numerosas imágenes de nivel líquido-líquido (*Figura 2*). En la RM se evidenció igualmente la presencia de una lesión expansiva en pala ilíaca derecha, con diámetros máximos de  $6.5 \times 4.5 \times 5.7$  cm (APxTx L), que caudalmente se extendía hasta el techo del acetáculo y producía una marcada insuflación superomedial con componente de partes blandas y que abombaba sobre el músculo psoas ilíaco (*Figura 3*). Se trataba de una lesión bien definida y que en su interior presentaba múltiples niveles líquido-líquido. Tras la administración de contraste, se observó únicamente un fino realce de los septos presentes en el interior de la tumoración así como alrededor de la misma, en probable relación con discretos cambios inflamatorios reactivos.

Para realizar el diagnóstico definitivo se practicó una biopsia guiada por TAC que confirmó el diagnóstico de quiste óseo aneurismático descartándose la presencia de cambios histológicos sugerentes de malignidad.

Debido a la localización de la neoplasia, el elevado riesgo de fractura, el gran tamaño, el alto riesgo de sangrado

y el riesgo quirúrgico importante se decidió en la sesión multidisciplinar del comité de sarcomas óseos y de partes blandas del hospital la embolización selectiva percutánea del tumor con posterior curetaje y relleno con injerto óseo como primera opción terapéutica.

El servicio de radiología intervencionista de nuestro centro procedió a la embolización selectiva de la división posterior de la arteria hipogástrica derecha, la arteria glútea



**Figura 2:** TAC cortes coronales.



**Figura 1:** Radiografía anteroposterior donde se evidencia la lesión.



**Figura 3:** RM cortes coronales.

superior derecha así como las ramas que originaban el relleno de la lesión de forma supraselectiva. No obstante, en la parte más inferoanterior de la lesión se detectaron ramas filiformes que por sus dimensiones no fueron cateterizables ni embolizables.

Tras la embolización, el paciente presentó dolor en el miembro inferior derecho que cedió con la analgesia habitual.

Un día después de la embolización, se practicó un abordaje iliofemoral, realizándose curetaje de la lesión y relleno con aloinjerto de esponjosa (10 botes de aloinjerto, 100 g). No hubo ninguna complicación intraoperatoria. Las muestras remitidas al servicio de anatomía patológica confirmaron el diagnóstico.

No hubo ninguna complicación postoperatoria y el paciente fue dado de alta. Se autorizó el alta del paciente a las seis semanas. La evolución ambulatoria fue satisfactoria (RX). El seguimiento postoperatorio realizado hasta la fecha ha sido de un año, encontrándose clínicamente asintomático y sin signos radiográficos de recidiva (*Figura 4*).

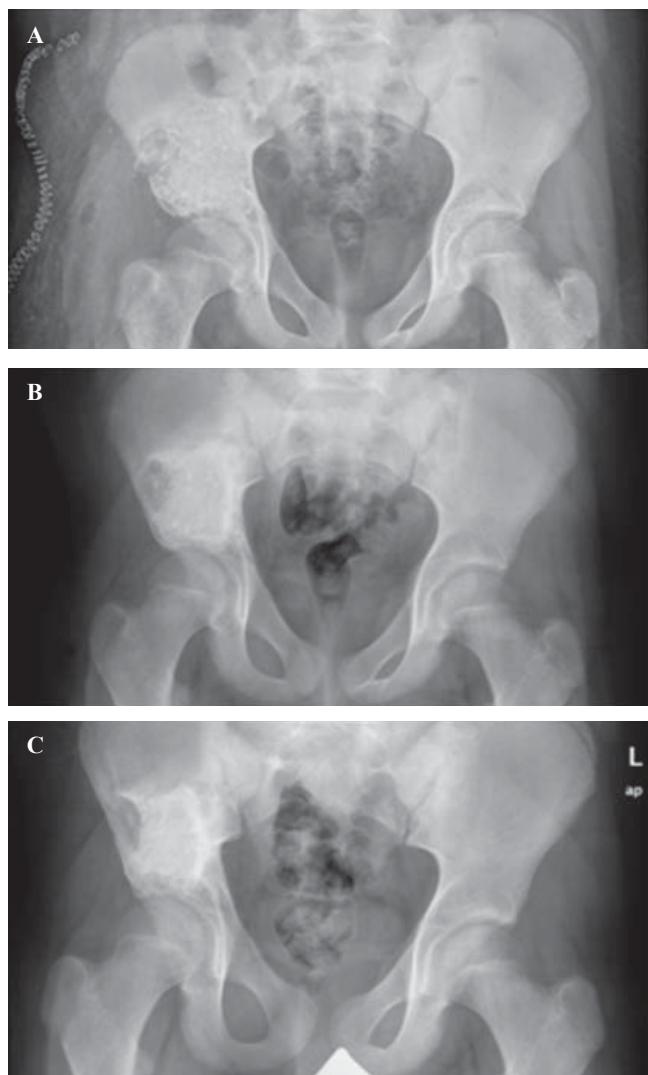


Figura 4: RX evolución postoperatoria, 6M, 12M.

## Discusión

El quiste óseo aneurismático fue descrito por primera vez por Jaffe y Lichtenstein y tiene una incidencia de 13-14 casos/10,000.000 de habitantes/año y supone 1% de los tumores benignos.<sup>1,2,3,4,5,6</sup> En aproximadamente 66% de los casos se diagnostica en menores de 20 años, siendo la localización más frecuente los miembros inferiores, especialmente a nivel de la rodilla, sobre todo a nivel metafisario.<sup>1,2,4</sup> Otras localizaciones pueden ser la cintura escapular, la columna (fundamentalmente en los elementos posteriores), siendo la pelvis menos habitual, suponiendo aproximadamente 4-12% de lesiones de este tipo.<sup>1,2,4,5</sup> Se trata de una neoplasia benigna que se caracteriza por la formación de cavidades quísticas llenas de sangre y separadas por tabiques de tejido conectivo vascular.<sup>1,2,3,6</sup>

Puede ser primario, 70% aproximadamente,<sup>4</sup> en cuyo caso suele detectarse una translocación t que produce una proteína químérica CDH11-UPS6, una proteasa que estimula las células B que influyen en la formación tumoral.<sup>1</sup> También puede ser secundaria a otro tipo de lesiones, 30% aproximadamente,<sup>4</sup> como la displasia fibrosa, tumor de células gigantes o condroblastoma.

Se trata de una lesión expansiva, destructiva y con bordes geográficos que, si bien no produce metástasis, tiene alta probabilidad de recurrencia local en torno a 10-59%,<sup>2,3,4,5,6,7</sup> aunque varias series concuerdan en que las probabilidades de la misma se modifican en función de varios factores como la edad, siendo más frecuente la recidiva en menores de 16 años<sup>3</sup> debido a la presencia de fisuras de crecimiento aún abiertas,<sup>5</sup> la localización y el tamaño de la lesión, aumentando las tasas de recurrencia si es mayor de 5 cm<sup>1,2,3,7,8</sup> hasta 58.8%,<sup>8</sup> mientras que si es menor de 5 cm la recurrencia aproximada es de 21.2%.<sup>8</sup>

El síntoma más frecuente es el dolor,<sup>2,4,5</sup> aunque también podemos detectar tumefacción, masa palpable si la localización es superficial e incluso pueden iniciar con una fractura patológica. En ocasiones, en función de la localización, se puede encontrar una clínica más inespecífica por afectación de las estructuras vecinas, bien sea clínica abdominal o urinaria en las localizaciones pélvicas o clínicas neurológicas cuando la lesión se encuentra en la columna vertebral.<sup>5</sup>

En las diferentes pruebas de imagen es característica la lesión lítica, geográfica, expansiva con aspecto polilobulado o «en pompas» y niveles líquido-líquido, debido al depósito de componentes celulares del suero de la sangre durante la inmovilización del paciente cuando se realiza la RM.<sup>4</sup>

Pueden existir casos de regresión espontánea, incluso de osificación postbiopsia, pero no es lo habitual.<sup>2,4,9</sup> La mayor parte de las veces, pese a tratarse de lesiones benignas, su carácter agresivo local obliga a llevar a cabo medidas terapéuticas, por lo regular quirúrgicas.<sup>1,2,3,4,5,6,9,10</sup>

El tratamiento de estas lesiones sigue siendo motivo de controversia hoy en día. La agresividad del tratamiento y la orientación terapéutica dependerá, entre otras cosas, de la localización, la edad y el tamaño de la lesión, pues, como se

ha comentado previamente, pueden ser determinantes en la recurrencia de la misma.<sup>1,2,3,4</sup>

Lo más habitual es llevar a cabo el curetaje de la lesión y rellenarla con injerto,<sup>2,4</sup> esta técnica presenta una tasa de recurrencia descrita de aproximadamente 13%.<sup>3</sup> Agarwal et al.<sup>11</sup> sugirieron que el tratamiento más adecuado en casos similares al que se expone en este artículo debería ser la cirugía, prestando especial atención a la movilidad y estabilidad de la cadera. Papagelopoulos et al.<sup>9</sup> sugieren decidir el tratamiento en los quistes óseos aneurismáticos de pelvis atendiendo a la extensión y agresividad de la lesión. Recomiendan realizar curetaje intralesional con o sin aloinjerto cuando es menor de 5 cm y expresa mínima destrucción que no compromete la integridad del acetábulo; mientras que si mide más de 5 cm, recomiendan una aproximación terapéutica agresiva con curetaje escisional.

Se han descrito también otras técnicas como tratamiento neoadyuvante o incluso como técnicas definitivas con buenos resultados, ya sean inyecciones percutáneas de aspirado de médula ósea, materiales fibrosantes,<sup>1,2,3,4,5</sup> embolizaciones repetidas<sup>2,3,4,5</sup> o radioterapia (aunque esta última no se suele emplear por el riesgo de sarcoma inducido).

La embolización supone una alternativa reciente que puede ser empleada tanto como tratamiento definitivo de la lesión (una o varias embolizaciones en función de la respuesta clínica y radiológica) o como tratamiento neoadyuvante.<sup>2,12,13</sup> Consiste en la inducción de formación de un trombo que provoque la oclusión de los vasos arteriales que nutren la lesión empleando un catéter, provocando isquemia y necrosis de la misma.<sup>7</sup> Se han publicado tasas de éxito que oscilan entre 75-94%<sup>7,8,12</sup> y una tasa de recurrencia de 39-44%.<sup>12</sup> Este porcentaje se debe, en parte, a que estas lesiones reciben vascularización a partir de más de una arteria,<sup>2,13</sup> por lo que suelen ser necesarias embolizaciones repetidas.<sup>7</sup> Su empleo como tratamiento definitivo estaría más indicado en casos en los que el tratamiento quirúrgico y la localización supusieran riesgos demasiado elevados (como en los quistes pélvicos, donde existe alto riesgo de sangrado, de fractura y donde hay importantes estructuras vasculonerviosas en la proximidad).<sup>2</sup> Como agentes embolizantes se pueden emplear diferentes sustancias como Gelfoam, partículas de alcohol polivinílico, alambre, etc.<sup>2,8,12,13</sup> Sin embargo, este procedimiento no está libre de complicaciones, pudiendo verse lesionados vasos sanos y generando necrosis de tejidos no patológicos<sup>1,3,6,13</sup> como isquemia cutánea o de otras estructuras vitales próximas a la lesión. Por otro lado, ofrece la ventaja de que no altera el crecimiento de las fisis próximas a la lesión,<sup>7</sup> al contrario que la cirugía que puede generar alteraciones en el crecimiento en hasta 10% de los casos.<sup>10</sup>

La escleroterapia, fundamentalmente con etanol, es otra de las alternativas terapéuticas. Consiste en provocar una lesión al endotelio que inicie la cascada de coagulación que termine generando trombosis.<sup>10</sup> Se puede emplear también de manera aislada o en paralelo con otros tratamientos como curetajes o embolización.<sup>3</sup> La tasa de éxito en las series asciende hasta 97%.<sup>10</sup> Lambot-Juhan et al.<sup>14</sup> concluyeron que

90% aproximadamente de los quistes óseos aneurismáticos podían ser manejados mediante escleroterapia percutánea con etanol.<sup>3,14</sup> No obstante, elevadas dosis de etanol son susceptibles de provocar reacciones adversas como disnea, arritmias, convulsiones o hipoglucemias.<sup>3</sup> La principal ventaja, al igual que en la embolización, es que resulta una opción terapéutica útil en quistes de localización compleja para la cirugía<sup>10</sup> con menor morbilidad. Puede repercutir en el crecimiento fisario de estos pacientes en hasta 4% de los casos.<sup>10</sup>

Respecto al paciente que se presenta, Saus Milán et al.<sup>1</sup> publicaron un caso similar al expuesto en este artículo con una lesión de grandes dimensiones (> 5 cm) que manejaron únicamente mediante dos embolizaciones, dicho paciente muestra buena evolución clínica al año del tratamiento.

Rossi et al.<sup>2</sup> trajeron a un varón de tres años con un quiste óseo aneurismático de localización pélvica mediante tres embolizaciones con N-2-butil-cianoacrilato. Tras la segunda embolización, a los tres meses el paciente se encontraba clínicamente asintomático. No obstante, persistía una imagen de lesión en la región posterior de la pelvis, por lo que realizaron una tercera embolización. Seis años después, el paciente se encontraba curado clínica y radiográficamente.

Kim et al.<sup>3</sup> trajeron un quiste óseo aneurismático en hueso ilíaco en una niña de 12 años mediante curetaje y posterior aplicación de agente esclerosante (etanol). Tres y medio años después, la paciente se mantenía asintomática.

En nuestro caso se decidió un abordaje multidisciplinar, los radiólogos intervencionistas realizaron primero una embolización selectiva y los cirujanos de tumores musculoesculturales completaron el tratamiento con el curetaje y el relleno de la lesión con aloinjerto. Nuestra mayor preocupación era el riesgo de fractura existente dado el tamaño y la localización de la lesión, lo que nos llevó a optar por el doble tratamiento para maximizar las posibilidades de curación.

En la bibliografía se encuentran recogidos datos de resultados a corto y mediano plazo, pero pocas series analizan resultados a largo plazo. Novais et al.<sup>5</sup> analizan resultados a largo plazo (11 años) en pacientes con quiste óseo aneurismático en pelvis tratados mediante cirugía. Clasificaron las lesiones según el sistema descrito por Enneking y utilizaron para la evaluación de los resultados funcionales y clínicos las escalas TEES y el MSTS'93, obteniendo un resultado promedio de 94.9 (rango de 65-100) y de 92.6% (rango de 60-100%), respectivamente. La calidad de vida fue evaluada mediante el score SF-36, con un resultado promedio de 87.4% (rango 62-95%) en pacientes intervenidos.

Los quistes óseos aneurismáticos localizados en pelvis suponen un importante reto terapéutico que obligan a individualizar en función del grado de destrucción local, tamaño o edad del paciente. El tratamiento clásico de curetaje y relleno con injerto puede resultar escaso o inviable, por lo que en casos como el expuesto, entran en juego alternativas neoadyuvantes que disminuyen la agresividad y la morbilidad como la embolización y la escleroterapia, que ofrecen resultados satisfactorios ya sea como tratamiento aislado o combinado con la cirugía.

#### Bibliografía

1. Saus MN, Pino AL, Minguez Rey MF. Quiste óseo aneurismático localizado en trasfondo acetabular en un niño de 7 años: a propósito de un caso. *Rev Esp Cir Ortop Traumatol.* 2016; 40(4): 215-270.
2. Rossi G, Mavrogenis AF, Papagelopoulos PJ, Rimondi E, Ruggieri P. Successful treatment of aggressive aneurysmal bone cyst of the pelvis with serial embolization. *Orthopedics.* 2012; 35 (6): 963-8.
3. Kim CG, Kweon SH. Primary aneurysmal bone cyst in the iliac bone: a case report. *Hip & Pelvis.* 2014; 26(3): 202-5.
4. Heatimish BM, Alshaya OS. Pediatric aneurysmal bone cyst in the ischial region. *Saudi Med J.* 2016; 37(7): 799-803.
5. Novais EN, Zimmerman AK, Lewallen LW, Rose PS, Sim FH, et al. Functional outcomes and quality of life following surgical treatment of aneurysmal bone cysts of the pelvis in children. *J Child Orthop.* 2014; 8(3): 281-8.
6. Doss VT, Weaver J, Didier S, Arthur AS. Serial endovascular embolization as stand-alone treatment of a sacral aneurysmal bone cyst. *J Neurosurg Spine.* 2014; 20(2): 234-8.
7. Rossi G, Mavrogenis AF, Rimondi E, Ciccarese F, Tranfaglia C, Angeletti B, et al. Selective arterial embolisation for bone tumours: experience of 454 cases. *Radiol Med.* 2011; 116(5): 793-808.
8. Rossi G, Rimondi E, Bartalena T, Gerardi A, Alberghini M, Staals EL, et al. Selective arterial embolization of 36 aneurysmal bone cysts of the skeleton with N-2-butyl cyanoacrylate. *Skeletal Radiol.* 2010; 39: 161-7.
9. Papagelopoulos PJ, Choudhury SN, Frassica FJ, Bons JR, Unni KK, Sim FH. Treatment of aneurysmal bone cysts of the pelvis and sacrum. *J Bone Joint Surg Am.* 2001; 83-A(11): 1674-81.
10. Brosjö O, Pechon P, Hesla A, Tsagozis P, Bauer H. Sclerotherapy with polidocanol for treatment of aneurysmal bone cysts. *Acta Orthop.* 2013; 85(5): 502-5.
11. Agarwal A, Goel P, Khan SA, Kumar P, Qureshi NA. Large aneurysmal bone cyst of iliac bone in a female child: a case report. *J Orthop Surg Res.* 2010; 5: 24.
12. Henrichs MP, Beck L, Gosheger G, Streitberger A, Koehler M, Heindel W, et al. Selective arterial embolisation of aneurysmal bone cysts of the sacrum: a promising alternative to surgery. *Rofo.* 2016; 188(1): 53-9.
13. De Cristofaro R, Biagini R, Boriani S, Ricci S, Ruggieri P, et al. Selective arterial embolization in the treatment of aneurysmal bone cyst and angioma of bone. *Skeletal Radiol.* 1992; 21(8): 523-7.
14. Lambot-Juhan K, Pannier S, Grévent D, Péjin Z, Breton S, Berteloot L, et al. Primary aneurysmal bone cysts in children: precutaneous sclerotherapy with absolute alcohol and proposal of a scular classification. *Pediatr Radiol.* 2012; 42(5): 599-605.