

Cisto ósseo aneurismático recidivante: ressecção intralesional e adjuvância múltipla

Recurrent aneurysmal bone cyst: intralesional resection and multiple adjuvants

Rafael Segundo Ferreira das Neves¹, Rafael da Silva Rezende¹, Lucas Gasparetto Bittar², Douglas Manuel Carrapeiro Prina³, Marcello Martins de Sousa⁴, Marcos Hajime Tanaka⁵

RESUMO

O cisto ósseo aneurismático (COA) é uma condição pseudotumoral, benigna, que ocorre de forma primária nas duas primeiras décadas de vida. As taxas de recidiva variam de 10-59% após diferentes técnicas de tratamento, chegando a taxas maiores em crianças abaixo de 10 anos. Neste estudo, iremos descrever a abordagem cirúrgica para o tratamento em um caso complexo de recidiva local.

Palavras-chave: neoplasias óssea; cistos ósseos aneurismáticos; recidiva Local de neoplasia.

SUMMARY

Aneurysmal bone cyst (AOC) is a benign, pseudotumor condition that occurs primarily in the first two decades of life. Relapse rates vary from 10-59% after different treatment techniques, reaching higher rates in children under 10 years of age. In this study, we will describe the surgical approach to treatment in a complex case of local recurrence.

Keywords: bone neoplasms; aneurysmal bone cysts; local recurrence of neoplasms.

INTRODUÇÃO

O cisto ósseo aneurismático é uma lesão pseudotumoral, benigna, cística primeiramente descrita em 1942 por Jaffe e Lichtenstein¹. Predominantemente ocorre nas primeiras décadas de vida e em locais como: fêmur distal, tíbia proximal, úmero proximal e estruturas posteriores da coluna vertebral. Caracteriza-se por ser uma lesão multilobulada e expansiva, com preenchimento de

suas cavidades com sangue². Podem ser primárias quando não tem uma lesão prévia principal e secundária quando associado a outras lesões ósseas, por exemplo o tumor de células gigantes³.

Clinicamente o COA começa de forma insidiosa, com dor local, edema e massa palpável. O crescimento é variável de meses a anos⁴. O tratamento tem como objetivo promover a cicatrização das cavidades císticas para controlar a dor, diminuir o risco de fratura

1. Médico Residente do Serviço de Ortopedia e Traumatologia do Hospital do Servidor Público Estadual de São Paulo, São Paulo, SP, Brasil

2. Fellow do Serviço de Ortopedia e Traumatologia do Hospital do Servidor Público Estadual de São Paulo, São Paulo, SP, Brasil

3. R4 do Grupo de Pé e Tornozelo e do Grupo de Ortopedia Infantil e Reconstrução do Hospital do Servidor Público Estadual de São Paulo, São Paulo, Brasil

4. Médico Assistente do Serviço de Ortopedia e Traumatologia do Hospital do Servidor Público Estadual de São Paulo, São Paulo, SP, Brasil

5. Chefe do Grupo de Tumor do Serviço de Ortopedia e Traumatologia do Hospital do Servidor Público Estadual de São Paulo, São Paulo, SP, Brasil

Autor responsável: Marcos Hajime Tanaka / **E-mail:** tanakamarcos@gmail.com

patológica e minimizar a deformidade. Tradicionalmente a técnica mais utilizada tem sido a curetagem intralesional com ou sem enxerto ósseo, que às vezes é aprimorada com adjuvantes⁵. Apesar dessas técnicas, a recorrência local da doença é relativamente alta.

A recorrência varia de aproximadamente 10% a 70%, a depender da literatura, sendo a maioria dessas lesões evidenciadas em pacientes menores de 10 anos e nos primeiros dois anos após a primeira abordagem, tornando-se um importante objeto de estudo. Assim, apresenta mais de uma opção de abordagem e seguimento; e, sempre com atualizações nos protocolos^{6,7}.

Neste relato, apresentamos um caso de uma paciente com diagnóstico de Cisto Ósseo Aneurismático com recidiva local.

RELATO DO CASO

Paciente de 12 anos, sexo feminino, com queixa de edema no joelho esquerdo há 4 meses, sem história de trauma no local. Refere piora progressiva dos sintomas. Na primeira consulta no ambulatório de Oncologia Ortopédica após detalhada anamnese e exame físico, foram solicitados exames de imagem para melhor definir a lesão: radiografias do joelho esquerdo (Figura 1) e ressonância magnética do joelho esquerdo (Figura 2, 3, 4 e 5). Evidenciada na radiografia lesão cística na tibia proximal, bem delimitada. Na ressonância identificado hipersinal, na ponderação T2, do conteúdo do cisto com

nível líquido-líquido. Com intuito de estadiamento e rastreo de acometimento em outras áreas do corpo foram realizadas cintilografia óssea – hipercaptação local, sem outros focos (Figura 6) e tomografia de tórax, sendo essa última sem alterações.

Com os resultados radiológicos foi definida a hipótese de uma lesão cística na região metafisária do joelho esquerdo, descartando acometimento em outros locais do corpo e metástases. Pensando no diagnóstico definitivo foi indicada biópsia percutânea. Este exame descreveu células gigantes multinucleadas, osteoclasticas, em meio ao material fibrino-hemático, sendo recomendado uma nova coleta de material para melhores esclarecimentos.

Dessa forma, um novo procedimento cirúrgico foi realizado, desta vez de forma aberta. O paciente foi posicionado em decúbito dorsal com coxim infra-glúteo e um embaixo do joelho para fletir a articulação em torno de 60°. A via anterolateral estendida foi realizada, com cerca de 10 cm de comprimento em formato de “S”, tendo como referência: epicôndilo lateral no fêmur distal, tuberosidade anterior, diáfise da tibia e tubérculo de Gerdy (Figura 7). Após dissecação dos planos, identificou-se a lesão tumoral na tibia proximal, foi realizada uma janela óssea elíptica e procedeu-se a curetagem intralesional associada a eletrocauterização e fenol como adjuvância. Através da janela criada foi realizado enxertia autóloga (provida da crista ilíaca da paciente) e sulfato de cálcio sintético.

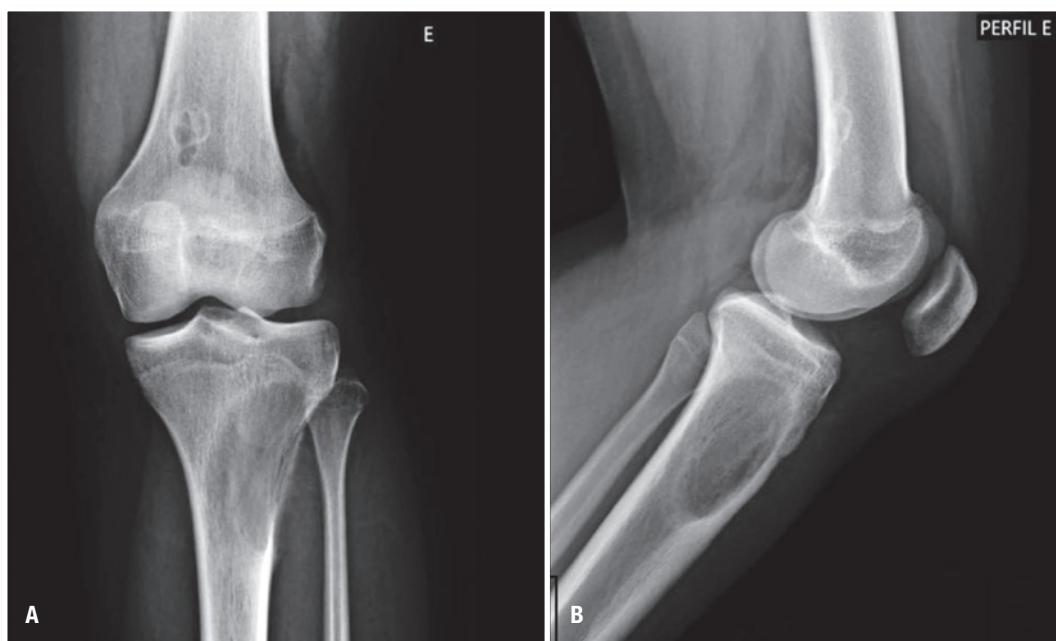


Figura 1. Radiografia anteroposterior (A) e perfil (B) evidenciando lesão cística metafisária, bem delimitada, sem alterações periféricas, da tibia proximal esquerda.

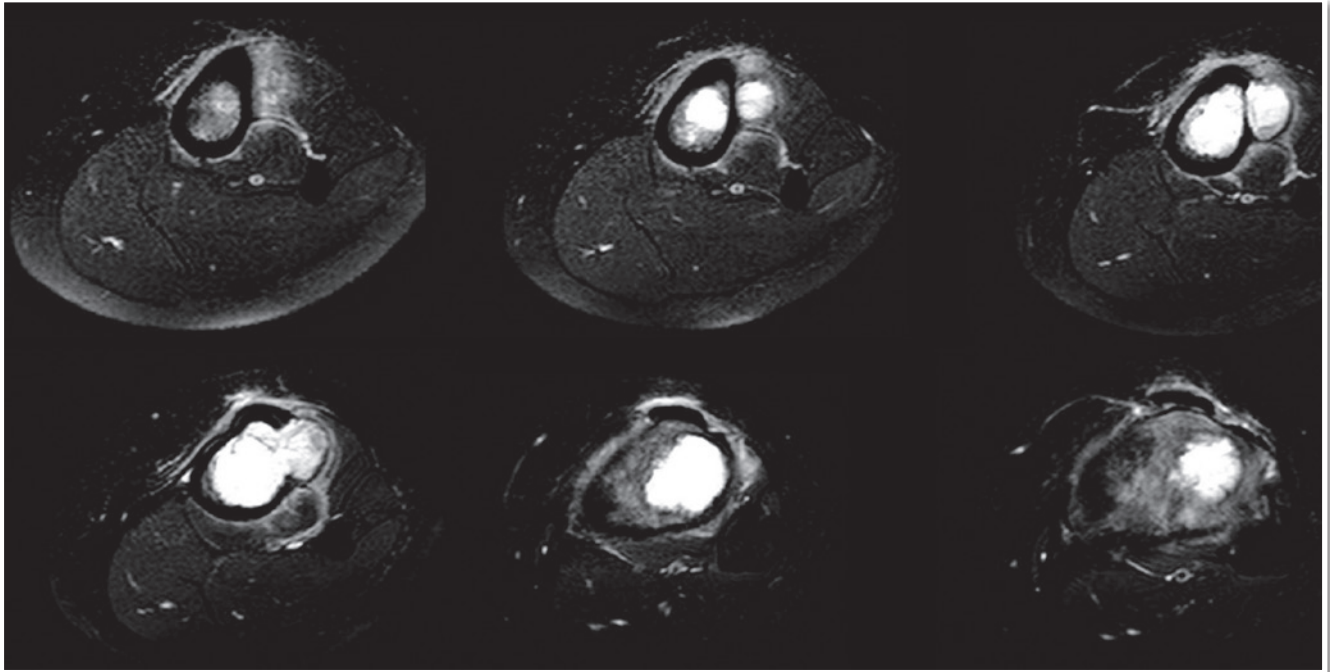


Figura 2. Ressonância magnética em corte axial da região proximal da tíbia esquerda, em T2, demonstrando conteúdo líquido (hipersinal) dentro da área cística.

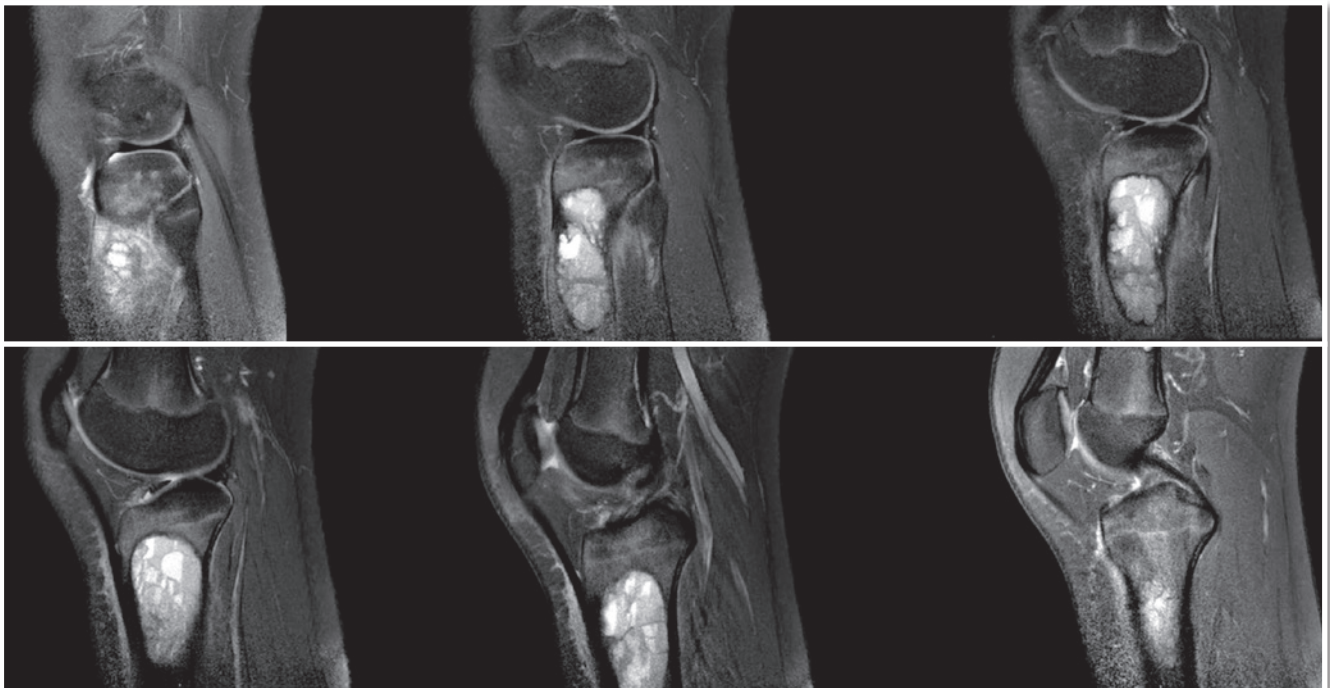


Figura 3. Ressonância magnética em corte sagital da região proximal da tíbia esquerda, em T2, demonstrando conteúdo líquido multilobulado, em septos, com nível líquido-líquido.

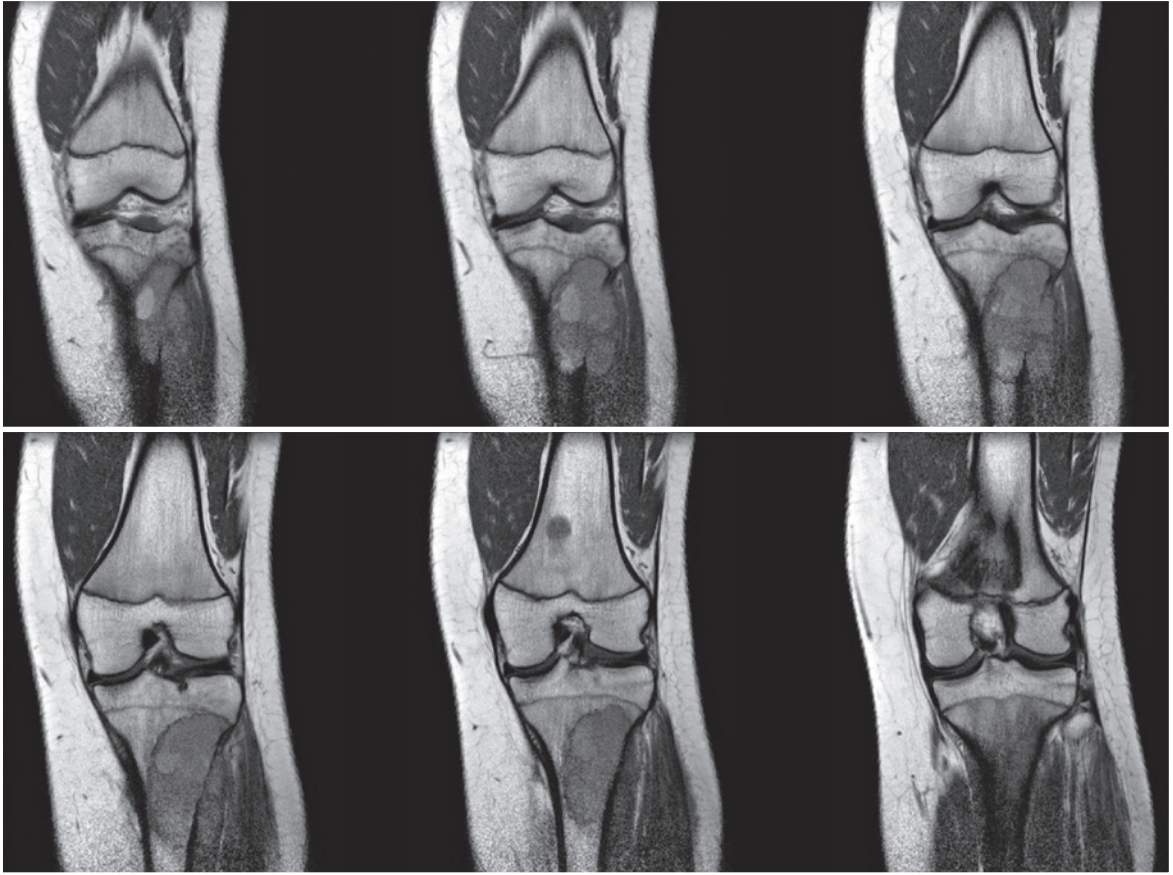


Figura 4. Ressonância magnética em corte coronal da região proximal da tíbia esquerda, em T1, demonstrando área cística com hipossinal.

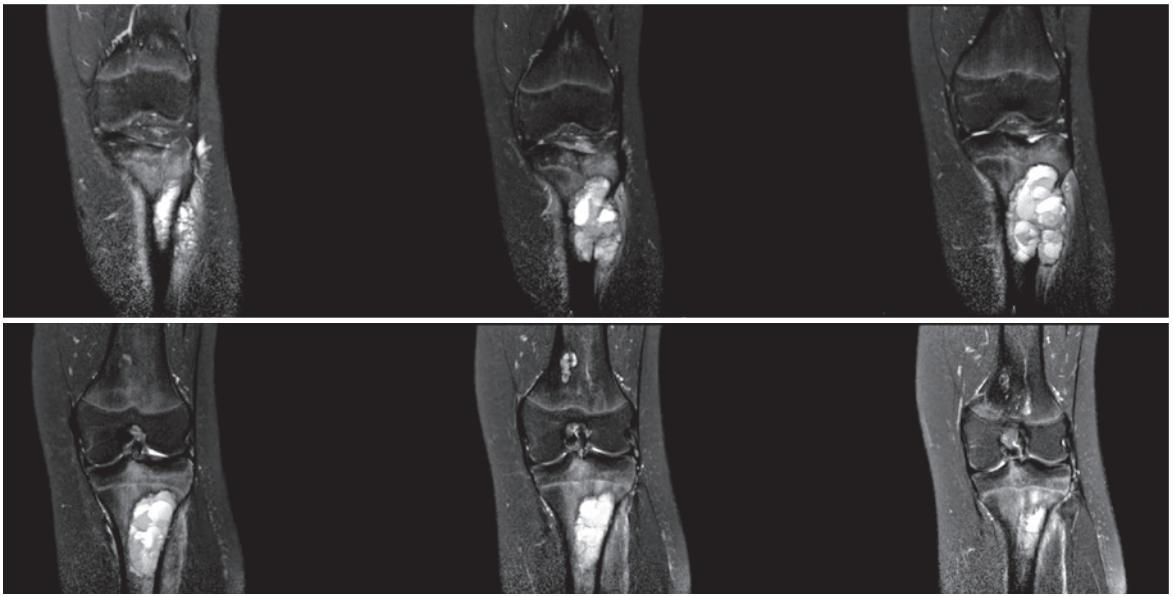


Figura 5. Ressonância magnética em corte coronal da região proximal da tíbia esquerda, em T2, demonstrando área cística com hipersinal, associado a nível líquido-líquido.

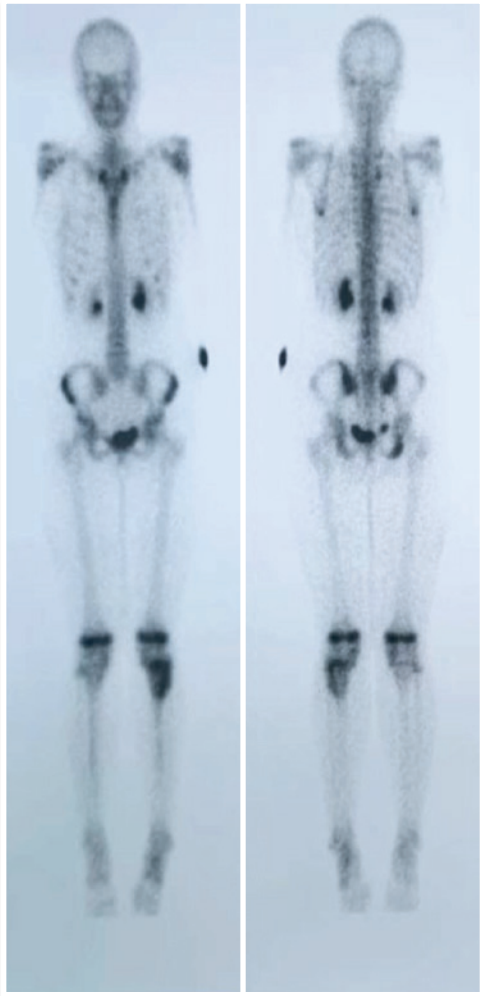


Figura 6. Cintilografia óssea com tecnécio-99. Área de hiper captação anômala em região proximal da tíbia esquerda. Sem outros focos.

Após 2 meses de pós-operatório, apresentou piora abrupta da dor e edema na topografia do joelho esquerdo, sendo solicitadas novas radiografias (Figura 8), que não identificaram informações relevantes. No entanto, em nova ressonância do joelho esquerdo (Figuras 9, 10 e 11) confirmou-se a presença de recidiva.

Para tanto, optou-se pela reabordagem por via aberta (Figura 12). Foi realizada sobre o mesmo acesso cirúrgico, ressecando a incisão prévia. O enxerto colocado previamente foi retirado e procedemos a uma ampla curetagem, nova eletrocauterização e utilização de cimento ósseo para estrutura, e adjuvância com a ação térmica do polimetilmetacrilato (Figura 13). Conforme protocolo, o material foi encaminhado para estudo anatomopatológico que confirmou a recidiva (Figura 14). Paciente segue em acompanhamento



Figura 7. Via de acesso da primeira abordagem.

ambulatorial, sem novas queixas e sem déficits neurológicos até o momento.

DISCUSSÃO

O cisto ósseo aneurismático é uma lesão benigna, Enneking B2, osteolítica, geralmente solitária e rara². Alguns autores definem sua origem secundária a distúrbios de formações venosas^{8,9}. Seu diagnóstico é feito por exames de imagem como tomografia, onde se observam lesões císticas divididas por septos,¹⁰ e ressonância magnética que apresenta em T1 um hipossinal (lesão em “favo de mel”) e hipersinal em T2 com aparência de bolhas¹⁰, preenchidos com sangue, definindo a descrição clássica de “nível líquido-líquido”.

No entanto, como os achados de imagens podem ser considerados inespecíficos pela grande quantidade de diagnósticos diferenciais, é necessária a biópsia¹¹, como em nosso caso. A biópsia

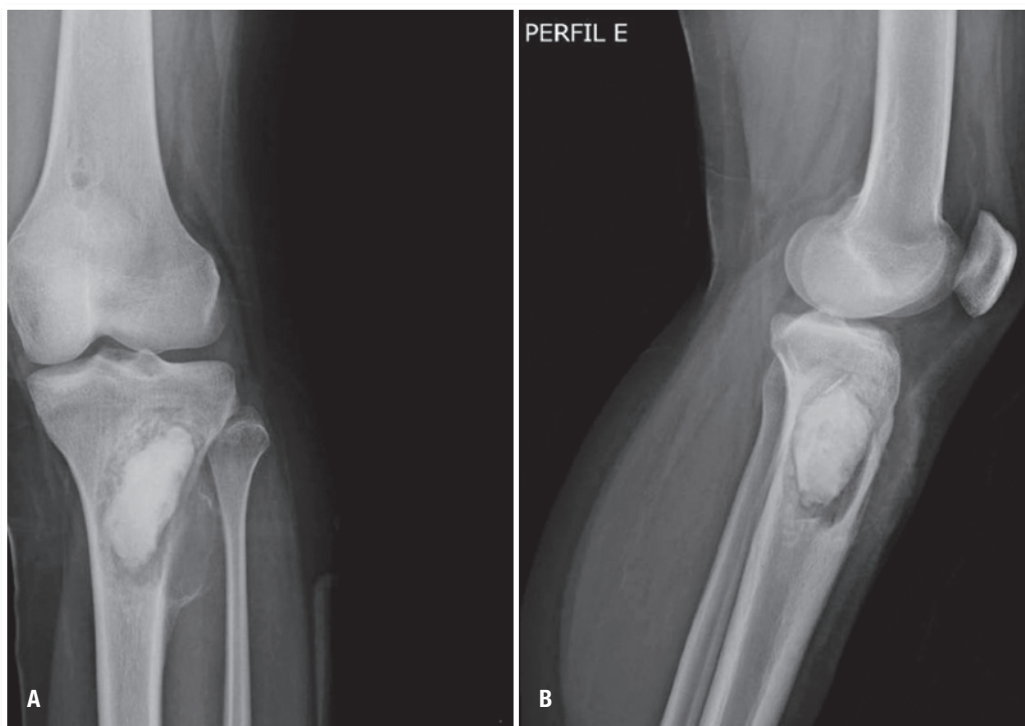


Figura 8. Radiografia anteroposterior (A) e perfil (B) pós operatórias da primeira abordagem, a cavidade cística preenchida com enxerto autólogo e sintético de cálcio (mais radiopaco).

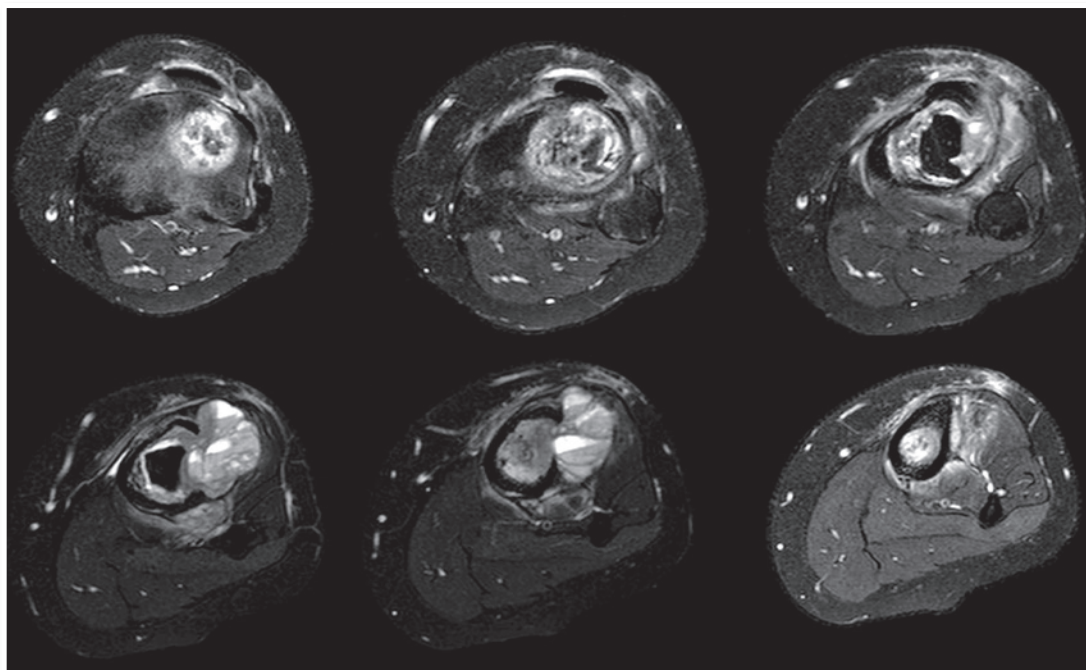


Figura 9. Ressonância magnética em corte axial da região proximal da tíbia esquerda, em T2, reforçando recidiva local com novos cistos multilobulados e nível líquido-líquido.

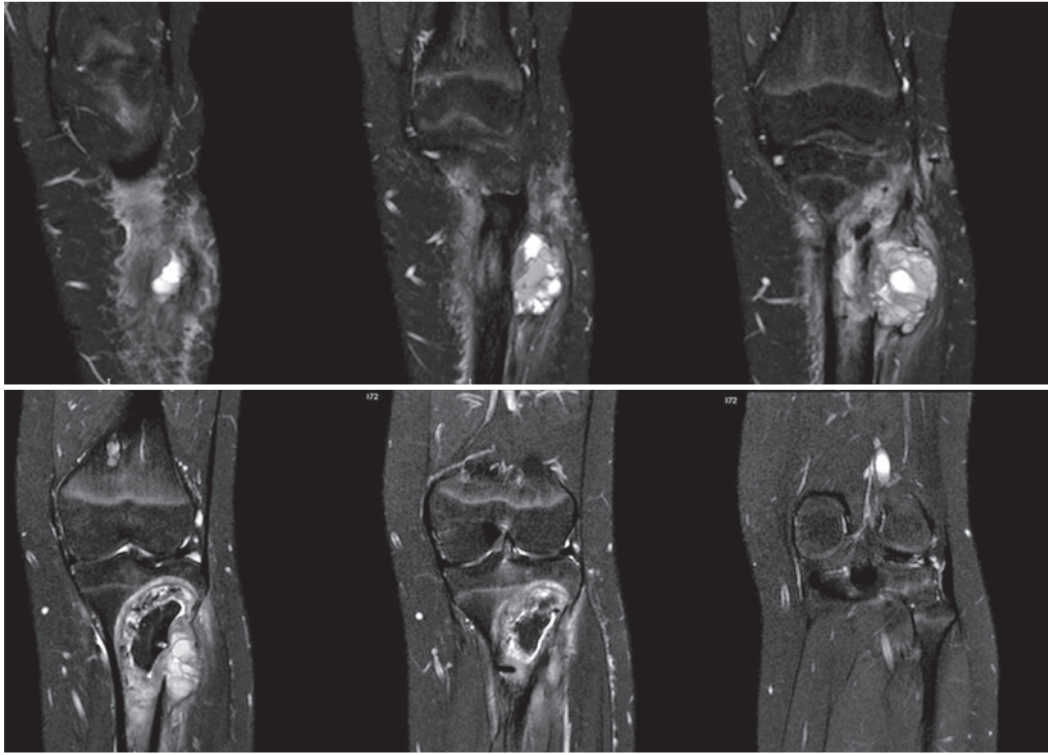


Figura 10. Ressonância magnética em corte coronal da região proximal da tíbia esquerda, em T2, demonstrando a recidiva local com novos cistos multilobulados, com nível líquido-líquido.

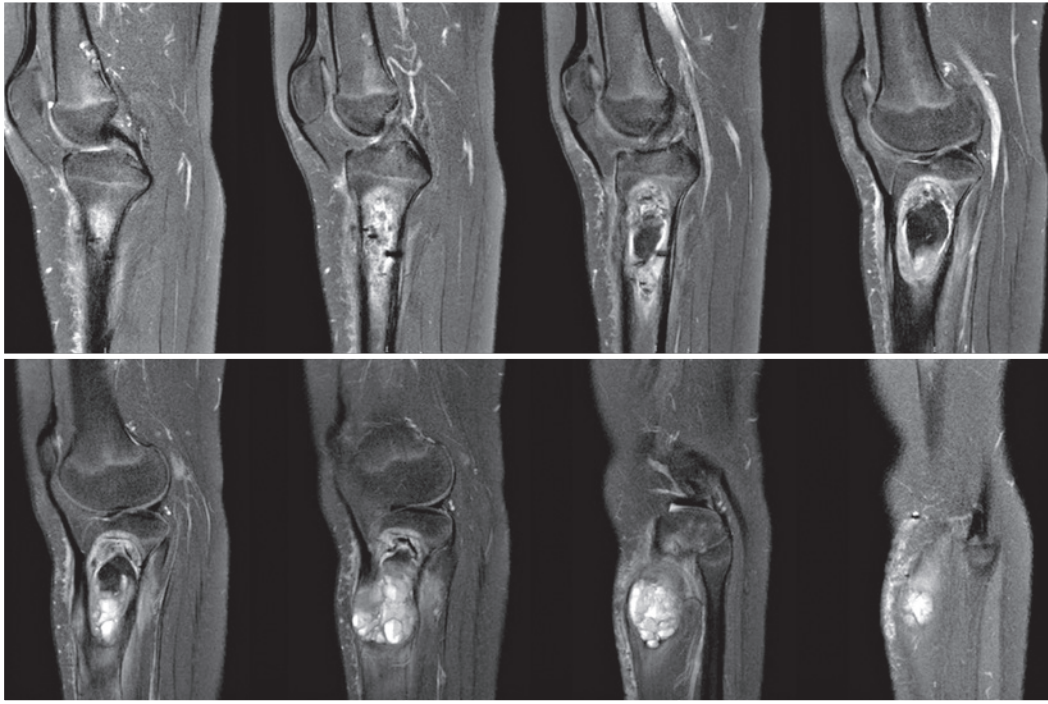


Figura 11. Ressonância magnética em corte sagital da região proximal da tíbia esquerda, em T2, reforçando presença de recidiva local com novos cistos multilobulados, com nível líquido-líquido.



Figura 12. Via de acesso da reabordagem, evidenciando a eletrocauterização e a o preenchimento com cimento ósseo.

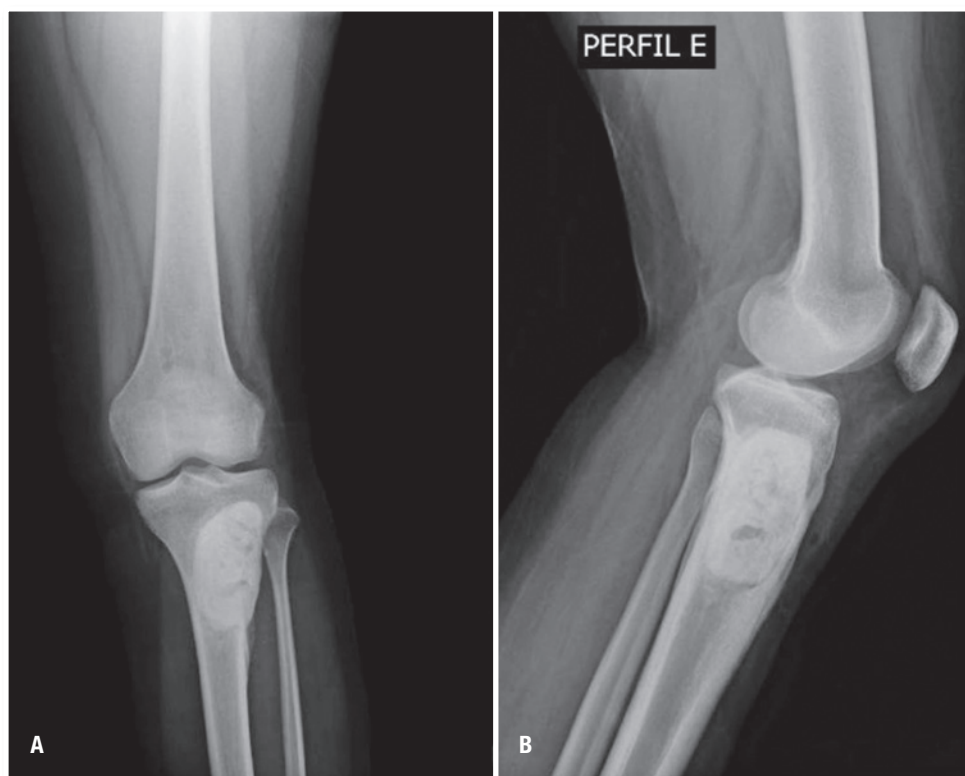


Figura 13. Radiografia anteroposterior (A) e perfil (B) pós operatórias da reabordagem, a cavidade cística preenchida com cimento ósseo.

A Biópsia óssea de tíbia proximal esquerda:

FRAGMENTOS DE CISTO ÓSSEO ANEURISMÁTICO COM AS SEGUINTE CARACTERÍSTICAS:

- LESÃO CONSTITUÍDA POR ESPAÇOS CÍSTICOS PREENCHIDOS POR HEMÁCIAS
- PRESENÇA DE SEPTOS FIBROSOS DE PERMEIO
- PRESENÇA DE CÉLULA GIGANTES MULTINUCLEADAS DO TIPO OSTEOCLASTO
- PRESENÇA DE OCASIONAIS FIGURAS DE MITOSES
- TECIDO ÓSSEO ADJACENTE COM FOCOS DE NEOFORMAÇÃO ÓSSEA REATIVA SEM ATIPIAS SIGNIFICATIVAS, ESPESSAMENTO DE TRABÉCULAS, FIBROSE INTERTRABECULAR E DEPOSIÇÃO DE HEMOSSIDERINA
- PRESENÇA DE FOCOS DE PROLIFERAÇÃO MIOFIBROBLÁSTICA REATIVA NO TECIDO CONJUNTIVO DE PERMEIO

Figura 14. Resultado do estudo anatomopatológico da última amostra coletada após reabordagem.

é feita com agulha grossa para melhor identificação dos tecidos e da celularidade. O objetivo principal está em estudar a possibilidade do COA ser uma lesão secundária a outro tumor como o de células gigantes ou o osteossarcoma teleangectásico. Neste caso foram encontradas células gigantes multinucleadas, presentes em todos estes diagnósticos, culminando a reabordagem com tratamento e coleta de todo o material. Outras características que podemos encontrar no COA é a presença de hemoglobina, hemossiderina, fibroblastos e células estromais e osteoide¹². Docquier et al.¹³ correlacionaram a histologia da amostra de biópsia com o risco de recorrência. Relataram que no resultado da biópsia a presença de maior celularidade, contendo predominantemente células estromais e gigantes, apresentava um risco maior de recidiva em comparação com aqueles que continham mais componente osteoide. No caso relatado, já na primeira biópsia o resultado não relatava presença de osteoide, mas destacava a presença de células gigantes multinucleadas. Portanto, este caso corrobora com o que foi encontrado por Docquier et al.¹³, pois houve recidiva do caso apesar do tratamento correto.

Com relação ao tratamento no Cisto Ósseo Aneurismático, a curetagem em associação com enxertia óssea é a mais utilizada⁵. Aliados a utilização de adjuvância como: cimento ósseo, fenol, ablação térmica, entre outros com a finalidade de preservação de articulação com cirurgia intralesional em pacientes acometidos por lesões pseudotumorais¹⁴⁻¹⁶. Neste estudo, inicialmente, foi optado por esta técnica, com curetagem ampla através da via anterolateral para plano tibial¹⁷, associado a adjuvância com eletrocaterização e fenol. O fenol é um agente com toxicidade celular não seletiva, que atua sobre outros tecidos, sendo sistemicamente tóxico¹⁴; a eletrocaterização é utilizada para proporcionar a coagulação térmica¹⁴. Após esse processo, foi utilizado enxerto ósseo autólogo e sintético, associados, para proporcionar estrutura para formação e indução óssea^{18,19}, uma vez que se tratava de uma paciente jovem e obtenção de uma janela óssea que permitiu uma abordagem menos agressiva.

Apesar dos esforços iniciais, evoluiu com recidiva dentro de dois meses de pós-operatório, com retorno das queixas algicas e alterações radiológicas na ressonância magnética. Assim, após ser constatada a recidiva, com evidências apontadas na literatura, foi escolhido realizar nova curetagem, nova eletrocaterização, mas com ampliação de margem. Além disso, ao invés da utilização do enxerto para estruturação optamos por uma técnica que também oferece uma adjuvância química e térmica: o cimento ósseo (polimetilmetacrilato), provendo assim uma estabilização imediata. Apesar de ainda não existirem estudos comprovando a ação tumoricida por necrose térmica, acredita-se que o cimento possa ter essa ação adjuvante associada. Devido ao comportamento agressivo da lesão a segunda abordagem foi mais ampla, com utilização de múltiplos métodos de adjuvância.

CONFLITO DE INTERESSES

Os autores declaram não haver conflito de interesses.

REFERÊNCIAS

1. Jaffe HL, Lichtenstein L. Solitary Unicameral Bone Cyst with Emphasis on the Roentgen Picture, the Pathologic Appearance and the Pathogenesis. *Archives of Surgery*. 1942;44:1004-25.
2. Leithner A, Windhager R, Lang S, Haas OA, Kainberger F, Kotz R. Aneurysmal bone cyst. A population based epidemiologic study and literature review. *Clin Orthop Relat Res*. 1999;363:176-179.
3. Martinez V, Sissons HA. Aneurysmal bone cyst. A review of 123 cases including primary lesions and those secondary to other bone pathology. *Cancer*. 1988;61:2291-2304.
4. Restrepo R, Zahrah D, Pelaez L, Temple HT, Murakami JW. Update on aneurysmal bone cyst: pathophysiology, histology, imaging and treatment. *Pediatr Radiol*. 2022;52(9):1601-14.

5. Ferreira AJ, Leitão SA, Rocha MA, Nascimento Vd, Lima GBP, Meneses ACO. Variante sólida do cisto ósseo aneurismático na extremidade distal do rádio em uma criança. *Rev Bras Ortop.* 2016;51(3):370-3.
6. Park HY, Yang SK, Sheppard WL, Hegde V, Zoller SD, Nelson SD, Federman N, Bernthal NM. Current management of aneurysmal bone cysts. *Curr Rev Musculoskelet Med.* 2016;9(4):435-44.
7. Shiels WE 2nd, Mayerson JL. Percutaneous doxycycline treatment of aneurysmal bone cysts with low recurrence rate: a preliminary report. *Clin Orthop Relat Res.* 2013;471(8):2675-83.
8. Sczendroi M, Arató G, Ezzati A, Hüttl K, Szavcsur P. Aneurysmal bone cyst: its pathogenesis based on angiographic, immunohistochemical and electron microscopic studies. *Pathol Oncol Res.* 1998;4:277-81.
9. Kransdorf MJ, Sweet DE. Aneurysmal bone cyst: concept, controversy, clinical presentation, and imaging. *Am J Roentgenol.* 1995;164:573-80.
10. Asaumi J, Konouchi H, Hisatomi M, Matsuzaki H, Shigehara H, Honda Y, et al. MR features of aneurysmal bone cyst of the mandible and characteristics distinguishing it from other lesions. *Eur J Radiol.* 2003;45(2):108-12.
11. Dekeuwer P, Odent T, Cadilhac C, Journeau P, Langlais J, Padovani JP, et al. Kyste anévrysmal du rachis chez l'enfant: sept cas avec un recul moyen de 9 ans et revue de la littérature [Aneurysmal bone cyst of the spine in children: a 9-year follow-up of 7 cases and review of the literature]. *Rev Chir Orthop Reparatrice Appar Mot.* 2003;89(2):97-106.
12. Kumar V, Abbas AK, Aster JC. Robbins and Cotran pathologic basis of disease. Philadelphia: Elsevier Saunders; 2015
13. Docquier P-L, Delloye C Galant,C (2010) Histology can be predictive of the clinical course of a primary aneurysmal bone cyst. *Arch Orthop Trauma Surg* 130:481-487.
14. Drumond JMN. Tumores ósseos benignos e lesões ósseas pseudotumorais: tratamento atual e novas tendências. *Rev Bras Ortop.* 2009;44(5):386-90.
15. Saiz P, Virkus W, Piasecki P, Templeton A, Shott S, Gitelis S. Results of giant cell tumor of bone treated with intralesional excision. *Clin Orthop Relat Res.* 2004;(424):221-6.
16. Gibbs CP, Lewis VO, Peabody T. Beyond bone grafting: techniques in the surgical management of benign bone tumors. *Instr Course Lect.* 2005;54:497-503.
17. Magri EA, Lestinge JV, Rodrigues AF, da Fonsêca E de AB, Devito Filho FS. Variante da via de acesso anterolateral para fraturas do planalto tibial com padrão posterolateral.
18. Joseph M. Lane, Safdar N. Khan. Bone grafts of the 20th century: multiple purposes, materials and goals. *Orthopedics Today.* 2000.
19. Rougraff BT. Bone graft alternatives in the treatment of benign bone tumors. *Instr Course Lect.* 2005;54:505-12.