

Leczenie i diagnostyka różnicowa torbieli tętniakowatej kości w oparciu o własne doświadczenia

Treatment and Differential Diagnosis of Aneurysmal Bone Cyst Based on Our Own Experience

Patryk Tomasik^{1(A,B,C,D,D,E,F)}, Jerzy Spindel^{1(A,D,E,F,G)}, Leszek Miszczyk^{2(A,C,D,E,F)},
Adam Chrobok^{1(C,E,F)}, Bogdan Koczy^{1(D,E,F,G)}, Jerzy Widuchowski^{1(D,E,F,G)},
Tomasz Mrozek^{1(C,E,F)}, Jacek Matysiakiewicz^{1(C,D,E,F)}, Bolesław Pilecki^{2(D,E,F)}

¹ Wojewódzki Szpital Chirurgii Urazowej im. Dr J. Daaba, Piekary Śląskie

¹ Dr J. Daab Regional Hospital of Trauma Surgery, Piekary Śląskie

² Centrum Onkologii – Instytut im. M. Skłodowskiej-Curie, Gliwice

² Maria Skłodowska-Curie Memorial Cancer Center and Institute of Oncology, Gliwice

STRESZCZENIE

Wstęp. Tętniakowata torbiel kości po raz pierwszy została opisana przez Jaffego i Lichtenteina w 1942 roku. W podanej w 1972 roku przez Schajowicza i wsp. i zmodyfikowanej następnie przez WHO (1993 r.) Klasyfikacji Histopatologicznej Pierwotnych Guzów Kości zalicza się ją do grupy IX – zmian nowotworopodobnych kości. Jej etiologia i patogenezę nie jest do końca wyjaśniona. Występuje ona najczęściej u starszych dzieci i młodych dorosłych, bardzo rzadko przed 5 i po 30 roku życia. Celem pracy jest ocena wyników leczenia torbieli tętniakowatej kości oraz przedstawienie problemów diagnostyki i różnicowej w oparciu o własne doświadczenia.

Materiał i metody. 40 chorych z torbielą tętniakowatą: 21 mężczyzn i 19 kobiet w wieku od 10 do 65 lat (średnia 22), w latach 1999-2006 leczonych operacyjnie przez Zespół Guzów i Nowotworów Kości. Okres obserwacji zawierał się w przedziale od 2 miesięcy do 78 miesięcy (średnio 23).

Wyniki. U 25 chorych wykonano 1 zabieg operacyjny i podczas obserwacji nie stwierdzono wznowy. W pozostałych 15 przypadkach wystąpił proces wznowy guza w czasie od 2 miesięcy do 72 miesięcy (średnio 17). U 12 pacjentów wynik był niejednoznaczny i wymagał różnicowania z guzem olbrzymiokomórkowym.

Wnioski. 1. Leczenie operacyjne torbieli tętniakowatych stwarza możliwości radykalnego usunięcia zmiany oraz jednoczesną weryfikację histopatologiczną. 2. Podstawą skutecznego leczenia pierwotnych i nawrotowych torbieli tętniakowatych kości jest dokładne usunięcie wszystkich tkanek wyścielających torbiel i komponenty torbieli z otaczających tkanek miękkich. 3. Przy opracowaniu planu leczenia operacyjnego torbieli tętniakowatej warunkiem jego powodzenia i zmniejszenia ryzyka wznowy jest precyzyjne określenie rozmiarów guza, jego charakteru i jego topografii za pomocą metod diagnostyki obrazowej. 4. Na proces wznowy narażeni są pacjenci z postacią agresywną lub aktywną torbieli tętniakowatej. 5. Lokalizacja obok stawów oraz obecność chrząstek nasadowych utrudnia doszczętne usunięcie zmiany i stwarza techniczne problemy podczas zabiegu operacyjnego. 6. Torbiel aneurysmatyczna najczęściej budzi podejrzenie guza olbrzymiokomórkowego. W przypadku jego potwierdzenia po zabiegu operacyjnym pacjenta należy poddać uzupełniającej radioterapii. 7. Pacjenci z torbielą tętniakowatą wymagają długiego czasu obserwacji ze względu na możliwość późnych nawrotów guza.

Słowa kluczowe: torbiel tętniakowata, guz olbrzymiokomórkowy kości, osteoclastoma

SUMMARY

Background. Aneurysmal bone cyst was first described by Jaffe and Lichtenstein in 1942. Schajowicz in 1972 in his Histopathological Classification of Primary Bone Tumors (later modified by WHO in 1993) placed it in group IX – tumor-like lesions. Its etiology and pathogenesis is not completely clear. Aneurysmal bone cysts are usually found in older children and young adults, rarely before the age of 5 or after 30. The aim of the study is to evaluate aneurysmal cyst treatment outcomes in patients we have treated and present diagnostic difficulties, especially considering the giant cell tumor in differential diagnosis.

Material and methods. The study group consisted of 40 patients aged from 10 to 65 years (mean age 22 years), including 21 men and 19 women, who underwent surgery at the Bone Tumor and Neoplasm Unit between 1999 and 2006. The follow-up period varied from 2 to 78 months (mean 23 months).

Results. A single surgical procedure was performed in 25 patients. No recurrences were noted in this group. In the remaining 15 cases, the tumor relapsed between 2 and 72 months after surgery (mean 17 months). In 12 patients, the histopathological examination was inconclusive. The giant cell tumor of bone was considered as a second diagnosis in all these cases.

Wnioski. 1. Surgical treatment of aneurysmal bone cysts enables radical excision of the lesion with same-time histopathological verification. 2. The basis of effective treatment of primary and recurring aneurysmal bone cysts consists in complete resection of all tissues lining the cyst and any of its components from the surrounding soft tissues. 3. An effective plan of surgical treatment of aneurysmal bone cyst aimed at reducing the risk of tumor recurrence relies crucially on precise determination of its size, characteristics and topography via imaging workup. 4. Relapses are most common in patients suffering from the aggressive or active form of aneurysmal bone cyst. 5. Tumor location in direct proximity of a joint and the presence of epiphyseal cartilage hinders complete resection of the lesion and gives rise to technical problems during surgery. 6. The diagnosis of aneurysmal bone cyst most often leads physicians to assume the presence of a giant cell tumor. If this diagnosis is confirmed following surgery, the patient should be subjected to additional radiotherapy. 7. Patients suffering from aneurysmal bone cyst require a long follow-up due to the possibility of late recurrence of the tumor.

Key words: aneurysmal bone cyst, giant cell bone tumor, osteoclastoma

WSTĘP

Tętniakowata torbiel kości po raz pierwszy została opisana przez Jaffego i Lichtenteina w 1942 roku [1,2,3]. W podanej w 1972 roku przez Schajowicza i wsp. i zmodyfikowanej następnie przez WHO (1993 r.) Klasyfikacji Histopatologicznej Pierwotnych Guzów Kości zalicza się ją do grupy IX – zmian nowotworopodobnych kości [4,5]. Jej etiologia i patogenеза nie jest do końca wyjaśniona. Występuje ona najczęściej u starszych dzieci i młodych dorosłych, bardzo rzadko przed 5 i po 30 roku życia [5,6,7,8]. Wyróżnia się dwie formy torbieli tętniakowatej: pierwotną i wtórną. Forma pierwotna powstaje w niezmięnionej kości, wtórna rozwija się w tkance kostnej już patologicznie zmienionej, na przykład na podłożu torbieli samotnej, dysplazji włóknistej, guzów łagodnych i złośliwych kości [9]. Torbiel tętniakowata lokalizuje się najczęściej w okolicach przynasadowo-nasadowych kości lub w trzonach kręgów, ale są doniesienia o jej umiejscowieniu w miednicy, a nawet rzepecie [1,2,8,10,11,12]. Obraz kliniczny torbieli tętniakowatej najczęściej przedstawia się w formie szybko powiększającej się zmiany osteolitycznej powodującej ból, powiększenie obrysów kości i kończyny lub złamanie patologiczne. Opisowa nazwa torbieli pochodzi od jej makroskopowego podobieństwa do tętniaka. Zazwyczaj występuje ona w formie asymetrycznego i nieraz bardzo dużego balonowatego rozdęcia kości [5,10]. W obrazie histologicznym torbiel tętniakowata nie ma cech złośliwości, ze względu jednak na obecność dużej liczby wielojądrowych komórek olbrzymich, może być ona mylnie rozpoznana jako guz olbrzymiokomórkowy lub naczyniowa postać mięsaka kościopochodnego. W rozpoznaniu różnicowym histologicznym trzeba uwzględnić wszystkie guzy zawierające komórki olbrzymie. W badaniu różnicowym radiologicznym – dysplazję włóknistą, mięsaka Ewinga i ziarniniaka kwasochłonnego [1,2,3,5,8,10,13].

W grupie zmian nowotworopodobnych kości torbiel tętniakowata cechuje się bardzo dużym odsetkiem wznów miejscowych po operacji [1,6,7,8,14,15]. Rzadko, ale może ulec procesowi zezłośliwienia [1,2,3,8,13,15]. W oparciu o badania radiologiczne torbieli tętniakowatej, wykorzystując podziały opisane przez Capannę, Campanacciego, Ennekinga i Lodwicka wyróżniono jej 3 postaci:

1. agresywną – w której brak jest cech osteosyntezy naprawczej, widoczne jest niewyraźne ograniczenie torbieli od zdrowej kości, brak jest widocznego ograniczenia torbieli okostną.
2. aktywną – z niepełnym ograniczeniem torbieli przez okostną i widocznym odgraniczeniem torbieli od zdrowej kości.

BACKGROUND

Aneurysmal bone cyst was first described by Jaffe and Lichtenstein in 1942 [1,2,3]. Schajowicz in 1972 in his Histopathological Classification of Primary Bone Tumors (later modified by WHO in 1993) placed it in group IX – tumor-like lesions [4,5]. Its etiology and pathogenesis is not completely clear. Aneurysmal bone cysts are usually found in older children and young adults, rarely before the age of 5 or after 30 [5,6,7,8]. They can present as primary tumors developing in normal bone or secondary lesions, arising from other pathologies such as a solitary cyst, fibrous dysplasia, or benign and malignant bone tumors [9]. Aneurysmal bone cysts are most commonly located in bone epiphyses and metaphyses and vertebral bodies. However, there are reports of aneurysmal cysts developing in the pelvis or even the patella [1,2,8,10,11,12]. An aneurysmal bone cyst most commonly presents clinically as a rapidly growing osteolytic lesion resulting in pain and distention of bone and limb contours or pathological fractures. The descriptive name of this cyst is derived from its macroscopic resemblance to an aneurysm and it usually presents as an asymmetrical and often extreme balloon-like swelling of the bone [5,10]. Histologically, aneurysmal bone cysts do not demonstrate malignant characteristics but the presence of numerous giant multinucleated cells may lead to an erroneous diagnosis of giant cell tumor of bone or osteogenic angiosarcoma. Histological differential diagnosis should include all giant cell tumors, and radiological differential diagnosis should comprise fibrous dysplasia, Ewing's sarcoma and eosinophilic granuloma [1,2,3,5,8,10,13].

In comparison to other tumor-like bone lesions, aneurysmal bone cysts demonstrate a particularly high rate of post-operative local recurrences [1,6,7,8,14,15]. However infrequently, aneurysmal bone cysts may undergo malignant transformation [1,2,3,8,13,15]. The following three types of aneurysmal bone cyst have been distinguished on the basis of radiographic examinations and classifications by Capanna, Campanacci, Enneking and Lodwick:

1. aggressive – with no evidence of reparative osteogenesis, no periosteal shell, and an ill-defined endosteal margin,
2. active – with an incomplete periosteal shell and a sharply defined intraosseous border,
3. inactive – with a visible sclerotic rim around the cyst [6,14,16,17].

Many authors emphasize the significance of the characteristics and type of lesion for the treatment outcome and recurrence rate [7].

3. nieaktywną – z widoczną sklerotyczną otoczką torbieli [6,14,16,17].

Wielu autorów opisuje znaczenie charakteru zmiany i jej postaci dla wyniku leczenia i procesu wznowy [7].

Celem pracy jest ocena wyników leczenia torbieli tętniakowatej kości oraz przedstawienie problemów diagnostycznych i różnicowania z guzem olbrzymiokomórkowym w oparciu o własne doświadczenia.

MATERIAŁ I METODY

Analizie poddano 40 pacjentów: 21 mężczyzn i 19 kobiet. Wiek pacjentów zawierał się w przedziale od 10 do 65 lat (średnia 22). Wszyscy pacjenci byli operowani i leczeni w latach 1999-2006 przez Zespół Guzów i Nowotworów Kości. U każdego z tych pacjentów po zabiegu operacyjnym wyresekowany materiał był przesyłany celem badania histopatologicznego do Zakładu Diagnostyki Mikroskopowej „Histamed” w Gliwicach. W całej badanej grupie w opisach badania histopatologicznego pojawiała się torbiel tętniakowata. Wszyscy pacjenci pozostawali pod kontrolą ambulatoryjną, a okres obserwacji wynosił od 4 miesięcy do 78 miesięcy (średnio 23). Diagnostyka obrazowa wykonana przed zabiegiem operacyjnym potwierdzała obecność śródkostnego guza osteolitycznego. Objawy będące przyczyną wdrożenia diagnostyki obrazowej są przedstawione w Tabeli 1.

The aim of this study is to evaluate aneurysmal cyst treatment outcomes in patients we have treated and present diagnostic difficulties, especially considering the giant cell tumor in differential diagnosis.

MATERIAL AND METHODS

The study group consisted of 40 patients aged from 10 to 65 years (mean age 22 years), including 21 men and 19 women, who underwent surgery at the Bone Tumor and Neoplasm Unit between 1999 and 2006. Tissue samples resected from each patient during surgery were sent the “Histamed” Microscopic Diagnosis Center in Gliwice and subjected to a histopathological examination. Aneurysmal bone cyst was confirmed histologically in all patients from the study group. All patients were followed up on an outpatient basis, with the follow-up period varying from 4 to 78 months (mean 23 months). Imaging work-up performed prior to the surgery confirmed the presence of an intraosseous osteolytic tumor. Symptoms underlying the decision to carry out imaging work-up are presented in Table 1.

The most numerous group of patients (19 patients = 47.5%) had only a radiograph obtained without other diagnostic imaging procedures – see Table 2.

Tab. 1. Objawy będące przyczyną wykonania diagnostyki obrazowej w badanej grupie

Tab. 1. Symptoms leading to diagnostics in the study group

Objawy/ Symptoms	Ból przeciążeniowy/ Overload pain	Powiększenie obrysów kości i kończyny/ Distention of bone and limb outline	Złamanie patologiczne na podłożu guza/ Tumor-related pathological fracture	Diagnostyka przypadkowa po urazie/ Random imaging exam following injury
Liczba pacjentów/ Number of patients	17	4	12	7
Czas trwania objawów (średnia)/ Duration of symptoms (mean duration)	Od 1 do 72 miesięcy/from 1 to 72 months (12)	Od 3 do 12 miesięcy/ from 3 to 12 months (7)	-	-

Tab. 2. Rodzaj diagnostyki obrazowej i radiologicznej przeprowadzonej w badanej grupie

Tab. 2. Types of radiological diagnostics in the study group

Rodzaj badania/ Type of procedure	Zdjęcia RTG/ Radiographs	RTG + TK/ Radiographs + CT	RTG + MR/ Radiographs + MRI	RTG + TK + MR/ Radiographs + CT + MRI	RTG + scyntygrafia/ Radiographs + scintigraphy
Liczba pacjentów/ Number of patients	19	10	5	3	3
Odsetek/ Percentage	47.5%	25%	12.5%	7.5%	7.5%

Największą grupę stanowili pacjenci, u których diagnostyka obrazowa i radiologiczna ograniczała się tylko do zdjęcia rentgenowskiego – 19 pacjentów (47,5%) – Tabela 2.

Miejscowym badaniem klinicznym najczęściej stwierdzało się bolesność palpacyjną w okolicy guza, obrzęk tej okolicy oraz ograniczenie ruchu w sąsiednim najbliższym stawie spowodowane bólem – 12 pacjentów (30%) Tabela 3.

Najczęstsze lokalizacje zmian są przedstawione w Tabeli 4.

Zaobserwowaliśmy po jednym przypadku występowania zmian w: kości udowej (koniec bliższy), kości strzałkowej (koniec dalszy), kości łokciowej (koniec dalszy), kości skokowej, kości piętowej i 3 kości śródstopia. U jednej chorej zmiana wystąpiła w dwóch różnych kościach: w części bliższej kości piszczelowej oraz w części bliższej kości strzałkowej.

A physical examination of the area most commonly revealed pain on palpation in the tumor area, swelling of the tumor area and pain-related limited mobility in the joint proximal to the tumor – 12 patients (30%), see Table 3.

The most common tumor locations are presented in Table 4.

We observed one case of tumor in each of the following locations: femur (proximal), fibula (distal), ulna (distal), talar bone, calcaneal bone and 3 metatarsal bones. In one patient the lesion was found in two different bones, namely, the proximal tibia and proximal fibula.

A total of 56 surgical procedures were performed in the entire study group, most commonly consisting in tumor resection followed by filling the defect with an allogenic bone graft in the form of frozen bone chips from the Regional Centre of Blood Donation and Hemotherapy Tissue Bank in Katowice – 41

Tab. 3. Objawy kliniczne podczas badania stanu miejscowego

Tab. 3. Clinical symptoms

Stan miejscowy i objawy kliniczne/ Local clinical signs and symptoms on physical examination	Liczba przypadków/ Number of cases	Odsetek/ Percentage
Bez odchyień od stanu prawidłowego (diagnostyka po urazie)/ No abnormalities (diagnostic work-up following injury)	7	17.5%
Bolesność palpacyjna w okolicy guza, obrzęk tej okolicy, bólowe ograniczenie ruchu w sąsiednim stawie/ Pain on palpation in the tumor area, swelling of the tumor area and pain-related limited mobility in the joint proximal to the tumor	12	30%
Bolesność palpacyjna w okolicy guza i bólowe ograniczenie ruchu w sąsiednim stawie, bez obrzeku i powiększenia obrysów/ Pain on palpation in the tumor area and pain-related limited mobility in the proximal to the tumor, no swelling, no distention of bone or limb contour	8	20%
Tylko bolesność palpacyjna w okolicy guza/ Only pain on palpation in the tumor area	6	15%
Powiększenie obrysów w okolicy guza bez dolegliwości bólowych / Distention of bone and limb contour without pain	4	10%
Powiększenie obrysów i bolesność palpacyjna w okolicy guza/ Distention of bone and limb contour and pain on palpation in the tumor area	3	7.5%

Tab. 4. Lokalizacja zmian w kościach

Tab. 4. Localization of tumor

Lokalizacja guza w kości/ Tumor location	Liczba pacjentów/ Number of patients	Odsetek/ Percentage
Kość ramienna (koniec bliższy)/ Humerus (proximal)	10	25%
Kość udowa (koniec dalszy)/ Femur (distal)	8	20%
Kość piszczelowa (koniec dalszy)/ Tibia (distal)	5	12.5%
Kość strzałkowa (koniec bliższy)/ Fibula (proximal)	5	12.5%
Kość piszczelowa (koniec bliższy)/ Tibia (proximal)	3	7.5%
Kość promieniowa (koniec bliższy)/ Radius (proximal)	2	5%
Obojczyk/ Clavicle	2	5%

Tab. 5. Rodzaj przeprowadzonych zabiegów operacyjnych

Tab. 5. Types of surgical procedures

Rodzaj zabiegu/ Type of procedure	Resekcja guza/ Tumor resection	Resekcja + allospongiozoplastyka/ Resection + spongy bone grafting	Resekcja + allospongiozoplastyka + stabilizacja/ Resection + spongy bone grafting + stabilization	Wycięcie fragmentu kości z guzem/ Resection of the tumor together with a bone fragment
Liczba pacjentów/ Number of patients	8	41	3	4
Odszetek/ Percentage	14,2%	73,2%	5,4%	7,2%

W całej badanej grupie wykonano 56 zabiegów operacyjnych, z których najliczniejszą grupę stanowiły operacje polegające na resekcji guza i uzupełnieniu ubytku przeszczepem kostnym allogenicznym w postaci mrożonych wiór kostnych pochodzących z Banku Tkanek Regionalnego Centrum Krwiodawstwa i Krwiolecznictwa w Katowicach – 41 zabiegów (73,2%) (Tabela 5). W 3 zabiegach operacyjnych oprócz resekcji guza i allospongiozoplastyki konieczne było zastosowanie metalu zespalającego. Były to: śródszpikowa stabilizacja kości ramiennej prętem Endera, stabilizacja masywnego przeszczepu allogenicznego w obrębie końca dalszego kości udowej dwoma śrubami AO-gąbczastymi, stabilizacja kości udowej za pomocą płyty AO-dwurzędowej 4:4. W jednym przypadku zastosowano klamrę metalową celem stabilizacji głowy kości strzałkowej po zabiegu resekcji „en bloc” jej fragmentu z guzem, (Tabela 5).

Dwa zabiegi operacyjne były powikłane procesem zapalnym rany pooperacyjnej i otaczających tkanek miękkich, który po leczeniu zachowawczym wycofał się.

WYNIKI

Na największą uwagę zasługują wyniki badań histopatologicznych. U 28 pacjentów (70%) wynik był jednoznaczny i brzmiał – torbiel tętniakowata. U pozostałych 12 pacjentów (30%) wynik był niejednoznaczny i wymagał różnicowania. We wszystkich tych przypadkach stwierdzono również podejrzenie guza olbrzymiokomórkowego. U wszystkich tych pacjentów materiał pooperacyjny podlegał dodatkowym badaniom laboratoryjnym, weryfikacji histologicznej i immunohistochemicznej. Przeprowadzone badania potwierdziły w 7 przypadkach torbiel tętniakowatą wykluczając guza olbrzymiokomórkowego. U 5 pacjentów potwierdzono obecność guza olbrzymiokomórkowego. Pacjenci z potwierdzonym rozpoznaniem guza olbrzymiokomórkowego kierowani byli do Instytutu Onkologii celem uzupełniającej radioterapii.

procedures (73.2%), see Table 5. In 3 procedures it was necessary to combine tumor resection and spongy bone grafting with metal fixation. These included: intramedullary stabilization of the humerus using an Ender rod, stabilization of a massive allogenic graft within the distal femur using two AO-type spongy bone screws, and stabilization of the femur using a double AO-type 4:4 plate. In one case a metal clasp was used to stabilize the head of the fibula following an en bloc resection of its segment with the tumor, see Table 5.

Two procedures were complicated by inflammation of the surgical wound and adjacent soft tissues, which was managed by conservative treatment.

RESULTS

The results of histopathological examination merit particular attention. In 28 patients (70%), the results unequivocally confirmed an aneurysmal bone cyst. In the remaining 12 patients (30%), they were inconclusive and required differential workup, with giant cell tumor considered as a second diagnosis in all cases. All of the tissue samples obtained during surgery in this group were subjected to additional laboratory examinations, including histological and immunohistochemical verification. Aneurysmal bone cyst was confirmed in 7 patients (in whom giant cell tumor of bone was ruled out) and giant cell tumor was diagnosed in 5 patients. The latter group was referred to the Institute of Oncology for additional radiation therapy.

All 7 patients in whom aneurysmal bone cyst was confirmed following the verification of tissue sam-

U wszystkich 7 pacjentów z potwierdzoną torbielą tętniakowatą, u których przeprowadzono weryfikację preparatów w związku z podejrzeniem guza olbrzymiokomórkowego mieliśmy do czynienia z agresywną postacią torbieli tętniakowatej. U wszystkich tych pacjentów doszło do wznowy.

W całej badanej grupie u 25 chorych (62,5%) wykonano 1 zabieg operacyjny i podczas obserwacji i kontroli ambulatoryjnych nie stwierdzono procesu odrastania guza. U pozostałych 15 chorych (37,5%) wystąpił proces miejscowej wznowy guza. Była ona stwierdzana podczas kontroli ambulatoryjnych na podstawie wywiadu, badania klinicznego i potwierdzona diagnostyką radiologiczną. W 6 przypadkach objawem odrastania zmiany było złamanie patologiczne. U 2 chorych proces wznowy wystąpił trzykrotnie. Najszybciej wznowa pojawiła się po 2 miesiącach od zabiegu operacyjnego. W badanej grupie średni czas odrastania guza wyniósł 17 miesięcy. W jednym przypadku do wznowy doszło po 6 latach. W grupie chorych ze wznowami wykonano 31 zabiegów operacyjnych. Wszystkie wznowy spowodowane były niecałkowitym usunięciem wszystkich tkanek torbieli. Brak doszczętności w resekowaniu wynikał z wieku pacjentów i lokalizacji w częściach przynasadowych kości. Lokalizacja obok stawów i obecność chrząstek nasadowych i wzrostowych stwarzała techniczne problemy podczas zabiegu operacyjnego, ze względu na ryzyko ich uszkodzenia.

Wszystkie torbiele tętniakowate, które uległy wznowie miały rozległy charakter. W grupie 15 chorych, u których doszło do wznowy torbiele miały postać agresywną lub aktywną. W grupie torbieli tętniakowatych mających postać nieaktywną nie stwierdzono procesu wznowy.

Analizując diagnostykę obrazową wykonaną przed pierwszym zabiegiem uwagę zwraca fakt, że z grupy 15 chorych ze wznowami u 13 diagnostyka opierała się tylko na zdjęciu RTG. Rozszerzenie diagnostyki obrazowej u pacjentów, u których po wykonaniu zdjęcia RTG stwierdzono obecność guza osteolitycznego pozwalało dokładnie określić obszar resekcji i plan leczenia operacyjnego, co zmniejszało ryzyko wznowy.

DYSKUSJA

Znaczne ułatwienie w diagnostyce torbieli tętniakowatej kości przyniosło wprowadzenie do diagnostyki badań izotopowych (scyntygrafii), tomografii komputerowej i rezonansu magnetycznego. Wszystkie one są niezwykle pomocne w ustaleniu prawidłowego rozpoznania, a wręcz niezbędne w zaplanowaniu prawidłowego leczenia. Na podstawie tych badań

ples due to the suspicion of giant cell tumor of bone suffered from the aggressive type of the condition. Recurrences were observed in all cases.

A total of 25 patients (62.5%) from the study group were subjected to a single surgical procedure, with no relapses noted in the course of the postoperative and outpatient follow-up. In the remaining 15 patients (37.5%) local recurrences of the tumor were observed in the course of the follow-up study on the basis of history data and clinical examination and confirmed by imaging studies. In 6 cases the relapse presented as a pathological fracture. In 2 patients the tumor relapsed three times, with the first relapse observed 2 months following surgery. The mean time to recurrence in the study group was 17 months. There was one patient with tumor recurrence 6 years post-surgery. Thirty-one surgeries were performed in the group of patients with recurrences, all of which were caused by incomplete resection of pathological tissue due to the patients' age and tumor location within the bone metaphysis. Tumor location in the proximity of joints and the presence of epiphyseal and growth cartilage posed technical problems in the course of surgery due to the risk of damage.

All relapsing aneurysmal bone cysts were extensive. In the group of 15 patients with recurrences all cysts were of the aggressive or active type. There were no recurrences in the group of cysts classified as inactive.

The analysis of imaging work-up performed prior to the first procedure reveals that 13 out of the 15 patients with tumor recurrences were diagnosed solely on the basis of a radiographic examination. Extending the scope of imaging work-up in patients diagnosed with an osteolytic tumor solely on the basis of a radiographic scan enabled precise determination of the resection area and planning surgery, which minimized the risk of tumor recurrence.

DISCUSSION

The introduction of isotope imaging (scintigraphy), CT and MRI to the diagnostic armamentarium has greatly facilitated the diagnostic workup of aneurysmal bone cysts. All of these methods have been particularly useful in establishing a correct diagnosis and quite indispensable for planning treatment appropriately. These methods enable local sta-

można ocenić miejscowe zaawansowanie zmiany, jej topografię, wielkość z dokładnym określeniem rozmiarów i jej wielokomorowy charakter. Informacje te są niezbędne celem określenia rodzaju zabiegu i jego rozległości, a tym samym zmniejszenia ryzyka wznowy. Potwierdza to grupa 13 pacjentów ze wznowami, u których przed zabiegiem operacyjnym wykonano tylko zdjęcie RTG.

Zasadniczą formą leczenia torbieli tętniakowatej jest postępowanie chirurgiczne:

- resekcja zmienionego fragmentu kości bez uzupełnienia powstałego ubytku. Wskazaniem do tego sposobu postępowania są guzy o małych rozmiarach, które pozwalają na radykalne usunięcie,
- resekcja guza i uzupełnienie powstałego ubytku przeszczepami auto- i allogenicznymi,
- resekcja anatomiczna całego odcinka kości wraz z guzem (en bloc) do granicy zdrowej, niezmięnionej tkanki kostnej [18,19,20,21].

Czasem, gdy zmiana ma szczególnie niekorzystną lokalizację, a należy do tzw. postaci nieaktywnych można ograniczyć się do obserwacji torbieli [22]. Z chwilą jednak, gdy jej obraz radiologiczny zacznie wykazywać przemianę w formę aktywną wskazany jest zabieg ostrożnego wyłyżeczkowania zmiany, a następnie implantowania wiór kostnych [6,14,16,17,19,20,21]. W przypadkach nieoperacyjnych agresywnych torbieli tętniakowatych stosuje się radioterapię. Torbiel tętniakowata, szczególnie jeżeli mamy do czynienia z postacią aktywną lub agresywną zawsze wymaga leczenia, gdyż może ona ulec przemianie złośliwej [1,2,3,8,13,15,23].

Nie biorąc pod uwagę 5 pacjentów, u których dodatkowe specjalistyczne badania laboratoryjne potwierdziły obecność guza olbrzymiokomórkowego, w naszym materiale odsetek wznów miejscowych po leczeniu operacyjnym wynosił 43%. Wysoki odsetek wznów jest zbliżony do doniesień innych autorów [2,6,7,8,13,14]. W literaturze podnosi się znaczenie faktu, że u chorych poniżej 15 roku życia odsetek nawrotów sięga 71%, a u młodszych dzieci z agresywną postacią torbieli tętniakowatej możliwość wznowy sięga niemal 100% [7]. Związane jest to z dużym ryzykiem uszkodzenia chrząstki wzrostowej, co ogranicza rozległość operacji i doszczętną resekcję zmiany. Próby zapobiegania wznowie poprzez denaturację fenolem ściany jamy po usunięciu guza, jej frezowanie połączone z krioterapią lub kauterizacja tylko w niewielkim stopniu poprawiają wyniki leczenia [24,25,26]. W jednej z publikacji donoszono o skutecznym leczeniu wznowy podawanym doustnie dexametazonem [27]. W naszym materiale okres, po którym dochodziło do miejscowej wznowy i procesu odrastania zmiany wynosił średnio 17 mie-

ging of the lesion, assessment of its topography, precise size and multilocular nature, which is necessary to specify the type and extent of the surgical procedure so as to minimize the risk of relapse. It is confirmed by the results obtained in 13 patients with tumor recurrence, who were originally diagnosed solely on the basis of a radiograph.

The following surgical procedures are primary treatments of aneurysmal bone cyst:

- resection of the affected bone fragment without filling the bone defect. It is recommended for small tumors which qualify for radical excision,
- tumor resection and filling the bone defect with autogenous and allogenic bone grafts,
- anatomical (en bloc) resection of the entire bone fragment containing the tumor to the border of healthy bone tissue [18,19,20,21].

If the lesion has a particularly unfavorable location but can be characterized as inactive, management can be limited to watchful waiting [22]. However, as soon as any features of transformation into the active form can be observed on radiographs, careful curettage of the lesion followed by implanting bone chips into the defect should follow [6,14,16,17,19,20,21]. Aggressive cysts which do not qualify for surgical treatment are irradiated. An aneurysmal bone cyst, particularly if active or aggressive, always requires treatment due to the risk of malignant transformation [1,2,3,8,13,15,23].

Excluding 5 patients in whom the diagnosis of a giant cell tumor was confirmed following additional specialist laboratory studies, the rate of local tumor recurrence after surgical treatment in our study group amounted to 43%. Such a high rate of tumor recurrence corresponds with the observations of other authors [2,6,7,8,13,14]. Literature data emphasize the fact that patients below 15 years of age demonstrate a recurrence rate of 71%, and in small children suffering from an aggressive type of aneurysmal bone cyst the probability of relapse may even reach 100% [7]. These percentages are related to a high risk of damaging growth cartilage owing to which the extent of surgery and possibility of complete resection are limited. Attempts to prevent tumor recurrence by phenol denaturation of the walls of the resection cavity or milling the cavity combined with cryotherapy or cauterization contribute little to the improvement of treatment results [24,25,26]. One report suggested that tumor recurrence can be effectively treated with oral dexamethasone [27]. In our study group the tumor relapsed after an average of 17 months, while most publications report relapses within 12 months following surgery.

sięcy. Większość prac donosi o pojawieniu się nawrotów w ciągu 12 miesięcy od operacji.

W badaniu mikroskopowym torbieli tętniakowatej stwierdza się liczne, szerokie przestrzenie naczyniowe oraz naczynia włosowate. Między tymi przestrzeniami mogą znajdować się pola tkanki łącznej włóknistej, beleczki kostne, fagocyty obładowane hemosyderyną i wielojądrowe komórki olbrzymie typu osteoklastu [5,10]. Torbiel tętniakowata jest zmianą wymagającą dokładnej diagnostyki i badań w celu postawienia jednoznacznego rozpoznania, ponieważ może imitować guzy złośliwe. Rozrost torbieli tętniakowatej bywa często szybszy niż w guzach złośliwych i budzi czasami wątpliwości co do łagodnego charakteru zmiany. W rozpoznaniu różnicowym trzeba uwzględnić guz olbrzymiokomórkowy, mięsak kościopochodny, mięsak Ewinga, dysplazję włóknistą i ziarniniak kwasochłonny [5,10]. W naszym materiale w badanej grupie 40 pacjentów u 12 z nich wynik badania histopatologicznego był niejednoznaczny i wymagał różnicowania z guzem olbrzymiokomórkowym, u 5 z nich dodatkowe badania potwierdziły rozpoznanie guza olbrzymiokomórkowego. Oprócz klasycznych badań histologicznych wprowadzono dodatkowe metody badawcze, które rozszerzają możliwości potwierdzenia rozpoznania w takich przypadkach. Należą do nich badania immunohistochemiczne i immunofenotypowe, badania cytogenetyczne oraz analiza biochemiczna tkanki guza

WNIOSKI

1. Leczenie operacyjne torbieli tętniakowatych stwarza możliwości radykalnego usunięcia zmiany oraz jednoczesną weryfikację histopatologiczną.
2. Podstawą skutecznego leczenia pierwotnych i nawrotowych torbieli tętniakowatych kości jest dokładne usunięcie wszystkich tkanek wyściełających torbiel i komponenty torbieli z otaczających tkanek miękkich.
3. Przy opracowaniu planu leczenia operacyjnego torbieli tętniakowatej warunkiem jego powodzenia i zmniejszenia ryzyka wznowy jest precyzyjne określenie rozmiarów guza, jego charakteru i jego topografii za pomocą metod diagnostyki obrazowej.
4. Na proces wznowy narażeni są pacjenci z postacią agresywną lub aktywną torbieli tętniakowatej.
5. Lokalizacja obok stawów oraz obecność chrząstek nasadowych utrudnia doszczętne usunięcie zmiany i stwarza techniczne problemy podczas zabiegu operacyjnego.
6. Torbiel aneurysmatyczna najczęściej budzi podejrzenie guza olbrzymiokomórkowego. W przy-

Microscopic examination of an aneurysmal bone cyst demonstrates numerous, extensive vascular cavities and capillaries. Areas of fibrous connective tissue, trabeculae, hemosiderin-loaded phagocytes and osteoclast-type multinucleated giant cells can be found between these cavities [5,10]. An aneurysmal bone cyst is a lesion which requires thorough diagnostic work-up and examinations to establish unequivocal diagnosis as it is liable to be confused with malignant tumors. The expansion of an aneurysmal bone cyst may proceed more rapidly than in malignant tumors and the benign character of the lesion is sometimes doubtful. Differential diagnosis should include giant cell tumor, osteogenic sarcoma, fibrous dysplasia, Ewing's sarcoma and eosinophilic granuloma [5,10]. Within our study group of 40 patients, the results were inconclusive in 12 cases and required differential workup for giant cell tumor of bone, a diagnosis of which was confirmed in five of the patients. Apart from standard histopathological examinations, additional methods were introduced to increase the certainty of diagnosis in such cases. These methods included immunohistochemical and immunophenotypal testing, cytogenetic studies and biochemical analysis of tumor tissue samples.

CONCLUSIONS

1. Surgical treatment of aneurysmal bone cysts enables radical excision of the lesion with same-time histopathological verification.
2. The basis of effective treatment of primary and recurring aneurysmal bone cysts consists in complete resection of all tissues lining the cyst and any of its components from the surrounding soft tissues.
3. An effective plan of surgical treatment of aneurysmal bone cyst aimed at reducing the risk of tumor recurrence relies crucially on precise determination of its size, characteristics and topography via imaging workup.
4. Relapses are most common in patients suffering from the aggressive or active form of aneurysmal bone cyst.
5. Tumor location in direct proximity of a joint and the presence of epiphyseal cartilage hinders complete resection of the lesion and gives rise to technical problems during surgery.
6. The diagnosis of aneurysmal bone cyst most often leads physicians to assume the presence of

padku jego potwierdzenia po zabiegu operacyjnym pacjenta należy poddać uzupełniającej radioterapii.

7. Pacjenci z torbielą tętniakowatą wymagają długiego czasu obserwacji ze względu na możliwość późnych nawrotów guza.

a giant cell tumor. If this diagnosis is confirmed following surgery, the patient should be subjected to additional radiotherapy.

7. Patients suffering from aneurysmal bone cyst require a long follow-up due to the possibility of late recurrence of the tumor.

PIŚMIENNICTWO / REFERENCES

- Borejko M, Dziak A. Badanie radiologiczne w ortopedii. PZWL, Warszawa 1979.
- Dominok GW, Knoch HG. Nowotwory i guzopodobne choroby kości. PZWL, Warszawa 1985; 59-66, 137-150, 307-338.
- Jaffe HL. Guzy i guzopodobne zmiany kości i stawów. PZWL, Warszawa 1966; 63-75, 117-141.
- Schajowicz F. i wsp. Types histologiques des tumeurs des os. Organisation Mondiale de La Sante Geneva 1972.
- Marciniak W, Szulc A. (red). Wiktora Degi Ortopedia i Rehabilitacja. PZWL, Warszawa 2003 t. 2. rozdz. 62.
- Campanacci M, Bertoni F, Bacchini P. Unicameral and aneurysmal bone cysts. Clin. Orthop., 1986; 204: 25-36.
- Freiberg AA, Loder RT, Heidelberger KP, Hensinger R.N.: Aneurysmal bone cyst in young children. J Pediatr Orthop 1994; 14: 86-91.
- Gitelis S, Wilkins R, Conrad EU. Benigne bone tumors. J. Bone Joint Surg., 1995; 77-A: 1756-1782.
- Kransdorf MJ, Sweet DE. Aneurysmal bone cyst: concept controversy clinical presentation and imaging. Am. J. Roentgenol., 1995, 164 (3): 573-580.
- Groniowski J, Kruś S. Podstawy patomorfologii. PZWL, Warszawa 1984, rozdz. 29
- McQueen MM, Chalmers J, Smith GD. Spontaneous healing of aneurysmal bone cysts. A raport of two cases. J. Bone Joint Surg. 1985; 67-B: 310-312.
- CopeLand CX, Eneking WF, Robbins WJ. Aneurysmal bone cyst of the patella. A report of two cases. Clin. Orthop., 1966; 45: 145-150.
- Marcove RC, Sheth DS, Takemoto S, Healey JH. The treatment of aneurysmal bone cyst. Clin Orthop 1995; 311: 157-163.
- Capanna R, Bettellini G, Biagina R. Aneurysmal bone cysts of long bones. Ital. J. Orthop. Traumatol., 1985; 11: 409-415.
- Skolarczyk A, Gryboś J, Dąbrowska D, Czerwiński E. Tętniakowate torbiele kostne kończyny górnej – wyniki operacyjnego leczenia. Pol. Hand. Surg., 1988; 1 (11): 39-42.
- Enneking WF. Staging of musculoskeletal neoplasma. Skeletal Radiol., 1985 13: 183-190.
- Lodwich GS, Wilson AJ, Farrell C, Virtama P, Dittrich F. Determing growth rates of focal lesions of bone from radiographs. Radiology, 1980; 134: 577-580.
- Caso-Martines J i wsp. En-block resection of the distal fibula for aneurysmal bone cyst. Acta. Orthop. Belg. 1993; 59 (1): 87-89.
- Cottalorda J, Bollini G. i wsp.: Le kyste aneurysmal des os chez l'enfant Rev. Chir. Orthop. 1993; 79 (4): 272-280.
- Komiya S. i wsp. Simple bone cyst treatment by trepanation and studies on bone resorptive factor in cyst fluid with a theory of its pathogenesis. Clin. Orthop., 1993; 287: 204-211.
- Windhager R. i wsp.: Die aneurysmatische Knochenzyste. Orthopadie, 1995; 24 (1): 57-64.
- Capanne R. i wsp.: Juxtaepiphyscal aneurysmal bone cyst. Skeletal Radiol., 1985; 13,21.
- Goel S. i wsp. Allogenic decalbone in the repair of benign cystic lesions of bone. Int. Orthop., 1992; 16 (2): 176-179.
- Becker W. Recidivdiagnostik und Recidivtherapie bei liegender Knochenzementplombe in der Behandlung der Risenzell-tumors. Zeitschr. Orthop., 1989; 127: 379-381
- Harle A, Wuisman P.Kurettage von Risenzelltumoren mit temporarer Implantation von Knochenzement. Zeitschr. Orthop., 1989; 127: 382-386.
- Willert HG, Enderle A. Die Rolle der Knochenzementplombe bei der intralasionalen Tumorbehandlung. Zeitschr. Orthop. 1989; 127; 376-378.
- Freser RK, Coates CJ, Cole WG. An angiostatic agent in treatment of a recurrent aneurysmal bone cyst. J. Pediatr. Orthop. 1993; 13: 668-671.

Liczba słów/Word count: 5192

Tabele/Tables: 5

Ryciny/Figures: 0

Piśmiennictwo/References: 27

Adres do korespondencji / Address for correspondence

dr n. med. Patryk Tomasik

Samodzielny Publiczny Wojewódzki Szpital Chirurgii Urazowej im. Dr. Janusza Daaba
41-940 Piekary Śląskie, ul. Bytomska 62, tel/fax: (0-32) 39-34-100, e-mail: oltom@onet.eu

Otrzymało / Received

15.05.2008 r.

Zaakceptowano / Accepted

16.09.2009 r.