

## PRESENTACIÓN DE CASO

### **Adamantinoma de la tibia**

### **Adamantinoma of the tibia**

### **Adamantinoma du tibia**

**Alicia Tamayo Figueroa, Elio Vigildo Meriño Martínez, Osana Vilma Rondón García, Eddy Orestes Sánchez Noda, Lina Chao Carrasco, Carlos González de Varona**

Complejo Científico Ortopédico Internacional "Frank País". La Habana, Cuba.

---

#### **RESUMEN**

El adamantinoma es un tumor maligno de origen epitelial con una frecuencia de aparición escasa. Con este artículo se pretende describir la conducta y evolución de un paciente portador de adamantinoma de la tibia asociado a infección pulmonar y ósea por *Mycobacterium avium*. Se presenta un paciente masculino de 43 años de edad con el diagnóstico de adamantinoma, localizado en el tercio medio-inferior de la tibia derecha. Los hallazgos clínicos, imaginológicos e histopatológicos permiten llegar al diagnóstico de un adamantinoma del esqueleto apendicular. Se realizó la exéresis de la tumoración y relleno con cemento quirúrgico. Doce meses después del tratamiento aparecieron signos clínicos y radiográficos de recidiva tumoral y fue necesaria la amputación infratuberositaria de la pierna derecha. Además, se observaron lesiones fibroquísticas en el vértice del pulmón izquierdo relacionadas con *Mycobacterium avium*. Luego de un seguimiento por dos años, se observaron múltiples nódulos metastásicos en ambos campos pulmonares.

**Palabras clave:** adamantinoma; tibia; neoplasmas óseos; *Mycobacterium avium*.

---

## ABSTRACT

Adamantinoma is an epithelial-origin malignant tumor with uncommon frequency of appearance. This article aims to describe the behavior and evolution of a patient with adamantinoma of the tibia associated with pulmonary and bone infection by *Mycobacterium avium*. We present a 43 years old male patient with the diagnosis of adamantinoma. This adamantinoma was located in the middle-lower third of the right tibia. The clinical, imaging and histopathological findings allowed to reach the diagnosis of adamantinoma of the appendicular skeleton. The excision of the tumor and filling with surgical cement was performed. Twelve months after the treatment, clinical and radiographic signs showed tumor recurrence. The infratibial amputation of the right leg was necessary. In addition, fibrocystic lesions were observed at the apex of the left lung related to *Mycobacterium avium*. After a two-year follow up, multiple metastatic nodules were observed in both lung fields.

**Keywords:** adamantinoma; tibia; bone neoplasms; *Mycobacterium avium*.

---

## RÉSUMÉ

L'adamantinome est une tumeur maligne assez rare d'origine épithéliale. Le but de cet article est de décrire le comportement et l'évolution d'un patient atteint d'un adamantinome au niveau du tibia, associé à une infection pulmonaire et osseuse par *Mycobacterium avium*. Le cas d'un patient âgé de 43 ans, diagnostiqué d'un adamantinome localisé dans le tiers moyen inférieur du tibia droit, est présenté. Les observations cliniques, histopathologiques et d'imagerie ont permis de confirmer le diagnostic d'un adamantinome du squelette appendiculaire. On a effectué l'exérèse de la tumeur et le remplissage à ciment chirurgical. Douze mois après ce traitement, des signes cliniques et radiographiques d'une récidive tumorale ont apparu, et une amputation infratibiale de la jambe droite a été nécessaire. On a aussi trouvé des lésions fibrokystiques sur l'apex du poumon gauche, associées à *Mycobacterium avium*. Après un suivi de deux ans, on a rencontré plusieurs nodules métastatiques dans tous les deux côtés de la région pulmonaire.

**Mots clés:** adamantinome; tibia; néoplasmes osseux; *Mycobacterium avium*.

---

## INTRODUCCIÓN

El adamantinoma de los huesos largos es un tumor maligno de origen epitelial de rara aparición.<sup>1,2</sup> Se trata del tumor óseo primitivo más infrecuente después de los neurógenos y los lipógenos: representa entre 0,1 % - 0,3 % de los tumores de este tipo.<sup>2,3</sup> No está relacionado histológicamente con el adamantinoma o ameloblastoma de la mandíbula y maxilar que se deriva del saco de Rathke.<sup>4</sup>

El término adamantinoma proviene del griego y significa 'muy duro'. Fue observado por primera vez en 1900 en la diáfisis de un cíbito por *Maier C*,<sup>5</sup> quien pensó que se trataba de un carcinoma. Fue acuñado por *Fisher B* en 1913<sup>6</sup> por su semejanza morfológica al adamantinoma de la mandíbula.<sup>5</sup> *Campanacci M* en 1976 lo nombró osteofibrodisplasia de la tibia y peroné por su localización anatómica, origen, desarrollo y parecido histológico a la displasia fibrosa.<sup>7</sup> Representa 0,4 % de los tumores primitivos del hueso.<sup>8</sup> La mayor incidencia ocurre entre 10 y 35 años de edad.<sup>9</sup> La mayoría de los pacientes son hombres<sup>1,2,4</sup> y están predispuestos los individuos que tienen color de la piel negro. Suele aparecer, fundamentalmente, en la tibia (80 % - 90 % de los casos).<sup>1,2,4</sup>

La histogénesis del adamantinoma ha sido tema de debate por mucho tiempo y aunque se ha sugerido su origen a partir de células endoteliales o epiteliales, los avances en microscopía electrónica e inmunohistoquímica han proporcionado suficientes evidencias para apoyar su origen epitelial. El objetivo de este trabajo es describir la conducta seguida y la evolución de un paciente portador de adamantinoma de la tibia asociado a infección pulmonar y ósea por *Mycobacterium avium*.

## CASO CLÍNICO

Paciente masculino de 43 años con antecedentes de salud, entrenador de atletismo, que refiere haber comenzado a presentar dolor ocho meses atrás a nivel del tercio medio-distal de la cara externa de la pierna derecha acompañado de aumento de volumen en dicha área. Por tal motivo, acudió al facultativo en varias ocasiones y se le orientó en todos los casos tratamiento con analgésicos, antinflamatorios y fisioterapia. No mejoró, en ningún caso, la sintomatología dolorosa.

Fue atendido en otro centro hospitalario. Se le realizó un estudio radiográfico de la pierna derecha donde se observó una lesión osteolítica a nivel del tercio distal de la tibia derecha. Fue ingresado en el Servicio de Tumores del Complejo Científico Ortopédico Internacional "Frank País" para un estudio y tratamiento.

## EXAMEN FÍSICO

Presentaba claudicación a la marcha a expensas del miembro inferior derecho, aumento de volumen difuso en la cara anteroexterna del tercio distal de la pierna derecha, que se correspondía con una tumoración de 5 cm de diámetro, con la piel suprayacente lisa y brillante sin cambios de coloración ni circulación colateral. La tumoración era redondeada, de superficie lisa, bordes bien definidos, dolorosa a la palpación superficial y profunda, adherida a planos profundos, con ligero aumento de la temperatura local. Se palpaban adenopatías móviles, blandas y no dolorosas a nivel de la región inguinal derecha. El resto del examen físico fue normal.

## EXÁMENES COMPLEMENTARIOS

Hemoglobina: 13,0 g/L

Hematocrito: 0,40 l/L

Eritrosedimentación: 5 mm

Ácido úrico: 305,0 mmol/L

Calcio sérico: 2,5 mmol/L

Fósforo sérico: 0,9 mmol/L

Fosfatasa alcalina: 785 u/L

VIH: negativo

Serología (VDRL): no reactiva

Glucosa: 5,8 mmol/L

Creatinina: 93,80 mmol/L

Factor reumatoideo: negativo

Proteína C reactiva: negativa

Espertos I, II, III: codificación 0

Prueba de la tuberculina (Mantoux): 0 mm

Con el cultivo tomado de los fluidos hemáticos durante la exéresis del tumor, realizado en el Instituto "Pedro Kourí" (IPK), se detectó el crecimiento de un *Mycobacterium avium*.

## ESTUDIOS DE IMÁGENES

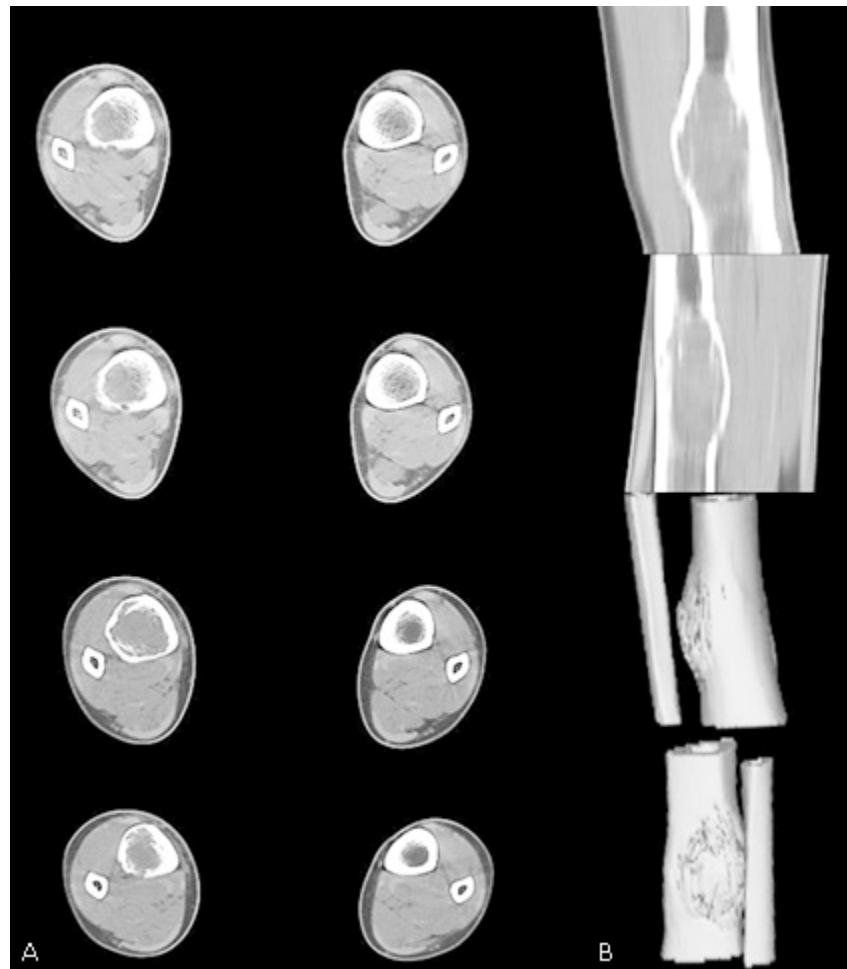
Radiografía simple de ambas tibias: En la cara externa del tercio distal de la diáfisis de la tibia derecha se observó una imagen osteolítica de 4 cm, de contornos bien definidos, que afinaban y abombaban la cortical externa y posterior con escaso trabeculado en su interior

([Fig. 1](#)).



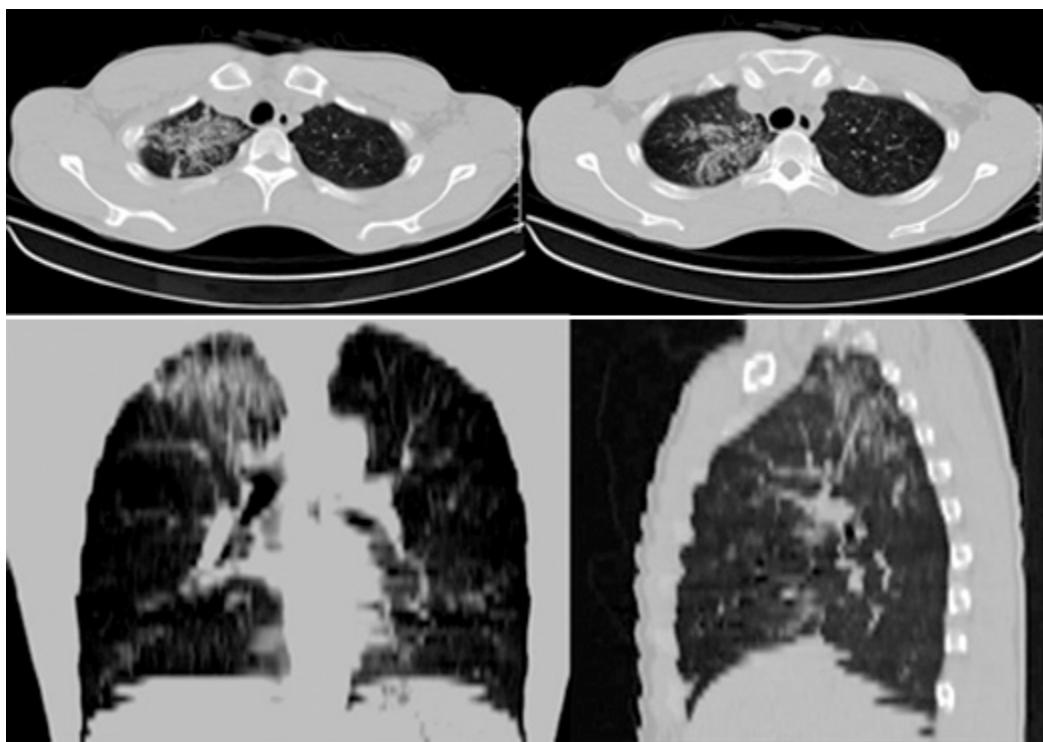
**Fig. 1.** Radiografía simple de la tibia derecha. A) Vista anteroposterior. B) Vista lateral. Se aprecia zona osteolítica, multilobulada con afinamiento cortical anteroexterna.

Tomografía axial computarizada (TAC): En los cortes y reconstrucciones se observó aumento del diámetro transversal en la zona de la lesión con erosión endóstica de la cortical y una pequeña zona posterior con solución de continuidad. La densidad intramedular estaba aumentada y había un ligero crecimiento de volumen de las partes blandas adyacentes a la cara externa ([Fig. 2](#)).



**Fig. 2.** A) Cortes tomográficos. B) Reconstrucción 3D de la zona tumoral.

Radiografía simple y TAC de tórax: Se observaron lesiones de aspecto fibroproductivo en vértice derecho; se descartó una tuberculosis activa. El resto de los campos pulmonares estaban sin alteración ([Fig. 3](#)).



**Fig. 3.** Cortes tomográficos de tórax.

Rastreo corporal óseo gammagráfico: Se pudo apreciar una intensa fijación del radiofármaco ( $^{99m}\text{Tc}$ -Metiléndifosfonato) en los tercios medio y distal de la tibia derecha. El resto del estudio estuvo dentro de los límites normales.

#### PROCEDIMIENTO QUIRÚRGICO

Luego de discutir el caso, el paciente fue llevado al salón de operaciones con el propósito de realizarle curetaje de la lesión para biopsia y relleno de la cavidad con cemento quirúrgico (Polimetilmetacrilato -PMMA-). A su vez, se le tomó muestra para el cultivo microbiológico. Se realizó abordaje anterointerno en el tercio distal de la tibia derecha; se decoló la piel, el tejido celular subcutáneo. Posteriormente, se le realizó apertura del periostio. A través de una ventana en la cortical de la tibia, se cureteó abundante tejido tumoral de aspecto fibroso, denso, de color blanquecino nacarado. Luego se lavó la cavidad con solución salina, agua oxigenada y iodopovidona, y se rellenó ([Fig. 4](#) y [5](#)). La evolución fue satisfactoria y se reincorporó a sus actividades habituales.



**Fig. 4.** Abordaje quirúrgico de la zona tumoral. A) Salida de fluido serohemático. B) Contenido tumoral. C) Relleno con cemento quirúrgico.



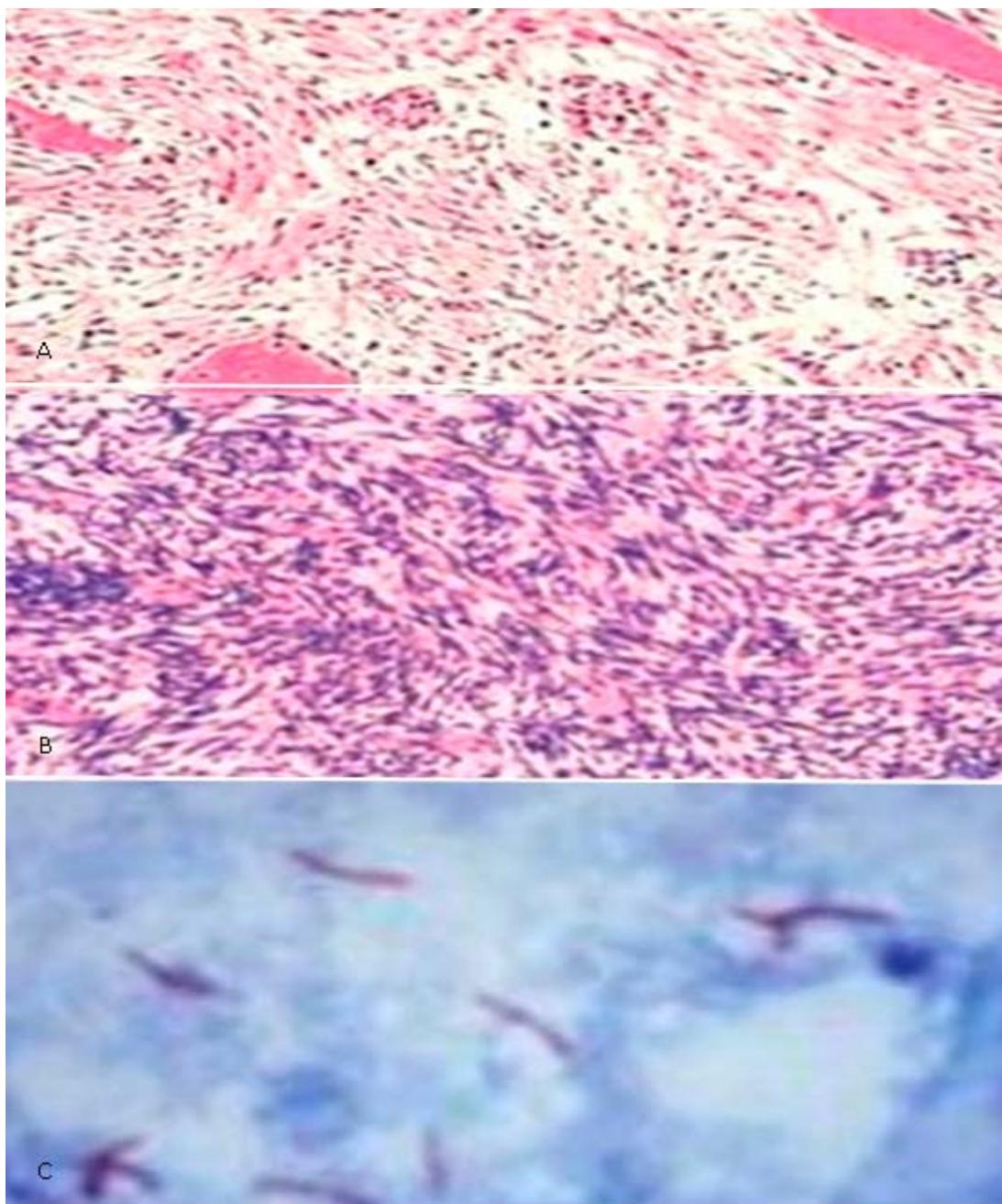
**Fig. 5.** Radiografía simple de la tibia derecha (lesión rellena). A) Vista anteroposterior. B) Vista lateral.

## HISTOPATOLOGÍA

Macroscópica: El material obtenido por biopsia de la lesión ósea estuvo formado por numerosos fragmentos de tejidos en una cantidad aproximada de 5 cm<sup>3</sup> que, después de fijados en formol neutro al 10 %, mostraron un color blanco grisáceo, superficies irregulares. El mayor fue de 3 x 1,5 x 2 cm, de aspecto lobulado, consistencia "gomosa", el cual, al seccionarse la superficie, era de color blanco, con discretas estrías pardo-rojizas, áreas de hemorragias, zonas de necrosis aisladas y diminutas dilataciones quísticas que le daban aspecto cribiforme en algunas áreas.

Microscópica:

- Hematoxilina/Eosina: La arquitectura ósea normal estuvo sustituida por masas y cordones de dos tipos celulares diferentes: uno de aspecto epitelial en bandas irregulares o islotes, eosinófilas, límites celulares bien definidos, núcleos redondeados, cromatina densa (no se observaron mitosis); en el otro predominaron células fusiformes, de límites celulares poco definidos, núcleos alargados, cromatina densa y abundantes mitosis, algunas de ellas atípicas. Hay espículas óseas dentro del tejido neoplásico que demuestran el carácter infiltrativo y primario de la neoplasia ([Fig. 6A](#)). En otra área de la neoplasia, a mayor aumento (40X) se observó un predominio de células fusiformes, de núcleos alargados, pignóticos, mitosis abundantes, células que tendieron a disponerse en haces irregulares, en bandas que propendían a arremolinarse, con escasa matriz intercelular; en algunas áreas se distinguieron fibras colágenas ([Fig. 6B](#)).
- Coloración de Ziehl-Nelsen (100X): Bacilos ácido alcohol resistentes curvos y finos, en el tejido tumoral que se corresponden con *Mycobacterium avium*, cultivados en los estudios microbiológicos del tejido neoplásico y las secreciones pulmonares ([Fig. 6C](#)).



**Fig. 6.** Imágenes de anatomía microscópica. A) Coloración H/E (20X). B) Coloración H/E (40X). C) Coloración de Ziehl-Nelsen (100X, inmersión).

- Inmunohistoquímica:
  - . Vimentina (V): Intensamente positiva
  - . Citoqueratina (CK): Focalmente positiva
  - . S 100: Negativa
  - . CD34: Negativo

A los 12 meses el paciente regresó a consulta con una tumoración en la misma zona, de características iguales a la inicial, pero de mayor tamaño. Se comprobó recidiva clínica y radiológica por lo cual fue necesario realizar amputación infratuberositaria. El muñón evolucionó satisfactoriamente, pero a los dos años del diagnóstico aparecieron múltiples nódulos metastásicos en ambos campos pulmonares y falleció seis meses después.

Radiografía simple de ambas tibias a los dos años de operado: destrucción ósea de la diáfisis de la tibia derecha por encima y por debajo del cemento con afinamiento, desaparición de la cortical e invasión a partes blandas.

Radiografía simple de tórax a los 2 años: presencia de lesiones nodulares de diversos diámetros diseminadas por ambos campos pulmonares, persistencia de lesiones de aspecto fibroproductivo en vértice derecho.

## DISCUSIÓN

El adamantinoma es un tumor maligno de rara aparición, de origen epitelial<sup>1,2</sup> y con crecimiento lento. Se localiza en los huesos largos (en 97 % de los casos) y casi exclusivamente en la tibia (80 % - 90 % de los casos), aunque puede verse en el antebrazo, húmero, manos, pies, costillas o columna vertebral.<sup>10,11</sup> Se ha descrito la afectación conjunta de tibia y peroné (10 % de los pacientes)<sup>12,13</sup> y casos multifocales.<sup>13,14</sup> Este tumor surge, usualmente, entre la segunda y quinta década de vida, con una media entre los 25 y 35 años en 75 % de los pacientes,<sup>8,15,16,17</sup> aunque se ha observado en niños, por ejemplo, de dos años.<sup>18,19</sup>

La teoría más aceptada sobre su origen menciona el desplazamiento del epitelio basal de la piel durante el desarrollo embrionario y es apoyada por su ubicación predominante hacia la cortical anterior de la tibia, donde la osificación endocondral ocurre muy cerca de la piel.<sup>20</sup>

Las similitudes en la edad de presentación, localización, apariencia radiográfica e histopatológica hacen pensar que el adamantinoma y la displasia osteofibrosa están estrechamente relacionados. La naturaleza de la lesión es controversial, en cuanto a si se deriva a partir de una displasia osteofibrosa o si la displasia osteofibrosa se debe a una lesión residual resultante de la regresión espontánea de un adamantinoma.<sup>1,2,17,21</sup>

*Jain D y Anoumou MN* opinan que el adamantinoma se caracteriza por una evolución clínica muy lenta, recurrencias locales y metástasis pulmonares.<sup>1,22</sup> La duración de los síntomas, dependiendo de la localización y la extensión, puede variar de semanas a años y, generalmente, solo se presentan síntomas inespecíficos: dolor y tumefacción,<sup>1,3,13</sup> como ocurrió con el paciente que se presenta. Frecuentemente (30 % - 60 % de los casos), hay historial de trauma asociado al adamantinoma, pero su función en el desarrollo de esta lesión aún no es clara.<sup>17,23</sup> El 23 % se presenta como una fractura patológica.<sup>16,17</sup>

El adamantinoma aparece como una lesión lítica, elongada, excéntrica y circunscrita en radiografías simples.<sup>1,17,24</sup> La corteza anterior de la diáfisis de la tibia distal es el lugar más comúnmente afectado (85 % - 90 %);<sup>15,17,25</sup> en un 10 % existe localización sincrónica en el peroné ipsolateral.<sup>14,17,21</sup> Usualmente, la lesión tiene varios defectos líticos separados por hueso esclerótico lo cual le confiere apariencia de burbujas.<sup>1,17</sup> Puede extenderse a todo el hueso con "lesiones satélites".<sup>17</sup> Hay ruptura cortical pero poca reacción perióstica. Según *Greenspan A*, las áreas de destrucción cortical en la tibia presentan imagen de dientes que ayuda a distinguir el tumor.<sup>26</sup> La lesión puede llegar a atravesar la corteza y extenderse a los tejidos blandos. Puede haber múltiples lesiones junto al tejido normal.<sup>23,27</sup> La existencia de masa de partes blandas es un signo indicativo de agresividad tumoral y no se acompaña de calcificación.<sup>12</sup> Según *Desai SS* y otros, la localización en la tibia y el desarrollo intracortical son dos argumentos indicativos de adamantinoma.<sup>27</sup>

Con la Tomografía Axial Computarizada (TAC) y las Imágenes de Resonancia Magnética (RM) se observan, generalmente, hallazgos no específicos.<sup>1</sup> La TAC muestra el daño cortical y, si existe, la extensión a las partes blandas, pero con ella no se visualiza la extensión intraósea del tumor. Desempeña un importante papel en la detección de las metástasis pulmonares.<sup>19</sup>

Las imágenes de RM ayudan a determinar el grado de afectación intra- y extraóseo.<sup>15</sup> Son especialmente útiles para detectar los focos corticales a distancia, la extensión intramedular y a las partes blandas; determinar los márgenes libres de tumor, y planear la cirugía reconstructiva. La RM muestra una hipointensidad en imágenes T1 e hiperintensidad en imágenes T2, típicas de la mayoría de los tumores.<sup>15</sup> En ocasiones, puede verse un nivel líquido-líquido. *Van der Woude HJ* y otros describen dos patrones morfológicos: foco solitario lobulado y múltiples nódulos pequeños en uno o más focos.<sup>15,28</sup>

La gammagrafía ósea revela un incremento de captación del <sup>99m</sup>Tc-Metileédifosfonato en las tres fases de estudio y puede mostrar la coexistencia de lesión en el peroné ipsolateral.<sup>29</sup>

El diagnóstico diferencial radiológico (dada la imagen radiográfica benigna) incluye displasia osteofibrosa, displasia fibrosa, quiste óseo solitario, quiste óseo aneurismático, fibroma condromixoide, condrosarcoma y osteosarcoma telangiectásico.<sup>3,27,28</sup>

Dada la gran variedad de patrones radiográficos que puede producir el adamantinoma y su escasa incidencia, el diagnóstico preoperatorio es infrecuente.<sup>3</sup>

El estroma consiste en células productoras de fibras de colágeno en forma de huso. A nivel macroscópico el adamantinoma es lobulado y propiamente delineado. El tumor es de color gris o blanco, de consistencia elástica y puede tener focos hemorrágicos y necróticos,<sup>3</sup> como ocurrió en nuestro caso. Puede haber espigas óseas y quistes con sangre o fluido de color rojizo. El adamantinoma es un tumor bifásico con islotes de células epiteloides rodeadas por estroma de tejido fibroso. El estroma está formado por células productoras de fibras de colágeno en forma de huso. Los nidos de células malignas son de naturaleza columnar con periferia de forma empalizada.<sup>15,22,28</sup>

La immunohistoquímica confirma el predominio de células epiteliales.<sup>22</sup> La diferenciación escamosa y la producción de queratina no es extensiva, pero el tumor se tiñe de manera positiva en preparaciones inmunohistoquímicas con anticuerpos a queratina. El origen epitelial se confirma con la identificación positiva de la membrana basal, desmosomas y tono filamentos por microscopía electrónica.<sup>15</sup> Mediante esta técnica se observa, también, que las células tienen características epiteliales tales como lámina basal, desmosomas, uniones gap, queratinas específicas epiteliales y extracelulares, y composición similar al tejido epitelial.<sup>1,30</sup>

*Braud P* y otros plantean la existencia de varios hallazgos histológicos y definen clásicamente cuatro tipos histológicos de adamantinomas que, en ocasiones, pueden asociarse en el interior de un mismo tumor: basaloide, fusiforme, malpighiano o tubular:<sup>31</sup>

- Aspecto basaloide que se asemeja con el carcinoma basocelular y el ameloblastoma.
- Aspecto de células fusiformes que recuerdan al fibrosarcoma.
- Aspecto tubular que se asemeja con el adenocarcinoma o al hemangioendotelioma.
- Aspecto escamoso en el que se ven células escamosas que forman perlas cónicas.

*Dorfman B* divide al adamantinoma en dos grupos:<sup>32</sup>

- Forma clásica, caracterizada radiográficamente por una destrucción intraperióstica. Es dominada por basófilos y células tumorales tubulares.
- Forma diferenciada que se caracteriza por la presencia de una displasia osteofibrosa con pequeñas células epiteliales aisladas y localización radiográfica intracortical y multifocal.

*Braud P* y otros identifican tres métodos de tratamiento quirúrgico: curetaje, resección y amputación.<sup>31</sup> Por su parte, *Hoshi M* y otros abogan por una actitud personalizada basada en la naturaleza histológica del tumor.<sup>33</sup> Si la biopsia primaria identifica un adamantinoma clásico, se debe hacer la resección amplia. El curetaje se realiza en caso de una forma diferenciada -displasia osteofibrosa-, donde virtualmente no existe potencial de recurrencia.

El tratamiento de elección es la resección en bloque del tumor con márgenes oncológicos efectivos más la reconstrucción.<sup>17,34</sup> La amputación debe reservarse para casos en los que no se pueda realizar la resección en bloque con márgenes oncológicos, haya extensión a partes blandas, falle la reconstrucción o se produzcan recidivas locales.<sup>1,34</sup> No se ha encontrado evidencia suficiente para el tratamiento coadyuvante con quimioterapia; además, el adamantinoma es altamente radio-resistente.<sup>30</sup>

En un estudio internacional, *Qureshi AA* y otros mostraron que de 70 pacientes a los que se les realizó una escisión en bloque, a 64 se le pudo salvar el miembro, aunque solo 59 lo conservaron, finalmente.<sup>16</sup>

Para *Keeney GL* y *Criollo F* el adamantinoma presenta una amplia variedad de apariencias tanto histológicas como radiológicas, pero no hay signo alguno valorable de predicción del curso clínico.<sup>14,17</sup> Los factores asociados con un resultado clínico desfavorable incluyen sexo varón, menor de 20 años de edad, tratamiento inicial intralesional, corta duración de los síntomas, dolor al momento de la presentación y poca diferenciación escamosa del tumor.<sup>17</sup> Según *Hoshi M* y otros, la evolución del tumor es evaluada en base al diagnóstico tardío y al tipo de tratamiento empleado.<sup>33</sup>

Los adamantinomas son de crecimiento lento, a veces dura más de 15 años desde el inicio de los síntomas hasta el tratamiento quirúrgico sin que se produzcan metástasis. Los pacientes deberán tener un seguimiento estrecho durante largo tiempo para descartar enfermedad recurrente metastásica,<sup>17</sup> pues entre un 15 % - 20 % de los casos ocurre metástasis en etapas avanzadas de la enfermedad.<sup>35</sup> Las tasas de recurrencia local se observan de 18 % a 32 % y la tasa de mortalidad asciende de 13 % a 18 %.<sup>1,36</sup> La resección en bloque con márgenes oncológicos ofrece menores tasas de recurrencia local y la tasa de supervivencia a 10 años asciende a 87,2 %, según *Qureshi AA*.<sup>16</sup>

Las metástasis pueden manifestarse tardíamente, a veces más de 10 años después de la eliminación local del tumor. Tienen una predilección por los pulmones (15 %), esqueleto, ganglios linfáticos (7 %), pericardio e hígado.<sup>4</sup> La media de supervivencia con la enfermedad metastásica es de 12 años. Clásicamente, las metástasis pulmonares ocurren entre un 15 % y 31 %, las recurrencias locales representan cerca de un 30 %, mientras que la mortalidad es de entre un 13 % - 25 % después de 10 años de seguimiento.<sup>31</sup>

*Desai SS* y otros plantean cinco afecciones que pueden confundirse con el adamantinoma:<sup>27</sup> metástasis, tumor epitelial, tumor vascular, displasia fibrosa y displasia osteofibrosa. Todos ellas se eliminan por los hallazgos clínicos, radiológicos e histológicos. Además, la tibia no es una localización habitual de las metástasis óseas (estas ocurren generalmente en pacientes de avanzada edad).

A nuestro paciente se le realizó curetaje de la lesión y relleno con cemento quirúrgico; tuvo una buena evolución clínica y radiológica por un tiempo de 12 meses; al término se observaron signos clínicos y radiológicos de recidiva de la lesión y fue necesaria la amputación infratuberositaria derecha. A los dos años el paciente presentó signos radiológicos de metástasis en ambos campos pulmonares.

Los *Mycobacterium* no tuberculosis (NTM, del inglés: *non-tuberculosis Mycobacterium*) causan una severa enfermedad pulmonar en personas con anormalidades estructurales (bronquiectasias, enfermedad pulmonar obstructiva crónica) y, en específico, las infecciones producidas por *Mycobacterium avium-intracellulare* son comunes en pacientes con severa infección por el Virus de Inmunodeficiencia Humana (VIH) - pacientes con muy bajo conteo de linfocitos CD4- o en pacientes que han desarrollado Síndrome de Inmunodeficiencia Adquirida (SIDA).<sup>37-40</sup>

Se han descrito cinco síndromes atribuibles a los NTM: enfermedad pulmonar, linfadenitis, infecciones de la piel, los tejidos blandos y los huesos, infecciones sanguíneas relacionadas con catéteres, y enfermedad diseminada (sobre todo en personas con VIH-SIDA o severamente inmunocomprometidos como, por ejemplo, los consumidores de altas dosis de esteroides).<sup>37</sup>

Se ha planteado que las especies de NTM son causantes de infecciones granulomatosas crónicas de las vainas tendinosas, bursas, huesos y articulaciones después de la inoculación directa por un traumatismo accidental, cirugías, heridas punzantes o inyecciones; la mayoría de estos pacientes son inmunocompetentes.<sup>37</sup> Las localizaciones más frecuentes en el sistema osteomioarticular son las vertebrales y paravertebrales y la diáfisis tibial, pero también se reportan en olécranon, fémur, húmero, costillas, calcáneo, cuboides, ilíaco, tobillo, muñeca, médula ósea.<sup>41-51</sup> No encontramos en la literatura revisada la asociación del adamantinoma de la tibia con *Mycobacterium avium*.

Debido a su evolución lenta y sintomatología inespecífica, el adamantinoma es detectado usualmente de forma tardía. La histología y el estudio immunohistoquímico nos proveen de un diagnóstico positivo. Solo una cirugía amplia ayuda a evitar la recidiva local y la aparición de metástasis.

## Conflictos de intereses

Los autores declaran que no existen conflictos de intereses.

## REFERENCIAS BIBLIOGRÁFICAS

1. Jain D, Jain VK, Vasishta RK, Ranjan P, Kumar Y. Adamantinoma: A clinicopathological review and update. *Diagnostic Pathology* [Internet]. 2008 [citado: 10 de enero de 2017]; 3:8. Disponible en: <http://www.diagnosticpathology.org/content/3/1/8>
2. Most MJ, Sim FH, Inwards CY. Osteofibrous dysplasia and adamantinoma. *J Am Acad Orthop Surg.* 2010; 18(6):358-66.
3. Landeras RM, Riego M del, Abascal F, Fernández MA. Adamantinoma de tibia. Revisión a propósito de un caso. *Radiología.* 1999; 41(1):62-4.
4. McWilliams S, Weerakkody Y. Adamantinoma. *Radiopaedia* [Internet]. [citado: 10 de enero de 2017]. Disponible en: <https://radiopaedia.org/articles/adamantinoma>
5. Maier C. Ein primers myelogenes Platten-epithelkarzinom der Ulna. *Beitraege zur klinischen Chirurgie.* 1900; 26: 553-66.
6. Fischer B. Über ein primares adamantinom der tibia. *Virchows Arch [B].* 1913; 12: 422-41.
7. Park YK, Unni KK, McLeod RA, Pritchard DJ. Osteofibrous dysplasia: clinicopathologic study of 80 cases. *Hum Pathol.* 1993; 24(12):1339-47.
8. Hogendoorn P, Kanamori M. Adamantinoma. En: Fletcher C, Bridge JA, Hogendoorn P, Mertens F (eds). WHO: Classification of tumors of soft tissue and bone. 4th ed. Lyon: IARC; 2013. p.343-5.
9. Gaubert J, Durroux R. Adamantinome du tibia et ostéofibrodysplasie. *Rev Chir Orthop.* 1995; 81(4): 333-7.
10. Ulmar B, Delling G, Werner M, Huch K, Reichel H: Classical and atypical location of adamantinomas - presentation of two cases. *Onkologie.* 2006; 29(6):276-8.
11. Dini LI, Mendonça R, Adamy CA, Saraiva GA. Adamantinoma of the spine: case report. *Neurosurgery.* 2006; 59(2):E426.
12. Torrents C, Baro P, Bastart F, Bartrina J, Aguirre M, Gili J. Adamantinoma de huesos largos. *Diagnóstico radiológico.* *Radiología.* 1990; 32:173-6.
13. Benevenia J, Abdul-Karim FW, Joyce MJ, Dicke T. Imaging rounds. Multifocal adamantinoma of the tibia and fibula. *Orthop Rev.* 1992; 21(8):996-1000.
14. Keeney GL, Krishnan Unni K, Beabout JW, Pritchard DJ. Adamantinoma of long bones. A clinicopathological study of 85 cases. *Cancer.* 1989; 64(3):734-7.
15. Van der Woude HJ, Hazelbag HM, Bloem JL, Taminiau AH, Hogendoorn PC. MRI of adamantinoma of long bones in correlation with histopathology. *AJR Am J Roentgenol* [Internet]. 2004 [citado: 11 de enero de 2017]; 183(6):1737-44. Disponible en: <http://www.ajronline.org/cgi/content/full/183/6/1737>

16. Qureshi AA, Shott S, Mallin BA, Gitelis S. Current Trends in the Management of Adamantinoma of Long Bones: An International Study. *J Bone J Surg.* 2000;82A(8):1122-31.
17. Criollo F, Gómez LC, Soto C, Messa Ó, Estrada C. Adamantinoma de tibia: manejo quirúrgico con aloinjerto intercalar. A propósito de un caso. *Rev Colomb Cancerol* [Internet]. 2015 [citado: 11 de enero de 2017];19(2):111-8. Disponible en: <http://www.scielo.org.co/pdf/rcc/v19n2/v19n2a08.pdf>
18. Kumar D, Mulligan ME, Levine AM, Dorfman HD. Classic adamantinoma in a 3-year-old. *Skeletal Radiol.* 1998;27: 406-9.
19. Van Rijn R, Bras J, Schaap G, Van den Berg H, Maas M. Adamantinoma in childhood: report of six cases and review of the literature. *Pediatr Radiol.* 2006; 36:1068-74.
20. Mirra JM. Adamantinoma and fibrous dysplasia. En: Mirra JM (ed). *Bone tumors.* 1st edition. Philadelphia: Lea & Febiger; 1989. p. 1203-31.
21. Borbas P, Leithner A, Sadoghi P, Berndt A, Liegl B, Haas OA. Clonality assessment in a case of multifocal adamantinoma and a review of the literature. *Case Rep Med.* 2012;2012:605-85.
22. Anoumou MN, Kouameu M, Koffi EK, Varango G. Adamantinoma of the Tibia: A Case Report. *Journal of Orthopaedic Case Reports* [Internet]. 2014;4(1):15-7. doi: 10.13107/jocr.2250-0685.140
23. Moon NF, Mori H. Adamantinoma of the Appendicular Skeleton-Updated. *Clin Orthop Rel Res* [Internet]. 1986 [citado: 11 de enero de 2017];204:215-37. Disponible en: <https://www.ncbi.nlm.nih.gov/pubmed/3514033>
24. Levine SM, Lambiase RE, Petchprapa CN. Cortical lesions of the tibia: characteristic appearances at conventional radiography. *Radiographics* [Internet]. 2003;23(1):157-77. doi: 10.1148/rg.231015088
25. Miller TT. Bone tumors and tumorlike conditions: analysis with conventional radiography. *Radiology* [Internet]. 2008;246(3):662-74. doi: 10.1148/radiol.2463061038
26. Greenspan A. Other bone tumors, malignant bone tumors II: miscelaneous tumors. En: Greenspan A (ed). *Orthopaedic imaging: A practical approach.* 5th ed. Philadelphia: Wolters Kluwer, Lippincott Williams & Wilkins; 2011. p.754-5.
27. Desai SS, Jambhekar N, Agarwal M, Puri A, Merchant N. Adamantinoma of Tibia: A Study of 12 Cases. *J Surg Oncol.* 2006;93(5):429-33.
28. Torriani M, Sanjuan S, Etchebehere M, Amstalden EMI. Magnetic Resonance Imaging of Tibial Classic, Adamantinoma at 2 Tesla. *Journal of Computer Assisted Tomography.* 2002;26(5):855-9.

29. Unni KK. Dahlin's Bone Tumors: General Aspects and Data on 11,087 Cases. 5th ed. Philadelphia, Pa: Lippincott-Raven; 1996. p. 333-42.
30. Khan MH, Darji R, Rao U, McGough R. Leg pain and swelling in a 22-year-old man. Clin Orthop Relat Res. 2006;448:259-66.
31. Braud P, Tomeno B, Courpied JP, Ramadier JO, Fagot J, Forest M, et al. Une tumeur singulière. L'adamantinome des os longs. A propos de sept cas suivis après résection. Rev Chir Orthop. 1987;73(1):3-13.
32. Czerniak B. Dorfman and Czerniak's Bone Tumors. 2nd edition. Philadelphia: Elsevier Saunders; 2016. p.1495. ISBN: 978-0-323-02396-2
33. Hoshi M, Matsumoto S, Manabe J, Tanizawa T, Shegemitsu T, Izawa N, et al. Surgical treatment for adamantinoma arising from the tibia. J Orthop Sci. 2005;10(6):665-70.
34. Gebhardt MC, Lord FC, Rosenberg AE, Mankin HJ. The treatment of adamantinoma of the tibia by wide resection and allograft bone transplantation. J Bone Joint Surg. 1987;69A(8):1177-88.
35. Kanakaraddi SV, Nagaraj G, Ravinath TM. Adamantinoma of the tibia with late skeletal metastasis: an unusual presentation. J Bone Joint Surg [Internet]. 2007;89B(3):388-9. doi: 10.1302/0301-620X.89B3.18484
36. Vandermarcq P, Defaux F, Ferrie JC, Fabaron F, Drouineau J, Barret D, et al. Adamantinome du tibia: Etude tomodensitométrique et par IRM. A propos d'un cas. J Radiol. 1993;7:35-8.
37. Ioachimescu OC, Tomford JW. Nontuberculous Mycobacterial Disorders. Cleveland Clinic [Internet]; 2010 Aug. [citado: 11 de enero de 2017]. Disponible en: <http://www.clevelandclinicmeded.com/medicalpubs/diseasemanagement/infectious-disease/nontuberculous-mycobacterial-disorders/>
38. Jacobson MA, Aberg JA. Mycobacterium avium Complex and Atypical Mycobacterial Infections in the Setting of HIV Infection. HIV InSite Knowledge Base Chapter [Internet]. 2006 Jan. [citado: 11 de enero de 2017]. Disponible en: <http://hivinsite.ucsf.edu/InSite?page=kb-00&doc=kb-05-01-05>
39. Horsburgh CR, Mason UG, Farhi DC, Iseman MD. Disseminated infection with Mycobacterium avium-intracellulare. A report of 13 cases and a review of the literature. Medicine (Baltimore) [Internet]. 1985 [citado 10 de enero de 2017];64(1):36-48. PubMed ID: 3880852
40. Kasperbauer SH, Daley CL. Diagnosis and Treatment of Infections due to Mycobacterium avium Complex. Semin Respir Crit Care Med [Internet]. 2008;29(5):569-76. doi: 10.1055/s-0028-1085708
41. Wood BR, Buitrago MO, Patel S, Hachey DH, Haneuse S, Harrington RD. Mycobacterium avium Complex Osteomyelitis in Persons with Human

Immunodeficiency Virus: Case Series and Literature Review. Open Forum Infectious Diseases [Internet]. 2015; 2(3):ofv090. doi: 10.1093/ofid/ofv090

42. Corrales Medina V, Symes S, Valdivia Arenas M, Boulanger C. Localized *Mycobacterium avium* complex infection of vertebral and paravertebral structures in an HIV patient on highly active antiretroviral therapy. *South Med J*. 2006; 99(2):174-7.
43. Matt L, Calvey C, Muakkassa K, Watkins D, Speakman E, Haller N. A rare case of atypical *Mycobacterium*-associated spinal cord compression in an HIV-AIDS patient. *Infect Dis Clin Pract*. 2013; 21(3):196-200.
44. Kadzielski J, Smith M, Baran JL, Gandhi R, Raskin K. Nontuberculous mycobacterial osteomyelitis: a case report of *Mycobacterium avium* intracellulare complex tibial osteomyelitis in the setting of HIV/AIDS. *Orthop J Harv Med*. 2009; 11:108-11.
45. Weingardt JP, Kilcoyne RF, Russ PD, Johnston RJ, Nawaz S. Disseminated *Mycobacterium avium* complex presenting with osteomyelitis of the distal femur and proximal tibia. *Skeletal Radiol*. 1996; 25(2):193-6.
46. Tan EM, Marcellin JR, Mason E, Virk A. *Mycobacterium avium* intracellulare complex causing olecranon bursitis and prosthetic joint infection in an immunocompromised host. *Journal of Clinical Tuberculosis and Other Mycobacterial Diseases* [Internet]. 2016 [citado: 11 de enero de 2017]; 2(1):1-4. Disponible en: <http://dx.doi.org/10.1016/j.jctube.2015.11.003>
47. Bi S, H F-S, Yu H-Y, Xu K-J, Zheng B-W, Ji Z-K, et al. Nontuberculous mycobacterial osteomyelitis. *Infectious Diseases* [Internet]. 2015; 47(10):673-685. doi: 10.3109/23744235.2015.1040445
48. Kahlon SS, East JW, Sarria JC. *Mycobacterium-avium*-intracellulare complex immune reconstitution inflammatory syndrome in HIV/AIDS presenting as osteomyelitis. *AIDS Read*. 2008; 18(10):515-8.
49. Valdez H, Gripshover BM, Stover MD, Salata RA. *Mycobacterium avium* complex osteomyelitis in HIV-infected patients: case report and review. *Infect Dis Clin Pract*. 1997; 6:351-6.
50. Blumenthal DR, Zucker JR, Hawkins CC. *Mycobacterium avium* complex induced septic arthritis and osteomyelitis in a patient with the acquired immunodeficiency syndrome. *Arthritis Rheum*. 1990; 33(5):757-8.
51. Satti L, Abbasi S, Sattar A, Ikram A, Manzar MA, Khalid MM. Bone marrow infection with *Mycobacterium fortuitum* in a diabetic patient. *J Coll Physicians Surg Pak*. 2011; 21(8):500-2.

Recibido: 12 de mayo de 2017.

Aprobado: 20 de junio de 2017.

*Alicia Tamayo Figueroa*. Complejo Científico Ortopédico Internacional "Frank País". La Habana, Cuba.