

Tratamento do cisto ósseo aneurismático no fêmur distal

Marcos Hajime Tanaka¹, Monica Paschoal Nogueira², Rodrigo Zúñiga Aburto³, Carolina Lemoine Viliata³, Tiane Dias⁴

RESUMO

O cisto ósseo aneurismático (COA) é caracterizado por uma lesão de difícil tratamento que deve ser cirúrgico, especialmente quando ocorre em esqueleto imaturo pelo risco de recorrência. O sucesso do resultado depende de uma análise rigorosa de exames de imagem, biópsia e imuno-histoquímica da lesão. Portanto, esse artigo demonstra o método de tratamento realizado em uma paciente com COA metafisária do fêmur distal esquerdo, associado com a discrepância no comprimento dos membros inferiores e seu resultado de tratamento sem limitação funcional.

Palavras-chave: Cistos ósseos; Curetagem; Discrepância nos membros inferiores; Alongamento ósseo.

SUMMARY

Aneurysmal bone cyst (COA) a difficult to treat lesion that should be surgically treated, especially when it occurs in the immature skeleton due to the risk of recurrence. Good results depends on a rigorous analysis of imaging tests, biopsy and immunohistochemistry of the lesion. This article demonstrates treatment performed in a patient with metaphyseal COA of the left distal femur, associated with lower limbs discrepancy and its treatment outcome with no functional limitations.

Keywords: Bone cysts; Curettage; Lower limb discrepancy, Bone lengthening.

INTRODUÇÃO

O cisto ósseo aneurismático (COA) é um tumor primário descrito por Jaffe e Lichtenstein, em 1942, baseado em dois casos, caracterizada como uma grande lesão cística que contém sangue. Segundo Jaffe, essa lesão é secundária a um fenômeno hemorrágico e lesão pré-existente. Lichtenstein sugeriu uma origem vascular, postulando um "distúrbio da circulação local" por trombose de uma veia importante ou uma comunicação arteriovenosa anormal¹.

COA correspondem a 15% das lesões pseudotumorais. A incidência é 0,14 a 0,32 por cada 100.000 pessoas², sendo caracte-

rística entre 10 a 20 anos, com 80% com idade inferior a 20 anos e sendo raro em menores de 5 anos. A prevalência de homens e mulheres é similar^{2,3}.

É descrita como uma lesão solitária, expansível e erosiva que pode afetar a qualquer osso do corpo, sendo mais frequente na metáfise de ossos longos. O esqueleto axial pode ser afetado (12 a 30%)⁴.

A característica da apresentação clínica é a dor e inflamação com menos de 6 meses de evolução. Pode apresentar-se como fratura em osso patológico (especialmente na coluna) ou secundária à escoliose e cifose (10%)⁵.

1. Chefe do Grupo de Oncologia Ortopédica do Serviço de Ortopedia e Traumatologia do HSPE, São Paulo, SP, Brasil

2. Chefe do Grupo de Ortopedia Infantil e Reconstrução do Serviço de Ortopedia e Traumatologia do HSPE, São Paulo, SP, Brasil

3. Médico Fellow do Grupo de Ortopedia Infantil e Reconstrução do Serviço de Ortopedia e Traumatologia do HSPE, São Paulo, SP, Brasil

4. Médico Residente (R4) do Grupo de Ortopedia Infantil e Reconstrução do Serviço de Ortopedia e Traumatologia do HSPE, São Paulo, SP, Brasil

Autor Responsável: Monica Paschoal Nogueira / **E-mail:** monipn@uol.com.br

Radiologicamente, a lesão cística é de aparência osteolítica, normalmente localizada de maneira excêntrica na metáfise. O periósteo apresenta elevação e desgaste na cortical com uma boa margem (reação periosteal 63%). A natureza expansível dessa lesão é frequentemente referida com a aparência de uma bolha⁵.

Existem várias classificações clínicas radiológicas, sendo as mais utilizadas Dabska e Buraczewski (fase inicial, crescimento, estabilização e cicatrização), Enneking (inativo, ativo e agressivo) e Capanna (5 tipos)⁶.

A tomografia axial computadorizada (TAC) pode auxiliar no diagnóstico diferencial do COA demonstrando vários níveis e camadas de fluido entre os espaços císticos (níveis líquido-líquido). Ocasionalmente, usa-se em forma pré-operatória para definir os limites da lesão.

A ressonância magnética também pode confirmar as múltiplas camadas de fluido e a heterogeneidade da lesão. Nas imagens ponderadas em T1 e T2, o COA apresenta um hiposinal nas margens da lesão cística. Estes resultados são altamente sugestivos de COA, mas não constituem um diagnóstico patognomônico, uma vez que osteossarcoma telangectásico (OST), o tumor de células gigantes (TCG), o COA secundário e as fraturas em cisto ósseo essencial (COE) podem dar imagens similares⁷.

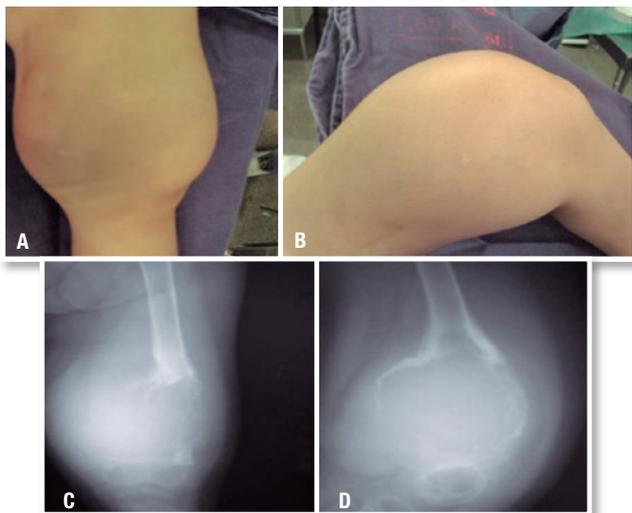


Figura 1. (A e B) Imagem clínica da paciente em visões frontal e lateral da coxa esquerda. (C e D) Radiografias pré-operatórias em AP e lateral distal do fêmur esquerdo. Observa-se lesão metáfisiária, insuflada, cística que compromete a cortical, e que respeita a físe e epífise

Fonte: Arquivo pessoal do autor

A biopsia incisional combinada com curetagem é recomendada se houver alta certeza no diagnóstico. Creage et al. revisaram retrospectivamente 23 histologias de COA feitos com Punção Aspirativa por Agulha Fina (PAAF). Em 6 casos (26%), os aspirados foram insuficientes para o diagnóstico. Sua conclusão foi de que a PAAF se associou com o elevado risco de erros de diagnósticos^{6,8}.

A nível macroscópico, seu tamanho pode variar de milímetros à centímetros de diâmetro. O COA absorve uma esponja cheia de sangue com uma membrana periosteal fina. Paredes macias e fibrosas que separam os espaços com coágulos de sangue^{5,9}.

A nível microscópico se observam septos fibrosos com osso imaturo trabeculado, como macrófagos cheios de hemossiderina, fibroblastos, capilares e células gigantes^{6,10}.

O tratamento convencional é a intervenção cirúrgica com remoção de toda lesão ou tanto quanto possível. O padrão ouro é a curetagem com enxerto ósseo, com ou sem adjuvante⁶.

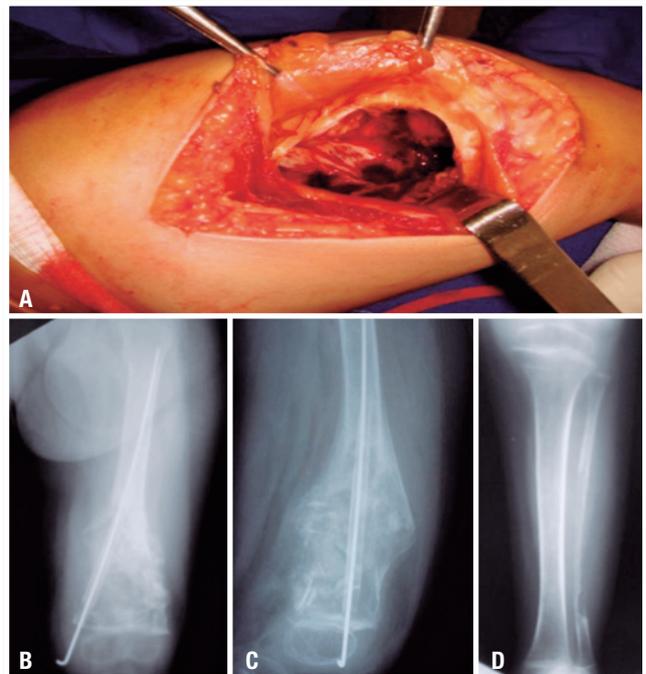


Figura 2. (A) Imagem clínica intra-operatória da lesão cística do fêmur distal com cortical diluído e introduzido pela coxa medial. (B-C) Radiologias pós-operatórias da lesão em projeções AP e lateral. Observa-se preenchimento da lesão, enxerto de fibula intralésional e osteossíntese com uma agulha de Kirschner. (D) Radiografia de controle da perna esquerda da paciente que mostra consolidação da zona doadora de fibula

Fonte: Arquivo pessoal do autor

Em lesões extensas de esqueleto e da pélvis pode-se considerar a embolização como tratamento adicional e para minimizar o sangramento operatório⁵.

Cottalorda e Bourelle¹¹ demonstram que a curetagem através de uma fenestração pequena se associa a uma taxa maior de recorrência e deve ser evitada.

A recorrência é observada em aproximadamente 20% dos casos sendo mais comum em meninos¹². 90% é apresentado nos 2 primeiros anos pós-operatório. A associação entre a idade de apresentação e a recorrência não é clara¹³⁻¹⁶.

Outro fator importante para se considerar em pacientes com esqueleto imaturo é a possibilidade de causar danos à região fisária; as lesões podem resultar em deformidades, com um processo

degenerativo precoce da articulação, e com consequência de limitação funcional^{18,19}.

Apresentaremos o caso de uma paciente com COA metafisiária distal de fêmur esquerdo, com uma solução baseada nos conceitos atuais, que apresentou como complicação uma diferença de comprimento dos membros inferiores, que foi tratada com alongamento ósseo.

RELATO DO CASO

Paciente do sexo feminino de 14 anos com antecedente de uma lesão no fêmur distal esquerdo diagnosticada aos 6 anos (Figura 1).

Apresentou-se a consulta há 8 anos com dor e tumoração na coxa esquerda. Foi realizada uma radiografia e dada as característi-



Figura 3. (A) Fotografia clínica da cicatriz do fêmur distal esquerdo por pós-curetagem medial e enxerto do COA. (B) Fotografia da cicatriz lateral da perna esquerda, área doadora do enxerto. (C) Imagem panorâmica da paciente, onde se observa o desnível pélvico clínico secundário a um encurtamento do membro inferior esquerdo. (D) Imagem panorâmica com compensação de 5cm à esquerda, que consegue compensar a discrepância e nivelar a pélvis

Fonte: Arquivo pessoal do autor

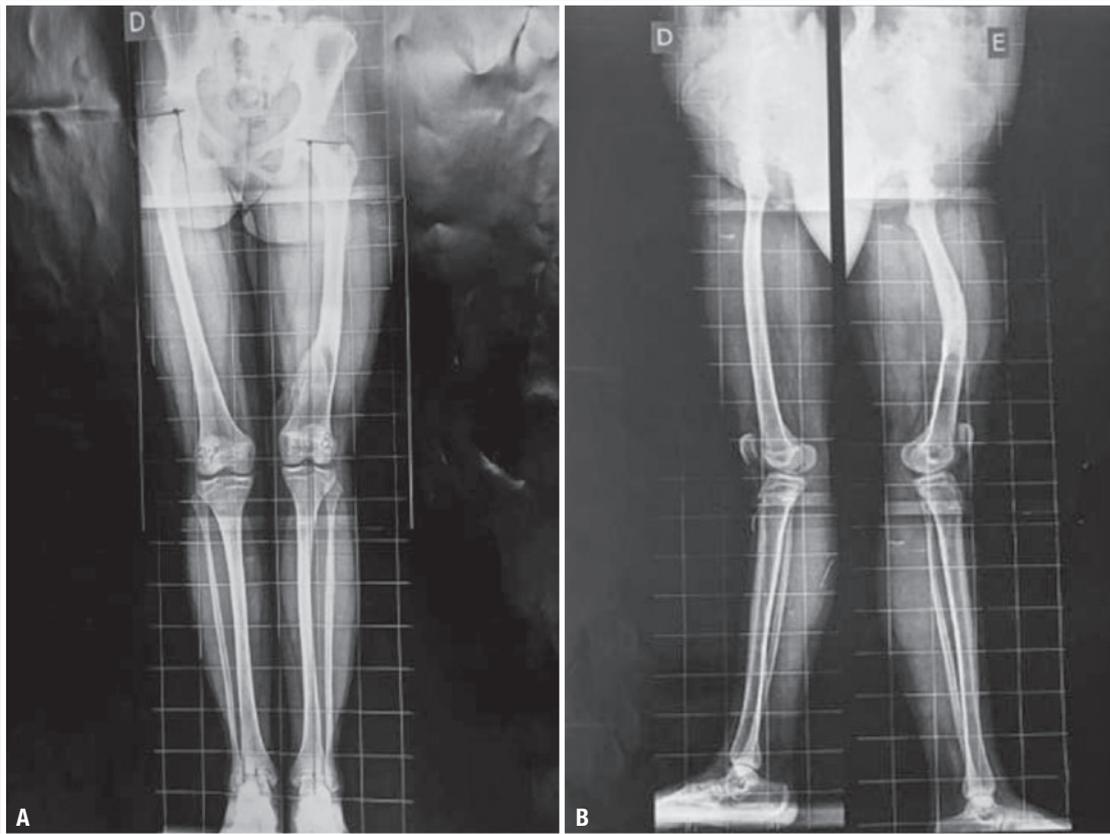


Figura 4. (A) Radiografia panorâmica dos membros inferiores ap sem nivelamento da pélvis. Observa-se uma discrepância de comprimento de 5.2cm. (B) Radiografia panorâmica dos membros inferiores lateral, onde se observa um antecurvato de 30° no terço médio do fêmur esquerdo.
Fonte: Arquivo pessoal do autor.

Quadro 1. Teste de orientação articular pré-operatórios

	Fêmur	Tíbia	LDFA*	MPTA*	LDTA*
Direito	40,5	32,5	84°	90°	90°
Esquerdo	35,5	32,5	89°	90°	90°
Diferença	5	0			

*LDFA: lateral distal femoral angle, MPTA: medial proximal tibial angle, LDTA: lateral distal tibial angle

Fonte: Preparado pelo autor

cas da lesão decidiu-se fazer biópsia. O resultado anatomopatológico foi cisto ósseo aneurismático

A paciente foi submetida à cirurgia aberta por incisão medial do fêmur distal esquerdo, realizando-se curetagem e enxerto ósseo com fíbula autóloga e osteossíntese com fio de Kirschner (Figura 2).

A paciente continuou em controles periódicos, com boa evolução clínica. Apresentava uma cicatriz móvel, não dolorosa em

relação à cirurgia prévia (Figura 3 A-B) e um desnível pélvico que melhorava com o uso de uma compensação de aproximadamente 5cm (Figura 3 C-D).

Aos 14 anos evoluiu com discrepância no comprimento de membros inferiores de 5.2 cm, associado a um antecurvato do fêmur de 30° (Figura 4).

Foi realizado teste do mau alinhamento e teste de orientações articulares para programar cirurgia corretora definitiva (Quadro 1), que mostrou encurtamento e procurvato do fêmur esquerdo.

Decidiu-se realizar uma osteotomia corretiva aguda no CORA da deformidade médio-diafisária femoral esquerda, associado a uma osteotomia distal para alongar o segmento ósseo na área onde foi enxertado com a fíbula (Figura 5A). Optou-se pela fixação com fixador externo circular tipo Ilizarov com dois semi-anéis proximais, que foram utilizados para a correção aguda, e dois anéis distais que foram utilizados para o alongamento do segmento distal de forma gradual (Figura 5). Foi realizada uma descompressão profilática do nervo fibular.

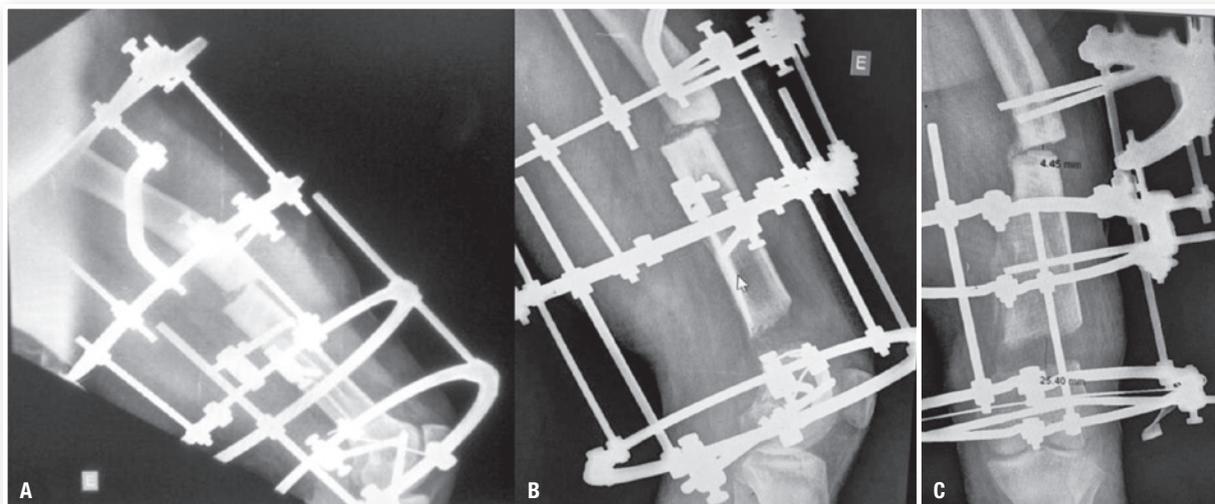


Figura 5. (A) Radiografia pós-operatória do fêmur distal em posição lateral, onde se observa a correção do eixo femoral no CORA. (B-C) Radiografia à 6 semanas pós-operatórias, onde se observa alongamento do segmento ósseo de 3cm no total.

Fonte: Arquivo pessoal do autor.

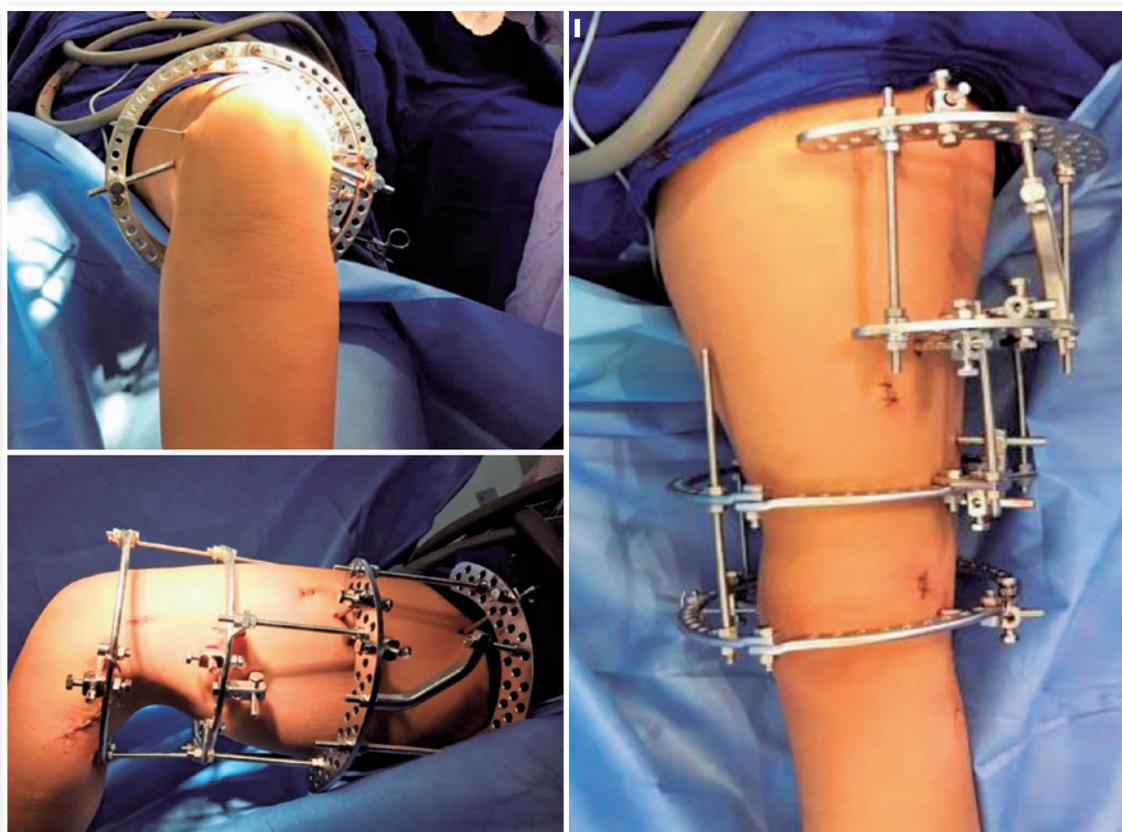


Figura 6. Imagem intra-operatória da instalação de fixador circular tipo Ilizarov. Na parte proximal foram instalados dois semianéis para correção aguda e fixação. Na parte inferior se observa 2 anéis para alongamento da osteotomia distal. Além disso, se observa a cicatriz lateral da perna proximal, para a liberação profilática do nervo fibular

Fonte: Arquivo pessoal do autor

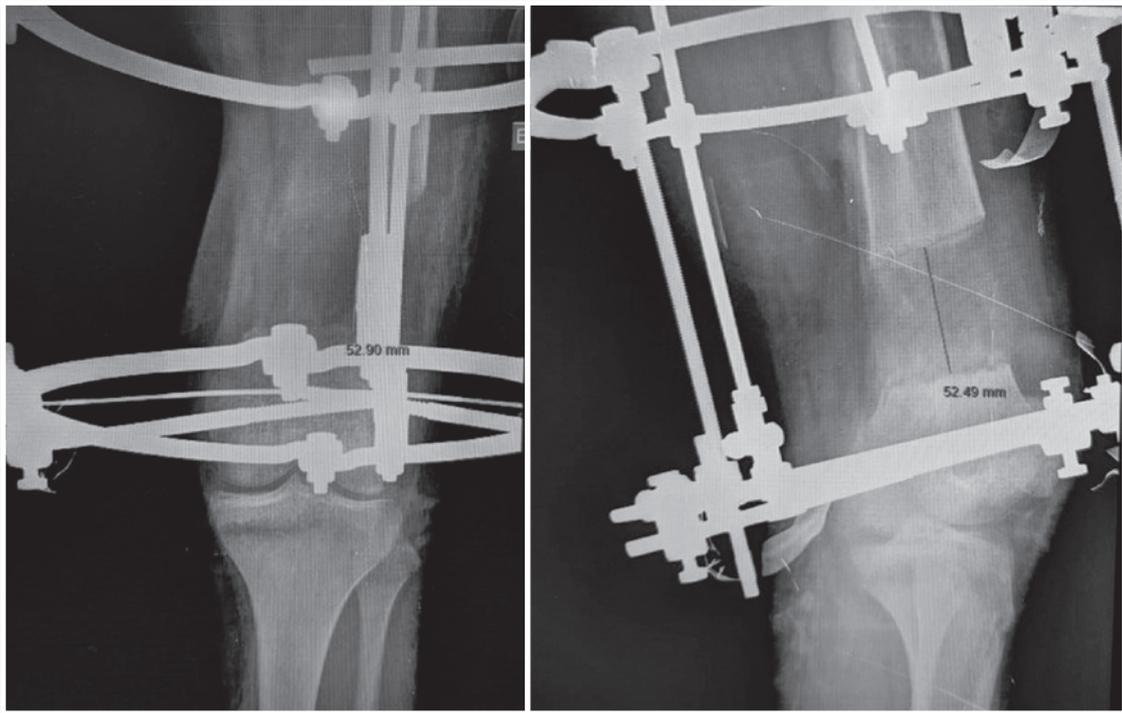


Figura 7. Radiografia com 9 semanas de pós-operatório, onde se observa a distração do segmento ósseo de 5,2cm no total.
Fonte: Arquivo pessoal do autor.



Figura 8. Imagens clínicas da paciente e sua funcionalidade com o fixador externo.
Fonte: Arquivo pessoal do autor.



Figura 9. Imagens clínicas do paciente com um ano pós-remoção do fixador externo, mostrando bom alinhamento frontal e lateral com patelas niveladas, flexão de quadril de 110 e joelho 100°.

Fonte: Arquivo pessoal do autor.

A paciente foi observada periodicamente para o controle do alongamento, estabilidade do fixador, e condições de pele. Após 6 semanas de evolução pós-operatórias foi possível observar um alongamento do segmento de aproximadamente 3cm, com um bom eixo radiográfico na projeção anterior, posterior e lateral (Figura 5 B-C).

Em 9 semanas pós-operatórias, radiograficamente, observa-se regenerado de 5,2cm no total (Figura 7). Foi então parado o alongamento.

Aos cinco meses pós-operada pode-se observar a boa funcionalidade da paciente com o fixador externo (Figura 8).

Após um ano da cirurgia, a paciente evoluiu bem, sem dor ou desconforto. Clinicamente com bom alinhamento, sem desnível pélvico e patelas na mesma altura. Apresenta uma marcha sem claudicação, flexão de quadril de 110° e de joelho de 100° (Figura 9). Na radiografia panorâmica dos membros inferiores AP e lateral, observam-se membros equalizados e boa orientação das articulações. Houve uma translação medial do eixo mecânico, que pode ser sido causada pela perda de fixação dos pinos de Schanz distais. No entanto, optado por não corrigi-la pela boa evolução clínica da paciente (Figura 10).

A imagem radiográfica comparativa dos 6 e 14 anos mostra a completa remissão da lesão, sem sinais de recidiva e totalmente consolidada na área do alongamento ósseo (Figura 11).

DISCUSSÃO

O diagnóstico do cisto ósseo aneurismático está baseado em uma boa biópsia, devido suas múltiplas possibilidades diagnósticas^{6,9,10}. O tratamento das lesões deste tipo é agressivo e está focado na erradicação total da lesão com uma curetagem ampla com aplicação de enxerto, associada ou não a terapias adjuvantes com o propósito de evitar a recidiva¹³⁻¹⁶.

No caso descrito, para a consolidação do segmento se realizou uma curetagem, enxerto e osteossíntese¹⁷. Nenhuma recorrência foi observada durante um seguimento prolongado.

Provavelmente essa paciente teve uma lesão fisária secundária ao tratamento inicial do tumor e assim evoluiu com uma discrepância do comprimento dos membros inferiores às custas do fêmur esquerdo, associado a um antecurvato. Lesões fisiárias e as alterações de eixos estão descritas nesta patologia, como complicações secundárias^{18,19}.

No caso das alterações do eixo e discrepância no comprimento dos membros inferiores, uma das opções de tratamento poderia ser alongar e corrigir a angulação no ponto da osteotomia no ápice da deformidade em procurvato com fixador externo. Também, poderíamos ter feito correções múltiplas que pudessem permitir a colocação de implante intramedular, considerado por alguns autores uma forma de evitar recidiva de deformidades em ossos com alguma fragilidade²⁴. Neste caso, optou-se pela correção aguda

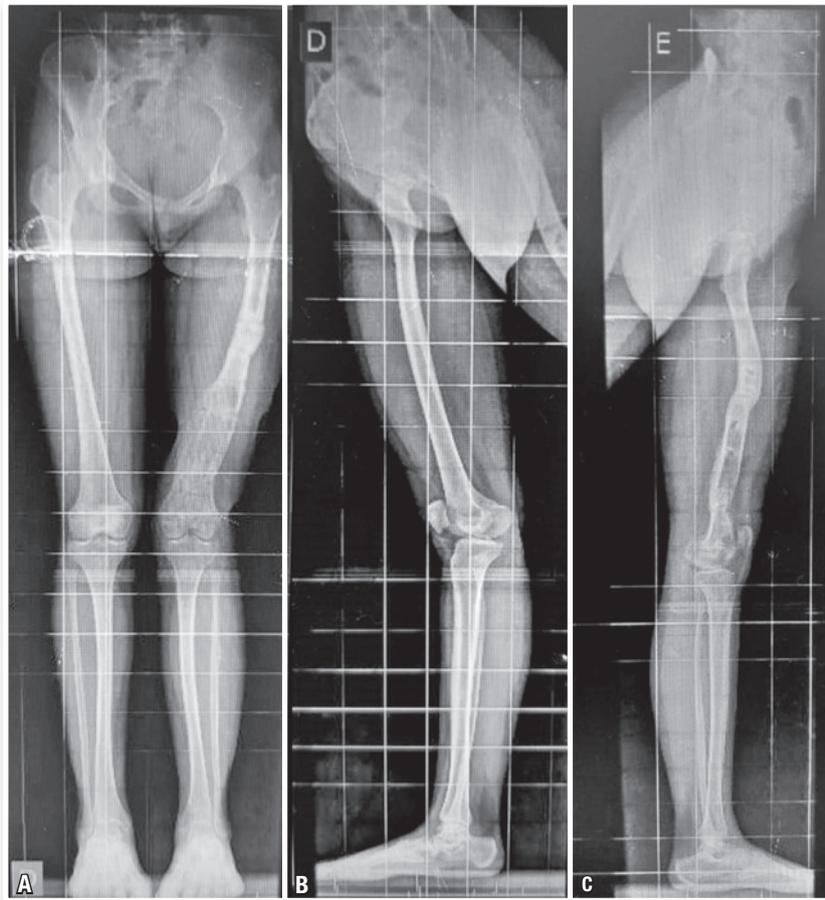


Figura 10. (A) Radiografia panorâmica dos membros inferiores ap com pélvis nivelada. Não se observa uma discrepância de comprimento. (B-C) Radiografia panorâmica lateral dos membros inferiores, onde se observa a correção dos 30 graus de antecurvato com translação (pela resolução em CORA único) no terço médio do fêmur esquerdo, com eixo mecânico adequado do segmento.

Fonte: Arquivo pessoal do autor.

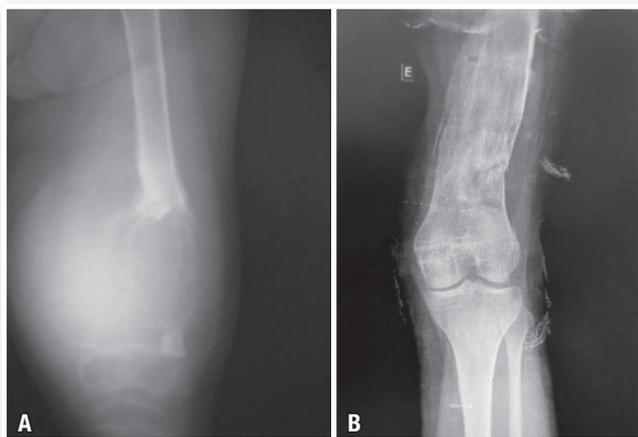


Figura 11. Radiografia comparativa do fêmur distal esquerdo, entre os 6 (A) e 14 (B) anos do COA operado e alongado

Fonte: Arquivo pessoal do autor

médio-diafisária do fêmur e o alongamento progressivo através de osteotomia distal na metáfise - área do enxerto da fíbula consolidada, também com um fixador tipo Ilizarov.

Associado a isso, foi realizada uma descompressão profilática do nervo fibular como recomendado pela literatura existente^{20,21}.

Este caso tem uma particularidade relacionada à alongamento em uma área de lesão tumoral, com comportamento imprevisível quanto aos resultados devido a qualidade óssea. Há relatos de casos isolados na literatura que abordam esse aspecto²²⁻²⁴.

Cabe ressaltar que o manejo multidisciplinar do paciente e sua lesão são parte importante no diagnóstico e na recuperação (radiologista, patologista, fisiatra e fisioterapeuta).

Em resumo, o tratamento de cisto ósseo aneurismático em crianças exige boas radiografias com uma alta suspeita clínica, e

uma boa equipe de patologia para poder realizar diagnósticos macro e microscópicos precisos. Do ponto de vista cirúrgico a abordagem deve ser um tratamento agressivo da lesão, levando em conta a alta recorrência desta. É necessário levar em conta as possíveis complicações associadas a essas lesões no esqueleto imaturo, principalmente nas lesões justas fisárias, o que pode levar lesões secundárias.

REFERÊNCIAS

- 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.
- Zehetgruber H, Bittner B, Gruber D, Krepler P, Trieb K, Kotz R, et al. Prevalence of aneurysmal and solitary bone cysts in young patients. *Clin Orthop Relat Res*. 2005;(439):136-43.
- 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):176-9.
- Cottalorda J, Kohler R, Sales de Gauzy J, Chotel F, Mazda K, Lefort G, et al. Epidemiology of aneurysmal bone cyst in children: A multicenter study and literature review. *J Pediatr Orthop B*. 2004;13(6):389-94.
- Kransdorf MJ, Sweet DE. Aneurysmal bone cyst: concept, controversy, clinical presentation, and imaging. *AJR Am J Roentgenol*. 1995;164(3):573-80.
- Rapp TB, Ward JP, Alaia MJ. Aneurysmal bone cyst. *J Am Acad Orthop Surg*. 2012;20(4):233-41.
- Mahnken AH, Nolte-Ernsting CC, Wildberger JE, Heussen N, Adam G, Wirtz DC, et al. Aneurysmal bone cyst: Value of MR imaging and conventional radiography. *Eur Radiol* 2003;13(5):1118-24.
- Creager AJ, Madden CR, Bergman S, Geisinger KR. Aneurysmal bone cyst: Fine-needle aspiration findings in 23 patients with clinical and radiologic correlation. *Am J Clin Pathol*. 2007;128(5):740-5.
- Mirra JM. Bone tumors: clinical, radiologic and pathologic correlations. Philadelphia: Lea & Febiger; 1989. p.1233-1334.
- Vergel De Dios AM, Bond JR, Shives TC, McLeod RA, Unni KK. Aneurysmal bone cyst: a clinicopathologic study of 238 cases. *Cancer* 1992;69(12):2921-31.
- Cottalorda J, Bourelle S. Current treatments of primary aneurysmal bone cysts. *J Pediatr Orthop B*. 2006;15(3):155-167.
- 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):6756-62.
- Gibbs CP Jr, Hefele MC, Peabody TD, Montag AG, Aithal V, Simon MA. Aneurysmal bone cyst of the extremities: factors related to local recurrence after curettage with a high-speed burr. *J Bone Joint Surg Am*. 1999;81(12):1671-1678.
- Başarir K, Pişkin A, Güçlü B, Yıldız Y, Sağlık Y. Aneurysmal bone cyst recurrence in children: A review of 56 patients. *J Pediatr Orthop* 2007;27(8): 938-943.
- Lin PP, Brown C, Raymond AK, Deavers MT, Yasko AW. Aneurysmal bone cysts recur at juxtaphyseal locations in skeletally immature patients. *Clin Orthop Relat Res*. 2008;466(3):722-8.
- Dormans JP, Hanna BG, Johnston DR, Khurana JS. Surgical treatment and recurrence rate of aneurysmal bone cysts in children. *Clin Orthop Relat Res*. 2004;(421):205-11.
- Schreuder HW, Veth RP, Pruszczynski M, Lemmens JA, Koops HS, Molenaar WM. Aneurysmal bone cysts treated by curettage, cryotherapy and bone grafting. *J Bone Joint Surg Br*. 1997;79(1):20-5.
- Lampasi M, Magnani M, Donzelli O. Aneurysmal bone cysts of the distal fibula in children: long-term results of curettage and resection in nine patients. *J Bone Joint Surg Br*. 2007; 89(10):1356-62.
- Ramirez A, Stanton RP. Aneurysmal bone cyst in 29 children. *J Pediatr Orthop*. 2002;22(4):533-9.
- Nogueira MP, Paley D, Bhave A, Herbert A, Nocente C, Herzenberg JE. Nerve lesions associated with limb-lengthening. *J Bone Joint Surg Am*. 2003;85(8):1502-10.
- Slawski DP, Schoenecker PL, Rich MM. Peroneal nerve injury as a complication of pediatric tibial osteotomies: a review of 255 osteotomies. *J Pediatr Orthop*. 1994;14(2):166-72.
- Eralp L, Bilen FE, Rozbruch SR, Kocaoglu M, Hammoudi AI. External fixation reconstruction of the residual problems of benign bone tumours. *Strategies Trauma Limb Reconstr*. 2016 Apr;11(1):37-49.
- Nazzar Tellisi, Svetlana Ilizarov, Austin T. Fragomen and S. Robert Rozbruch. Humeral lengthening and deformity correction in Ollier's disease: distraction osteogenesis with a multiaxial correction frame. *J Pediatric Orthop B*. 2008; 17(3):152-7.
- Kurtz AM, Rozbruch SR. Humerus lengthening with the PRECICE internal lengthening nail. *J Pediatr Orthop*. 2017;37(4): e296-e300.