



Quiste óseo aneurismático de la columna cervical: manejo quirúrgico en paciente femenino de 15 años de edad. Seguimiento a un año. Reporte de un caso y revisión de la literatura

Ramón Ortega Padrón,* Luis Álvaro Valdez Jiménez**
Hospital Regional 1° de Octubre ISSSTE.

RESUMEN

El quiste óseo aneurismático es una lesión lítica no neoplásica, benigna, expansiva caracterizada por múltiples cavidades llenas de sangre tabicadas por septos de tejido conectivo. La localización en columna cervical es rara presentándose aproximadamente en el 2% de todos los casos, con una predilección a desarrollarse en población pediátrica, 80% en menores de 20 años. Se presenta el tratamiento realizado a una paciente de 15 años de edad, sin antecedentes de importancia que se presenta con disminución de fuerza de hemicuerpo derecho 2/5 Daniels, hipoestesias en dermatomas C5 a T1 derechos que se diagnosticó mediante estudios de gabinete como un quiste óseo aneurismático de C5, con destrucción de cuerpo vertebral e involucro de elementos posteriores. El planteo terapéutico consistió en curetaje de lesión, toma de biopsia e instrumentación en 360° con doble abordaje en un solo evento quirúrgico con colocación de malla, placa cervical, tornillos facetarios e injerto óseo posterior. En el seguimiento actual a un año la paciente persiste asintomática sin rastros de recurrencia, cifosis postlaminectomía, proceso infeccioso u otra complicación. El diagnóstico preciso, precoz, identificación de complicaciones así como el tratamiento oportuno de esta patología constituyen una de las metas para el médico especialista en columna. La resección completa de la lesión está asociada con un pronóstico de curación excelente. Debido a la inestabilidad secundaria de este procedimiento la fusión está indicada en la mayoría de los casos.

Nivel de evidencia: IV

Palabras clave: Quiste óseo aneurismático, columna cervical, cirugía, niños.
(Rev Mex Ortop Ped 2016; 1:51-56)

SUMMARY

Aneurysmal bone cyst is a non-neoplastic benign expansive lytic lesion characterized by multiple blood-filled cavities partitioned by connective tissue septa. The location in cervical spine is rare occurring in approximately 2% of all cases, with a predilection to develop in pediatric population, 80% of cases occur in patients under 20 years. We present the treatment for a 15 year old patient, with a history of decreased strength, hypoesthesia in dermatomes C5 to T1 of the right upper limb. Diagnosed by imaging studies as an aneurysmal bone cyst in the body and posterior elements of C5. The lesion was treated with curettage, and 360° instrumentation by a dual approach in one surgical stage with mesh placement, cervical plate, facet screws and posterior bone graft. At a follow-up of one year the patient remains asymptomatic with no signs of recurrence. Accurate diagnosis, early identification of complications and early treatment of this pathology is one of the goals for treatment. Complete resection of the lesion is associated with an excellent prognosis for healing. Due to the high rate of instability, fusion is indicated in most cases.

Evidence level: IV

Key words: Aneurysmal bone cyst, cervical spine, surgery, children.
(Rev Mex Ortop Ped 2016; 1:51-56)

* Profesor Titular del Curso de Columna, Hospital Regional 1° de Octubre ISSSTE, D.F. Especialista en Ortopedia y Traumatología. Subespecialidad Cirugía de Columna.

** Médico Residente de 4° año Ortopedia y Traumatología.

Este artículo puede ser consultado en versión completa en <http://www.medigraphic.com/opediatria>

INTRODUCCIÓN

El quiste óseo aneurismático es una lesión lítica no neoplásica, benigna, expansiva del hueso que está caracterizada por múltiples cavidades llenas de sangre tabicadas por septos de tejido conectivo, rodeada de

una capa fina de tejido cortical en «cáscara de huevo». Usualmente presente en huesos largos y planos, de predominio en rodilla, con una incidencia de 0.14 por cada 100,000 individuos, con una ubicación en columna del 12 a 30% de los casos con un predominio en columna lumbar y sacro, 10 a 30%, respectivamente, seguida de columna torácica generalmente con involucro de elementos posteriores de la columna con extensión a cuerpo vertebral en un 75 a 90%. La localización en columna cervical es rara presentándose aproximadamente en el 2% de todos los casos, con una predilección a desarrollarse en población pediátrica, 80% en menores de 20 años, de predominio en mujeres, usualmente con involucro de la láminas, pedículos, procesos espinosos y ocasionalmente facetas articulares y cuerpo vertebral. La escisión total está asociada frecuentemente con un buen resultado, pero el abordaje a columna cervical constituye un reto para cirujanos experimentados por su proximidad a estructuras neurovasculares y resultante inestabilidad cervical.¹⁻⁵

El término «quiste óseo aneurismático» fue acuñado por Jaffe y Lichtenstein en 1942 al describir una lesión que aparentaba ser una cavidad llena de sangre con una radiografía con apariencia expansiva similar a un saco aneurismático.^{6,7} La remodelación expansiva en forma de globo del hueso con apariencia en panal de abeja en los estudios radiológicos le dan su nombre. La resección, fusión y estabilización con instrumentación no son la elección para pacientes pediátricos debido a la inestabilidad secundaria.⁴ En este trabajo se informa el caso de una paciente con un quiste óseo aneurismático de C5 tratada con curetaje en un solo evento quirúrgico mediante abordaje anterior y posterior de columna cervical.

PRESENTACIÓN DEL CASO

Femenino de 15 años de edad, estudiante de secundaria, sana y sin antecedentes médicos o quirúrgicos

relevantes. Se presentó a urgencias por disminución progresiva de fuerza de hemicuerpo derecho, de predominio en extremidades torácicas, con tres meses de evolución, antecedente de accidente vial con mecanismo de latigazo cervical, controlándose inicialmente con diversos analgésicos no esteroideos de uso regular; sin embargo, un mes y medio posterior al evento comenzó con disminución de fuerza en extremidades superiores.

Clínicamente mostró con arcos de movilidad de la columna cervical limitados y dolorosos, con dolor a la digitopresión de músculos esternocleidomastoideo y trapecio bilateral, prueba de Adson positiva, con fuerza muscular de trapecio, deltoides, supra e infraespinoso, radiales, cubitales y pronosupinadores con Daniels 2/5 derecho y 4/5 izquierdo, hipoestesias en dermatomas C5, C6, C7, C8 y T1 derechos, reflejos osteotendinosos bicipital, tricipital y supinador disminuidos de predominio derecho, no se apreciaron deformidades en plano frontal o sagital de la columna cervical. Con escala de discapacidad de brazo, hombro y mano (DASH): de 67.5 puntos.

Los estudios de imagen consistieron en radiografías simples anteroposterior y lateral de columna cervical, mostraron rectificación de lordosis cervical, destrucción de cuerpo vertebral de C5 con lisis de apófisis espinosa, con «signo de pedículo ausente» (*Figura 1*). El estudio tomográfico reportó masa expansiva tipo globo con múltiples quistes redondos con niveles líquido-líquido con destrucción de apófisis espinosa de C5, disminución de cuerpo vertebral comprometiendo la columna anterior y media de Denis, con lesión osteolítica que comprometía pedículo y apófisis articular de C5 derecho así como hipertrofia de apófisis articular de C5 izquierdo, corticales adelgazadas con imagen en «cáscara de huevo» (*Figura 2*). La imagen por resonancia magnética con imagen hiperintensa en T1 y T2 que invadía a conducto medular en arco

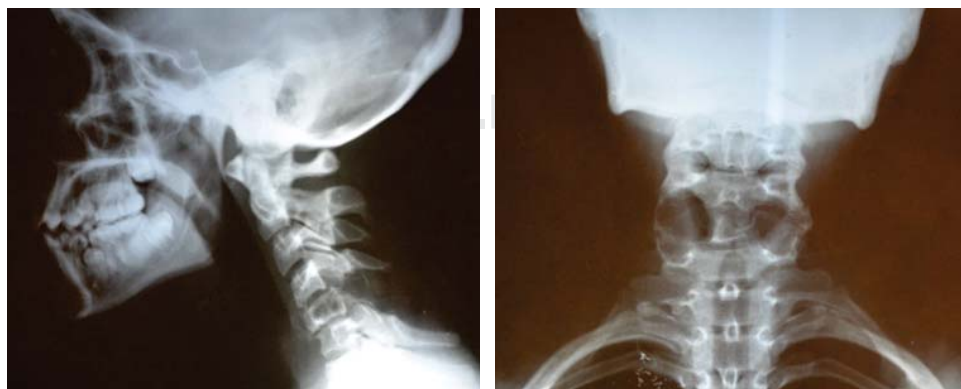


Figura 1.

Radiografía inicial con rectificación de lordosis cervical, destrucción de elementos posteriores con signo del «pedículo ausente».

posterior y cuerpo de C5 con bordes definidos hipointensos, abombamiento de pared posterior de cuerpo vertebral de C5 y cambios de mielomalacia (*Figura 3*). De acuerdo con los hallazgos de los estudios de gabinete la lesión se etapificó en etapa 3 según Enneking⁸ y Tomita 5 y Weinstein-Boriani-Biagini 4-8c.

En los estudios de laboratorio con Hb de 9.1 mg/dL PCR 4.46, Htc: 27, VSG: 28, con estudio de neurofisiológico de potenciales evocados somatosensoriales de nervio mediano con defecto de conducción tipo daño axonal bilateral de predominio derecho.

Ante los hallazgos mencionados se decide intervenir quirúrgicamente realizando curetaje de lesión lítica, toma de biopsia e instrumentación 360 con colocación de malla Pyramesh, placa cervical con tornillos facetarios con colocación posterior de injerto óseo de banco para conseguir adecuada fusión. Tras el evento quirúrgico se consiguió descompresión y estabilización radiográfica de cuerpo y elementos posteriores de C5.

Durante el manejo postquirúrgico la paciente fue hospitalizada en el área de pediatría con control metabólico no requiriendo transfusión de hemoderivados. Con una recuperación inmediata, progresiva y completa de la fuerza muscular de extremidades torácicas y hemicuerpo derecho con reintegración a actividad habitual de paciente, con datos radiográficos de fusión posterior (*Figura 4*).

TÉCNICA QUIRÚRGICA

Se administró anestesia general e intubación con monitorización transquirúrgica completa, se colocó catéter subclavio así como sonda vesical para un mejor control de líquidos y evitar molestias urinarias en el postquirúrgico inmediato, la paciente se colocó en posición de decúbito supino en mesa especializada para cirugía de columna puesto que se corroboró por medio de fluoroscopia el nivel a intervenir y se



Figura 2.

Tomografía con imagen osteolítica expansiva con imagen en «cáscara de huevo». Imagen por resonancia magnética con imagen hiperintensa que invade a conducto medular en arco posterior y cuerpo de C5.

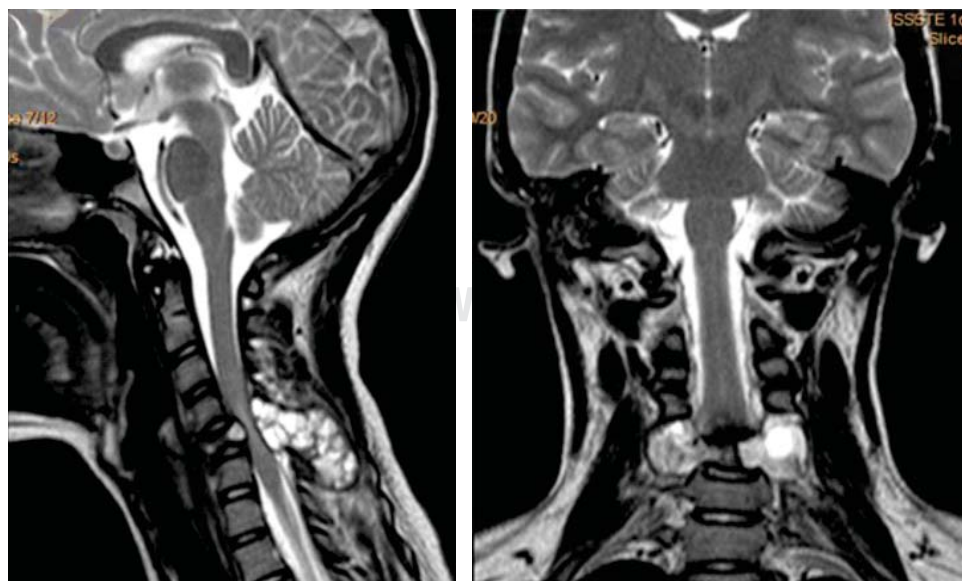


Figura 3.

Imagen por resonancia magnética con imagen hiperintensa que invade a conducto medular en arco posterior y cuerpo de C5 de bordes definidos.

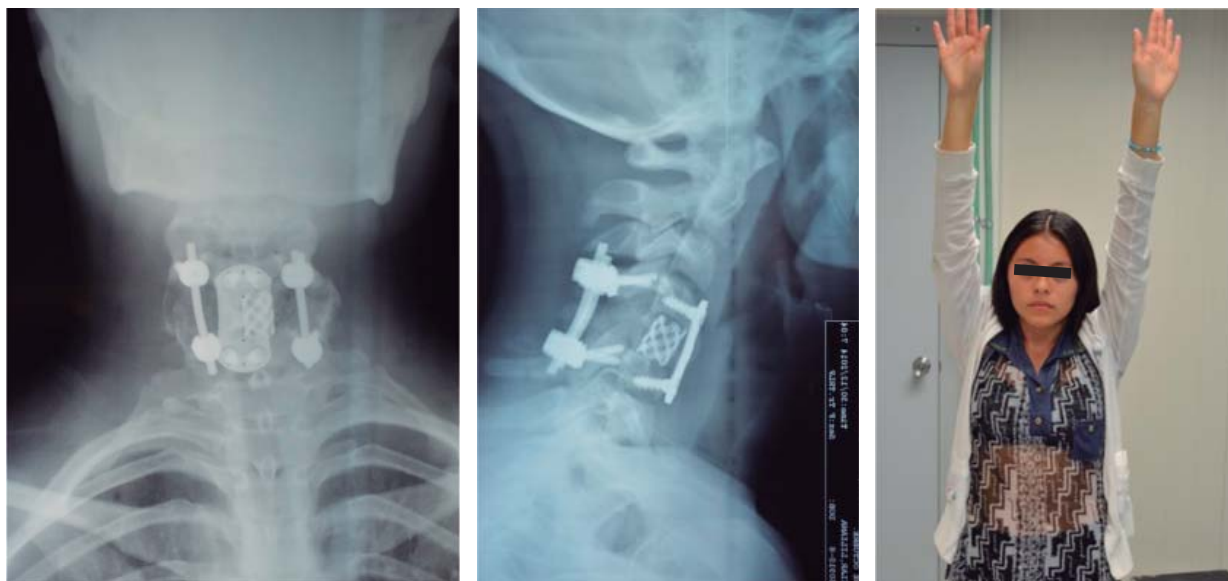


Figura 4. Control radiográfico postquirúrgico mostrando adecuada estabilización, descompresión y fusión posterolateral de columna cervical. No recurrencia, cifosis, no unión o datos de infección ósea. Seguimiento a un año de paciente con movilidad y fuerza adecuada.

llevó a cabo el protocolo de asepsia y vestido del área quirúrgica.

La cirugía se realizó en un solo evento quirúrgico dividido en dos tiempos iniciando con abordaje anterior de la columna vertebral de manera bilateral disecando por planos hasta llegar a cuerpo de C5, se realizó desbridación de tejido tumoral así como corpectomía de C5 y colocación de malla de Pyramesh y placa cervical C4-C6, se realiza cierre por planos con colocación de Drenovac 1/8. En un segundo tiempo se procedió a colocar al paciente en decúbito prono, con asepsia y antisepsia de región posterior de columna cervical, se identificaron apófisis espinosas de C4, C5 y C6, realizándose abordaje posterior medial con resección de lámina en forma bilateral y pedículo de C5, se observa hueso friable, vascularizado, se realiza fijación de C4 a C6 mediante la colocación de tornillos facetarios y colocación de injerto óseo (chips) posterolaterales. Tomándose muestra de tejido óseo para estudio histopatológico. No hubo deterioro neurológico en el postoperatorio inmediato.

Como cuidados postquirúrgicos se indica uso de collarín rígido tipo Philadelphia por un periodo de seis semanas. Con manejo por rehabilitación por cuatro semanas. El reporte histopatológico describió en forma microscópica tejido fibroconectivo mezclado con trabéculas óseas y hueso laminar, sin presencia de células neoplásicas malignas. La paciente presentó recuperación de fuerza muscular de extremidades

superiores y alteraciones sensitivas de ambas extremidades. La radiografías de seguimiento a un año mostraron fusión aceptable, sin datos de aflojamiento o interfase, con mejoría de fuerza 5/5 extremidades superiores, al momento sin alteraciones sensitivas con un DASH actual de 10 puntos.

DISCUSIÓN

Dentro de los tumores que afectan la columna vertebral el quiste óseo aneurismático representa el 1.4% del total,⁹ representando uno de los tumores benignos con mayor prevalencia en columna, más del 50% en niños.¹⁰ En columna cervical su comportamiento está caracterizado por crecimiento progresivo con involucro de elementos posteriores de la vértebra que se extiende a pedículos, cuerpo con capacidad de expansión a canal espinal resultando en fracturas patológicas y déficit neurológicos.¹¹

El cuadro clínico característico lo compone dolor somático definido a segmento afectado de mayor intensidad nocturna, rigidez y alteraciones neurológicas por compresión de raíz y/o médula espinal. Las fracturas patológicas o colapso vertebral son hallazgos comunes en esta patología, la mayoría de los casos son lesiones pequeñas con sólo un segmento de la columna afectado. Ante lo previamente descrito la valoración preoperatoria mediante estudios de gabinete, radiografías simples, TAC e RM es de importancia

para planear su manejo quirúrgico. Los hallazgos de RM de una masa lobulada quística con borde definido hipointenso con niveles de fluido-fluido hiperintensos en T2 son altamente sugestivos de un quiste óseo aneurismático. La embolización preoperatoria de este tipo de lesión puede resultar de utilidad para minimizar el sangrado transoperatorio; sin embargo, sus indicaciones son específicas, tamaño de tumor y grado de destrucción. En este caso es de importancia resaltar, a diferencia de lo reportado por otros autores,^{1,3,12} que se realizó un procedimiento con ambos abordajes anterior y posterior en un solo evento quirúrgico propiciando una recuperación precoz, evitando una segunda intervención así como los efectos adversos derivados de ésta.

El tratamiento de elección del quiste óseo aneurismático es la resección en bloque, lo que puede ser técnicamente demandante por la probable infiltración de arteria vertebral y raíces nerviosa. El porcentaje de curación depende del grado de exéresis, una resección completa debe incluir la totalidad de las paredes quísticas así como el tejido circundante con la membrana hipervascular. Si la lesión involucra la médula espinal se recomienda una descompresión inmediata con resección amplia o total del tumor. La frecuencia de recurrencia con una exéresis en bloque se reporta cercana al 0%. El tratamiento de ésta consiste en reintervención quirúrgica o medidas adyuvantes, reconociéndose la posibilidad de regresión espontánea de la lesión.¹³ La parálisis, sangrado transoperatorio, inestabilidad postoperatoria y cifosis postlaminectomía representan complicaciones considerables de su tratamiento.^{2,9,13}

Otra opción de tratamiento es el curetaje intralesional realizándose durante la biopsia siendo su principal complicación la recurrencia de lesión, dificultando así un segundo procedimiento quirúrgico. Actualmente Reddy y cols.¹⁴ introdujeron el término «curopsia» una novedosa técnica de biopsia percutánea con un curetaje limitado, teniendo como objetivo la membrana de varios cuadrantes del quiste, lo que según los autores lleva a la consolidación con pocas probabilidades de recurrencia.

Numerosas opciones restan al arsenal terapéutico de esta patología, entre las que se incluyen, embolización arterial selectiva como tratamiento primario o terapia neoadyuvante, debido a la probable isquemia medular en pacientes con involucro cervicotorácico se prefiere su uso en niveles inferiores a T6, la radioterapia como terapia adyuvante es de utilidad para el tratamiento de recurrencias; sin embargo, en pacientes jóvenes no es de elección por el riesgo de mielopatía

inducida y sarcomas secundarios, la inyección intraleSIONAL con calcitonina y esteroides o una combinación de ambos, es una terapéutica seguida en la actualidad con resultados variables.^{9,15}

Existe poca información del manejo y tratamiento de elección en pacientes pediátricos con quiste óseo aneurismático, Novais y cols.⁵ en el 2011 reportaron de manera retrospectiva una serie de siete pacientes con seguimiento medio de 46.5 meses en los que se confirmó lo reportado en la literatura concluyendo la necesidad de una planificación preoperatoria extensa, recomendado un abordaje combinado anterior y posterior a región cervical. Hechos ratificados en el reporte de Gurjar 2012,¹² Mishra 2014¹ ambos con presencia de quiste óseo aneurismático multinivel con compromiso de elementos anteriores y posteriores vertebrales en los que la realización de instrumentación en 360° fue necesario. En la serie de 14 casos reportada por Wang y cols. en el 2014³ se encontró como síntoma cardinal la presencia de dolor localizado, demostrando la utilidad de un manejo multidisciplinario y diversificando el tratamiento a cada paciente. Sebaaly en el 2015¹⁰ realizó una revisión bibliográfica extensa confirmando la prevalencia disminuida de la patología encontrado sólo 47 casos de quistes óseos aneurismáticos reportados en la literatura, aportando cuatro casos más con resultados variables de tratamiento, proponiendo un diagrama de flujo del quiste aneurismático pediátrico de columna cervical.

En nuestro caso la resección completa postquirúrgica, descompresión medular con instrumentación a 360° fueron planeados de acuerdo con las pautas y estándares descritos en la literatura actual. Tomando como referencia los estudios de los diversos autores antes mencionados, considerando las probables complicaciones derivadas de éste. Al momento la paciente persiste asintomática sin rastros de recurrencia, cifosis postlaminectomía, proceso infeccioso u otra patología.

CONCLUSIONES

El diagnóstico preciso, precoz, identificación de complicaciones así como el tratamiento oportuno de esta patología constituyen una de las metas para el médico especialista en columna. La resección completa de la lesión está asociada con un pronóstico de curación excelente. Debido a la inestabilidad secundaria de este procedimiento la fusión está indicada en la mayoría de los casos, la instrumentación en 360° constituye la mejor opción de tratamiento tomando en cuenta las

dificultades de dicho procedimiento. El presente caso propone la realización de un diagnóstico oportuno, planificación preoperatoria adecuada y tratamiento en 360 grados de columna cervical en un solo evento quirúrgico. Los autores consideran una adecuada opción terapéutica con una adecuada recuperación postquirúrgica y rehabilitación adecuada.

RECONOCIMIENTOS

Agradecimiento a los equipos, espacios en quirófano, hospitalización al Hospital Regional 1° de Octubre ISSSTE.

Referencias

1. Mishra S, Panigrahi S, Das D. Giant aneurysmal bone cyst of cervical spine: surgical management and circumferential spinal fusion in a 13-year-old girl. *J Pediatr Neurosci*. 2014; 9(2): 196-199.
2. Khoshyomn S, Lew SM, Wilson JT. Aneurysmal bone cyst of the cervical spine. *Pediatr Neurosurg*. 2002; 37: 48-49.
3. Wang C, Liu X, Jiang L, Yang S, Wei F, Wu F et al. Treatments for primary aneurysmal bone cysts of the cervical spine: experience of 14 cases. *Chin Med J (Engl)*. 2014; 127(23): 4082-4086.
4. Kaloostian PE, Gokaslan ZL. Surgical management of primary tumors of the cervical spine: surgical considerations and avoidance of complications. *Neurol Res*. 2014; 36(6): 557-565.
5. Novais EN, Rose PS, Yaszemski MJ, Sim FH. Aneurysmal bone cyst of the cervical spine in children. *J Bone Joint Surg Am*. 2011; 93(16): 1534-1543.
6. Lichtenstein L. Aneurysmal bone cyst; observations on fifty cases. *J Bone Joint Surg Am*. 1957; 39-A(4): 873-882.
7. Jaffe HL, Lichtenstein L. Solitary unicameral bone cyst with emphasis on the roentgen picture, the pathologic appearance and the pathogenesis. *Arch Surg*. 1942; 44: 1004-1025.
8. Enneking WF. A system of staging musculoskeletal neoplasms. *Clin Orthop Relat Res*. 1986; (204): 9-24.
9. Casabianca L, Journé A, Mirouse G, Zerah M, Moulies D, Glorion C et al. Solid aneurysmal bone cyst on the cervical spine of a young child. *Eur Spine J*. 2015; 24(6): 1330-1336.
10. Sebaaly A, Ghostine B, Kreichati G, Mallet JF, Glorion C, Moussa R et al. Aneurysmal bone cyst of the cervical spine in children: a review and a focus on available treatment options. *J Pediatr Orthop*. 2015; 35(7): 693-702.
11. Orguc S, Arkun R. Primary tumors of the spine. *Semin Musculoskelet Radiol*. 2014; 18(3): 280-299.
12. Gurjar HK, Sarkari A, Chandra PS. Surgical management of giant multilevel aneurysmal bone cyst of cervical spine in a 10-year-old boy: case report with review of literature. *Evid Based Spine Care J*. 2012; 3(4): 55-59.
13. Brembilla C, Lanterna LA, Bosio M, Gritti P, Risso A, Signorelli A et al. Spontaneous regression after extensive recurrence of a pediatric cervical spine aneurysmal bone cyst. *Case Rep Oncol Med*. 2014; 2014: 291674.
14. Reddy KIA, Sinnaeve F, Gaston CL, Grimer RJ, Carter SR. Aneurysmal bone cysts: do simple treatments work? *Clin Orthop Relat Res*. 2014; 472(6): 1901-1910.
15. Boriani S. Expert's comment concerning Grand Rounds case entitled "Solid aneurysmal bone cyst on the cervical spine of a young child" (L. Casabianca et al.). *Eur Spine J*. 2015; 24(6): 1337-1341.

Correspondencia:
Ramón Ortega Padrón
Hospital Regional 1° de Octubre ISSSTE
Av. Instituto Politécnico Nacional Núm. 1669,
Col. Magdalena de las Salinas, 07760,
Delegación Gustavo A. Madero, CDMX.
Tel: 55866011
E-mail: raorpa@hotmail.com