

Quiste óseo aneurismático secundario a linfoma: hallazgos imagenológicos. Reporte de casos

Aneurismatyc bone cyst secondary to lymphoma: Radiological findings and cases report

Federico-Guillermo Lubinus-Badillo¹; Silvia-Nathalia Vera-Campos²; Erick-Daniel Villareal-Ibañez³

Forma de citar: Lubinus Badillo FG, Vera Campos SN, Villareal Ibañez ED. Quiste óseo aneurismático secundario a linfoma: hallazgos imagenológicos. Reporte de casos. Salud UIS. 2020; 52(4): 450-454.

doi: <https://doi.org/10.18273/revsal.v52n4-2020012>



Resumen

Objetivo: presentar reportes de casos de Quistes óseos aneurismáticos secundarios a linfomas y breve revisión del tema. **Materiales y métodos:** se analizaron las imágenes en el archivo del servicio de radiología e imágenes diagnósticas de pacientes que acudieron a la Fundación Oftalmológicas de Santander – Clínica Carlos Ardila Lülle (FOSCAL) a quienes se les diagnosticó quiste óseo aneurismático secundario a linfoma. **Resultados:** se reportan 2 casos clínicos de pacientes a quienes se diagnosticó lesión tumor ósea expansiva correspondiente a quiste óseo aneurismático secundario a Linfoma. **Conclusiones:** el quiste óseo aneurismático es un raro tumor que constituye solo el 1-2% de los tumores óseos. Afecta principalmente la metafisis de los huesos largos y se da predominantemente en el paciente adulto joven que está cursando la segunda década de vida. A pesar de existir múltiples teorías acerca de su origen aún no se tiene una etiología clara. Se diagnosticó lesión tumor ósea expansiva correspondiente a quiste óseo aneurismático secundario a Linfoma. Conclusiones: el quiste óseo aneurismático es un raro tumor que constituye solo el 1-2% de los tumores óseos. Afecta principalmente la metafisis de los huesos largos y se da predominantemente en el paciente adulto joven que está cursando la segunda década de vida. A pesar de existir múltiples teorías acerca de su origen aún no se tiene una etiología clara. El abordaje diagnóstico es específicamente con resonancia magnética, sin embargo se debe confirmar el diagnóstico histo-patológico para conocer la etiología de base.

Palabras clave: Quistes óseos; Osteolisis; Neoplasias óseas; Linfoma; Imagen por resonancia magnética; Biopsia; Diagnóstico; Hueso.

Abstract

Objective: To Present case reports and a brief review of aneurysmal bone cysts secondary to lymphomas. **Material and Methods:** Images from the archive of the Radiology and Diagnostic imaging department were obtained from patients seen at the Fundación Oftalmológica de Santander – Carlos Ardila Lülle Clinic (FOSCAL) being

1. Universidad Autónoma de Bucaramanga. Santander, Colombia.

2. Universidad Industrial de Santander, Bucaramanga, Colombia.

3. Fundación Oftalmológica de Santander- Clínica Carlos Ardila Lülle. Floridablanca, Colombia.

Correspondencia: Federico Lubinus, MD, Departamento de radiología, Centro médico Carlos ardilla lulle módulo 15, Bucaramanga, Colombia. Correo electrónico: flubinus@hotmail.com

diagnosed of an aneurysmal bone cyst secondary to lymphoma. **Results:** Two clinical cases were reported on patients who developed a cystic bone tumor corresponding to an aneurysmatic bone cyst secondary to lymphoma. **Conclusions:** The aneurysmatic bone cyst is a rare tumor that constitutes only 1-2% of bone tumors. It mainly affects the metaphysis of long bones and occurs predominantly in young adult patients who are in the second decade of life. Despite the existence of multiple theories about its origin, there is still no clear etiology. The diagnostic approach is radiological, specifically with magnetic resonance images however, the diagnostic must be confirmed with histopathological studies.

Keywords: Bone Cysts; Osteolysis; Bone Neoplasms; Lymphoma; Magnetic Resonance imaging; Biopsy; Diagnosis; Bone.

Introducción

El quiste óseo aneurismático (QOA) fue descrito inicialmente por Jaffe y Lichtenstein en 1942¹, para diferenciarlo por sus características clínico-patológicas del tumor de células gigantes y de los quistes óseos solitarios, siendo definida como una lesión osteolítica expansiva², constituida por espacios de tamaño variable llenos de sangre separados por tabiques de tejido conectivo que contiene trabéculas de tejido óseo u osteoide y células gigantes de tipo osteoclastico³.

Constituye solo el 1-2% de todos los tumores óseos⁴. Afecta principalmente la metafisis de huesos largos, al igual que la columna cervical y en menor medida la pelvis y huesos maxilares en niños y adultos jóvenes que se encuentran cursando la segunda década de la vida sin una marcada distinción de prevalencia según el género⁵. Se han propuesto múltiples teorías sobre su etiología, sin embargo, ésta aún no está claramente establecida⁶.

EL QOA se puede clasificar como una lesión ósea primaria o secundaria a lesiones óseas preexistentes identificadas como: el tumor de células gigantes, condroblastoma, quiste unicameral de hueso, hemangioma, osteosarcoma, osteosarcoma telangiectásico, entre otros⁷⁻⁹.

A pesar de su comportamiento benigno los QOA pueden ser localmente agresivos ya que sus características radiológicas pueden simular tumores benignos y malignos¹⁰. Se presentan dos casos inusuales de pacientes adolescentes con diagnóstico de quiste óseo aneurismático secundarios a linfoma, en los que se realizó resonancia magnética la cual es el estudio imagenológico de elección y su diagnóstico confirmatorio fue realizado con el estudio histopatológico y citometría de flujo; relación que no ha sido descrita en la literatura.

Caso clínico 1

Paciente masculino de 15 años de edad quien consulta por cuadro clínico de 7 meses de evolución, caracterizado por dolor lumbar irradiado a región glútea y miembro inferior derecho con limitación funcional y disestesia en dicha extremidad, no refiere antecedente de trauma, sin embargo relaciona la aparición de la sintomatología luego de aplicación de inyección intramuscular. Al examen físico se encuentra álgico con presencia de espasticidad muscular, dolor a la flexión y extensión de miembro inferior derecho. Se realiza Resonancia Magnética (RM) de pelvis donde se observa una lesión hipointensa en T1, importante reacción perióstica y signos de edema medular óseo con presencia de nódulo hiperintenso en T1 de aproximadamente 2 cm en el borde posteromedial del acetábulo (**Figura 1 a, b**). Se solicita nueva RM de pelvis a los 3 meses debido a exacerbación de la sintomatología, con dolor intenso y disestecias, observándose en la secuencia de T2 STIR un importante aumento del tamaño de la lesión con abombamiento de la cortical ósea del acetábulo y múltiples cavidades con niveles líquidos de contenido hemático correspondiente a quiste óseo aneurismático (**Figura 1 c, d**). Se realiza drenaje del contenido quístico obteniéndose retorno de líquido hemático oscuro, con sangrado persistente de la lesión que requirió múltiples transfusiones. Se realiza biopsia dirigida al componente sólido hiperintenso en T1 identificado en la primera RM la cual fue estudiada a través de citometría de flujo que reporta lesión compatible con linfoma anaplásico de células grandes ALK negativo extranodal. Después de 9 ciclos de radioterapia, quimioterapia y tratamiento endovascular se logra estabilización del crecimiento de la lesión con detención del sangrado y disminución progresiva de los síntomas.

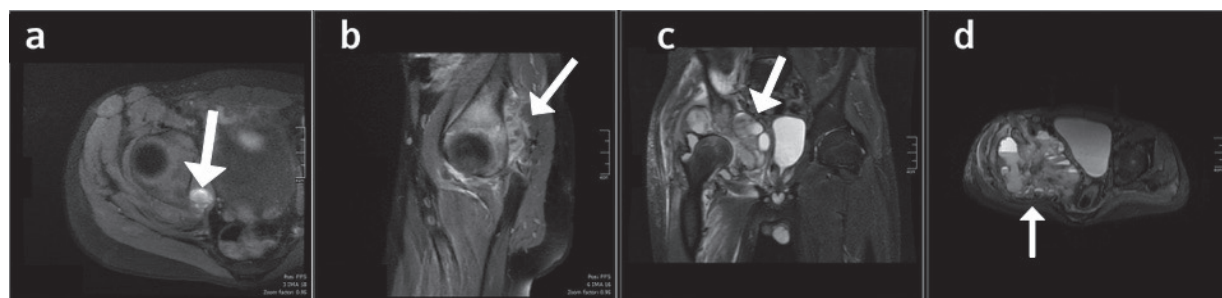


Figura 1. RM plano axial y sagital en T1 FSE FAT SAT. (a, b) Se observa lesión hipointensa en T1 con importante reacción perióstica y cambios inflamatorios de los tejidos blandos de la articulación coxofemoral derecha. Se observan signos de edema medular con nódulo hiperintenso de aproximadamente 2 cm cercano al borde posteromedial del acetábulo sin compromiso de la superficie articular de la cabeza femoral. Control por RM a los 3 meses por exacerbación de la sintomatología. RM coronal y axial en T2 STIR (C, D). Se observa importante crecimiento de la lesión, la cual abomba la cortical ósea, con compromiso difuso del acetábulo, adelgazamiento cortical y presencia de múltiples cavidades de contenido líquido con nivel hemático sugestivas de transformación hacia QOA.

Caso clínico 2

Paciente femenina de 23 años de edad con antecedente de Linfoma de Hodgking clásico con esclerosis nodular tratado hace 7 años con 6 ciclos de quimioterapia. Acude a consulta por cuadro clínico de dolor incapacitante de aproximadamente 2 meses de evolución. En las secuencias T2 FSE y T1 FSE de resonancia magnética se observa una lesión de aproximadamente 4.1 x 3.8 x 2.5 cm con una marcada alteración de la morfología del tercio distal del fémur izquierdo que modifica la

trabeculación ósea normal, con abombamiento cortical posterior. Se identifican múltiples cavitaciones quísticas con un doble contenido correspondientes a niveles hemáticos, compatible con Quiste Óseo aneurismático (**Figura 2 a, b, c**). Se decide llevar a cirugía donde se realiza escisión del tumor más osteotomía con dispositivo de fijación en fémur izquierdo. Se envía muestra a servicio de patología donde confirman el diagnóstico de quiste óseo aneurismático secundario a linfoma de Hodgking clásico con esclerosis nodular.

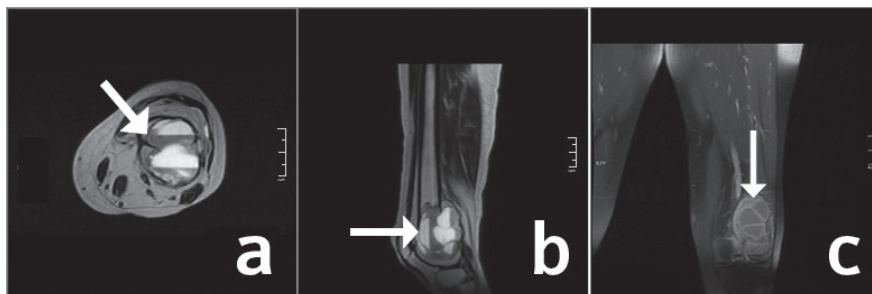


Figura 2. RM plano axial T2 frFSE, plano sagital T2 frFSE, plano coronal T1 FSE (a, b, c) Se observa lesión expansiva de fémur distal con abombamiento cortical posterior y múltiples cavitaciones con nivel hemático en su interior sin reacción perióstica ni cambios inflamatorios en tejidos blandos.

El quiste óseo aneurismático es una lesión expansiva compuesta por cavidades quísticas de pared fina con contenido hemático, de naturaleza no neoplásica. Se puede clasificar etiológicamente como primario (clásico) o secundario a una lesión subyacente, como displasia fibrosa, condroblastoma, tumor de células gigantes u osteosarcoma^{11,12}. Otros posibles precursores son el osteoblastoma, el fibroma no osificante, el fibroma condromixoide, el histiocitoma fibroso y El granuloma eosinófilo¹³.

Discusión

El quiste óseo aneurismático es una lesión expansiva compuesta por cavidades quísticas de pared fina con contenido hemático, de naturaleza no neoplásica. Se puede clasificar etiológicamente como primario (clásico) o secundario a una lesión subyacente, como displasia fibrosa, condroblastoma, tumor de células gigantes u osteosarcoma^{11,12}. Otros posibles precursores son el osteoblastoma, el fibroma no

osificante, el fibroma condromixoide, el histiocitoma fibroso y el granuloma eosinófilo¹³.

El QOA se ubica principalmente en la metafisis de los huesos largos, principalmente en fémur (22%), tibia (17%), columna (15%), húmero (10%), pelvis (9%) y peroné (9%)^{14,15}. Con los casos anteriormente descritos, observándose la lesión a nivel de la pelvis y el fémur respectivamente, en concordancia con los principales sitios de presentación de esta patología.

El mecanismo patogénico más aceptado del QOA involucra una alteración circulatoria local, que conlleva a un incremento marcado de la presión venosa por la trombosis de una vena aneurismática o a la formación de fistulas arteriovenosas. Las evidencias que sustentan esta hipótesis hemodinámica incluyen: a) la frecuente, rápida y marcada extensión de algunos de estos quistes; b) el hallazgo frecuente de un quiste sangrante, como el presentado en el caso uno, el cual resulta en una expansión del quiste; c) la angiografía puede mostrar cambios sugestivos de una lesión vascular y la presencia de un shunt arteriovenoso¹⁶.

Los pacientes, principalmente adolescentes, presentan inicialmente una sensación de masa firme de crecimiento lento, asociado comúnmente con dolor, sensibilidad e inflamación que en ocasiones es secundario a una fractura patológica. Las radiografías simples, la Tomografía Computarizada, la RMN y la Gammagrafía con Tc99 juegan un papel importante en el abordaje inicial del diagnóstico de QOA, sin embargo, no hay signos que sugieran la causa de base de la lesión, en este caso específico los linfomas y por esto siempre se requiere una adecuada evaluación histológica para correlacionar estos hallazgos y llegar a un diagnóstico definitivo.

La radiografía demuestra una lesión lítica, de márgenes bien definidos (algunas veces escleróticos), que siempre es expansiva ("aneurismática") La cortical normalmente está intacta pero puede encontrarse marcadamente adelgazada. Ocasionalmente, pueden presentarse como una lesión multilobulada mostrando un patrón trabecular. Los QOA de los huesos largos son lesiones con tendencia a la expansión excéntrica, pero pueden crecer también afectando a la cavidad medular. La Tomografía Computarizada y la RM (más sensible) pueden demostrar un único o múltiples niveles líquido-líquido dentro de loculaciones

separadas, lo cual es característico pero no específico del QOA. Este hallazgo no se debe a la sedimentación de los productos sanguíneos y puede ser demostrado en múltiples lesiones óseas benignas y malignas (incluyendo displasia fibrosa, condroblastoma, tumor de células gigantes, fibroma no osificante, quiste óseo simple y osteosarcoma, particularmente la variante telangiectásica). Cualquier componente sólido dentro de la lesión sugiere un tumor subyacente, siendo este el caso del primer paciente presentado, lo cual permitió dirigir la biopsia al pequeño nódulo sólido visualizado en la primera RM Con lo cual se pudo demostrar la patología de base. Se sabe que la mayor extensión de los niveles líquido-líquido dentro de la lesión ósea (al menos 2/3 de la lesión) se relaciona con lesiones benignas¹⁷.

La resonancia magnética es pues el examen de elección, debido a que presenta la mayor sensibilidad y especificidad para diagnosticar los QOA, además, la RM puede identificar, como ya se mencionó, algún componente sólido susceptible de ser biopsiado y puede ayudar a demostrar el origen secundario del QOA. El aspecto típico es el de una lesión expansiva, múltiple lobulada o septada, con múltiples niveles líquido-líquido, hiperintensos en las secuencias ponderadas en T1 y T2 debido a la presencia de contenido hemático¹⁸.

En la mayoría de los casos, se recomienda el tratamiento quirúrgico mediante escisión completa de la lesión, sin embargo las recidivas pueden ser de hasta un 60%, debido usualmente a la remoción inadecuada de la lesión, por lo cual se requiere seguimiento imagenológico postquirúrgico¹⁹.

Consideraciones éticas

Esta investigación no realizó intervención alguna o modificación intencionada de las variables biológicas, fisiológicas, psicológicas o sociales de los individuos. Adicionalmente éste estudio se apega a las normas éticas elaboradas en la declaración de Helsinki modificada (Brasil 2013) y al reporte de Belmont teniendo en cuenta los principios bioéticos de beneficencia, justicia y respeto a los demás.

Conflicto de interés

No se declara conflictos de interés

Referencias

1. Jaffe HL, Lichtenstein L. Solitary unicameral bone cyst, with emphasis on the roentgen picture, the pathologic appearance and the pathogenesis. *Arch Surg* 1942; 44 (6):1004-25. doi: 10.1001 / archsurg.1942.01210240043003
2. Kumar VV, Malik NA, Kumar DB. Treatment of large recurrent aneurysmal bone cysts of mandible: transosseous intralesional embolization as an adjunct to resection. *Int J Oral Maxillofac Surg*. 2009; 38(6): 671-6. doi: 10.1016/j.ijom.2009.01.016
3. Ruitter DJ, van Rijssel TG, van der Velde EA: Aneurysmal bone cysts: A clinicopathological study of 105 cases. *Cancer*. 1977; 39 (5): 2231-2239. doi: 10.1002 / 1097-0142 (197705) 39: 5 <2231 :: aid-cnrc2820390541> 3.0.co; 2-q
4. Boubbou M, Atarraf K, Chater L, Afifi A, Tizniti S: Aneurysmal bone cyst primary-about eight pediatric cases: Radiological aspects and review of the literature. *Pan Afr Med J*. 2013; 15: 111. doi: 10.11604 / pamj.2013.15.111.2117
5. Neville BW, Damm DD, Allen CM, Bouquot JE. *Patología Oral e Maxilofacial*. 3. ed. Rio de Janeiro: Ed. Elsevier; 2009: 972.
6. Sasaki H, Nagano S, Shimada H, Masahiro Y, Setoguchi T, Ishidou Y, et al. Diagnosing and discriminating between primary and secondary aneurysmal bone cysts. *Oncology Letters*. 2017; 13(4): 2290-2296. doi: <https://doi.org/10.3892/ol.2017.5682>
7. Kransdorf MJ, Sweet DE. Aneurysmal bone cyst: concept, controversy, clinical presentation, and imaging. *Am J Roentgenol*. 1995; 164: 573-580. doi: 10.2214 / ajr.164.3.7863874
8. Mohaidat ZM, Al-gharaibeh SR, Aljararhih ON, Nusairat MT, Al-Omari A. Challenges in the diagnosis and treatment of aneurysmal bone cyst in patients with unusual features. *Adv Orthop*. 2019; 1-9. doi: <https://doi.org/10.1155/2019/2905671>
9. Park HY, Yang SK, Sheppard WL, Hedge V, Zoller SD, Nelson SD, et al. Current management of aneurysmal bone cysts. *Curr Rev Musculoskelet Med*. 2016; 9(4): 435-444. doi: 10.1007 / s12178-016-9371-6
10. Mankin HJ, Hornicek FJ, Ortiz-Cruz E, Villafuerte J, Gebhardt MC. Aneurysmal bone cyst: a review of 150 patients. *J Clin Oncol*. 2005; 23(27): 6756-6762. doi: 10.1200/JCO.2005.15.255
11. Resnick DL, Kransdorf MJ. *Bone and joint imaging E-Book*. Elsevier Health Sciences. 2004; 70: 1187-1188.
12. Topouchian V, Mazda K, Hamze B, Laredo JD, Pennecot GF. Aneurysmal bone cysts in children: complications of fibrosing agent injection. *Radiology*. 2004; 232(2): 522-526. doi: 10.1148/ radiol.2322031157
13. Docquier PL, Glorion C, Delloye C. Quiste óseo aneurismático. *EMC-Aparato Locomotor*. 2011; 44(2): 1-11.
14. Burch S, Hu S, Berven S. Aneurysmal bone cysts of the spine. *Neurosurg Clin N Am*. 2008; 19(1): 41-47. doi: 10.1016 / j.nec.2007.09.005
15. Amer HZ, Mayerson JL, Klein M, Baker P. Metachronous aneurysmal bone cyst in a 9-year-old boy: case report and review of the literature. *J Pediatr Orthop B*. 2012; 21 (2): 187-191. doi: 10.1097 / BPB.0b013e328345d7a3
16. Cottalorda, J; Bourelle, S. Modern concepts of primary aneurysmal bone cyst. *Arch Orthop Trauma Surg*. 2007; 127:105-114. doi: 10.1007 / s00402-006-0223-5
17. O'Donnell P, Saifuddin A. The prevalence and diagnostic significance of fluid-fluid levels in focal lesions of bone. *Skeletal Radiol*. 2004; 33(6): 330-336. doi: 10.1007 / s00256-004-0779-5
18. Mascard E, Gómez-Brouchet A, Lambot K. Bone cysts: unicameral and aneurysmal bone cyst. *Orthop Traumatol: Surg Res*. 2015; 101(1): 119-127. doi: 10.1016 / j.otsr.2014.06.031
19. De Mattos CBR, Binitie O, Dormans JP. Pathological fractures in children. *Bone Joint Res*. 2012; 1(10): 272-280. doi: 10.1302 / 2046-3758.110.2000120